Université Fédérale
Toulouse Midi-Pyrénées

THÈSE

En vue de l'obtention du
DOCTORAT DE L'UNIVERSITÉ DE TOULOUSE
Délivré par l'Université Toulouse 3 - Paul Sabatier

Présentée et soutenue par

Marie VERNET

Le 6 janvier 2023

Implication des processus perceptifs, visuo-attentionnels et oculomoteurs dans les difficultés d'apprentissage de la lecture chez les enfants atteints de neurofibromatose de type 1

Ecole doctorale : **CLESCO - Comportement, Langage, Education, Socialisation, Cognition**

Spécialité : **Neuropsychologie**

Unité de recherche :
ToNIC-Toulouse NeuroImaging Center (UMR 1214)

Thèse dirigée par
Yves CHAIX et Stéphanie DUCROT

Jury

M. Bernard Lété, Rapporteur
M. Arnaud Roy, Rapporteur
M. Grégoire Borst, Examinateur
Mme Mélanie Jucla, Examinatrice
M. Yves Chaix, Directeur de thèse
Mme Stéphanie Ducrot, Co-directrice de thèse

Université Toulouse 3 - Paul Sabatier
ToNIC - Toulouse NeuroImaging Center (UMR 1214)

THÈSE

Pour obtenir le grade de
DOCTEUR DE L'UNIVERSITÉ
Spécialité Neuropsychologie

Implication des processus perceptifs, visuo-attentionnels et oculomoteurs dans les difficultés d'apprentissage de la lecture chez les enfants atteints de neurofibromatose de type 1

Marie VERNET

Présentée et soutenue publiquement
le 6 janvier 2023

Co-direction de thèse

Yves CHAIX, Professeur des universités-praticien hospitalier, Université Toulouse 3 - Paul Sabatier
Stéphanie DUCROT, Chargée de recherche CNRS, Aix-Marseille Université

Jury

Bernard LÉTÉ, Professeur des universités, Université Lumière Lyon 2 (rapporteur)
Arnaud ROY, Professeur des universités, Université d'Angers (rapporteur)
Grégoire BORST, Professeur des universités, Université de Paris (examinateur)
Mélanie JUCLA, Maîtresse de conférences, Université Toulouse 2 - Jean Jaurès (examinatrice)

Remerciements

Ce travail de thèse est le fruit d'une aventure collective qui au travers de rencontres et d'interactions humaines a pu voir le jour. Dans ce cadre, je souhaite avant tout remercier chaleureusement mes directeurs, Yves Chaix et Stéphanie Ducrot, de m'avoir accordé leur confiance pour la réalisation de ce projet et d'avoir été présents tout au long de ce travail. Cette thèse est en réalité notre travail. Stéphanie, depuis plus de 6 ans, tu as su m'accompagner, m'aiguiller, me former et me soutenir. Ce parcours, je n'aurais pas pu l'accomplir sans ton accompagnement. Yves, je tenais à te remercier d'avoir accepté de m'encadrer sans même me connaître. J'ai eu beaucoup de chance de travailler à tes côtés : ta bienveillance, ton efficacité et ta rigueur m'ont énormément apporté.

Je tiens également à remercier Bernard Lété et Arnaud Roy, qui m'ont fait l'honneur d'expertiser ce travail de thèse. Merci également à Grégoire Borst et Mélanie Jucla qui ont accepté de faire partie de mon jury de thèse et d'évaluer mon travail. C'est un honneur pour moi de bénéficier de vos expertises respectives et de pouvoir échanger avec vous sur cette thèse lors de la soutenance.

Je souhaite aussi adresser mes remerciements à Marianne Jover et Emmanuel Barbeau pour avoir fait partie de mon comité de suivi de thèse. Vos conseils ont su faire évoluer mon travail. Marianne, je voulais spécifiquement te remercier pour ton soutien. Dès mon Master 2, tu as su me faire confiance pour l'organisation des conférences DYSTAC-MAP et je suis ravie d'avoir eu l'opportunité de collaborer avec toi sur des projets de publications d'articles.

Dans ce cadre, j'aimerais également remercier l'équipe DYSTAC-MAP dans laquelle j'ai été accueillie avec beaucoup de bienveillance. Je veux remercier particulièrement Jérémy Danna, Stéphanie Bellocchi, Jessica Tallet et Maëlle Biotteau pour nos échanges et nos collaborations qui ont enrichis mes travaux de thèse.

Cette thèse a également été le lieu de collaborations entre deux centres hospitaliers et deux laboratoires de recherche. Je tiens à remercier le Dr Frederic Audic et le Dr Chloé Di Meglio d'avoir accepté de faire partie de ce projet et de m'avoir accueilli au CERTA de Marseille pour les journées de bilans. Je souhaite également adresser mes remerciements à Nathalie et Stéphanie, psychologues spécialisées en neuropsychologie, ainsi qu'à Danièle et Margaux qui m'ont immédiatement intégrée au service du CRTLA du CHU de Toulouse. Mes remerciements vont aussi à Cathy et Stéphanie du Laboratoire Parole et Langage et à Maryline du laboratoire ToNIC qui m'ont toujours aidée avec beaucoup de gentillesse dans les nombreuses démarches à réaliser.

Par ailleurs, il est important de souligner que cette thèse n'aurait pas pu être réalisée sans le soutien précieux de la Fondation de France et de l'Association Neurofibromatoses et Recklinghausen

qui ont financé une partie de ce projet et m'ont permis de dédier mon temps pleinement à sa réalisation, un grand merci pour leur aide. De la même manière, je souhaite sincèrement remercier l'ensemble des enfants et de leur famille pour leur implication dans ce projet. Ils constituent le sens même de mon travail et je ne saurais les remercier suffisamment pour leur contribution à cette recherche. Merci beaucoup aux enfants d'avoir participé avec enthousiasme aux bilans neuropsychologiques réalisés.

Il m'est impossible d'oublier l'ensemble des personnes que j'ai pu rencontrer lors de cette belle aventure de thèse que ce soit à Aix-en-Provence ou à Toulouse. Merci à Ève, Marie-Charlotte, Giusy, Sneza, Marie, Lauriane, Airelle, Émilie, Alexandre, Eiber, Cloter, Axel et tous les doctorants de l'Open Space, mais aussi à l'ensemble des membres du laboratoire ToNIC qui ont rendu la fin de ma thèse beaucoup plus légère, spécifiquement, Wafae, Adeline, Karel, Giulia, Mathilde, Adrien, Élodie, Sarah, Julien, Sabrina, Maxime et Jérôme. Enfin, je veux sincèrement remercier mes amies du bureau E304, Lisa, Éloïse et Stéphanie, pour les supers moments de partage et de soutien, toujours authentiques et agréables. Je n'oublierai jamais ce que nous avons vécues toutes ensemble.

Je souhaite aussi adresser un mot à mes amis de l'association ParenThèse Occitanie. Merci à vous pour toutes ces belles journées de rédaction qui m'ont permis de faire des rencontres formidables et d'avancer à vos côtés. Un merci particulier à mes amies Jeanne, Katia et Marcela, qui ont rendu ces journées et week-ends de rédaction tellement agréables. Nous arrivons ensemble au bout de la fameuse « dernière ligne droite ».

Enfin, au-delà du cadre académique, cette thèse a rythmé ma vie durant 4 années et je souhaite sincèrement remercier mes amis qui ont partagé avec moi les moments de joies et de stress et avec qui j'ai vécu de très beaux instants. Merci Cassandre, Nour, Maïté, Alison, Vincent, Brandon, Laure, Nico, Guillaume, Ophélia, Andréa, Mélissa, Clara, Victor et à tous mes amis du TCMS basket et de la collocation du 15ème. Sans vous tous, l'aventure n'aurait pas été la même.

Je souhaite tout particulièrement remercier les membres de ma famille pour leur soutien sans faille et leur compréhension. L'aventure n'a pas toujours été facile, mais nous avons su surmonter les dures épreuves de la vie tous ensemble et votre soutien est au cœur de cette réussite. À ma mère, mon père, ma sœur, mes grands-parents, Owen, Eddy, sans oublier ma marraine et mon parrain ainsi que Bébert et Christophe, tout ça, c'est grâce à vous. Spécifiquement, merci à toi maman pour tout ton soutien et tes nombreuses heures de relecture, et à toi papa qui a été chaque jour ma source de motivation pour aller au bout de ce travail. À vous également, Antho, Sierra et Tiroux mes compagnons du quotidien. Antho, je te remercie pour ta présence, ton soutien, ta compréhension chaque jour de ces 4 années et bien plus. Cette belle aventure, tu l'as vécue avec moi et je t'en remercie du fond du cœur.

À toi,
mon papa…

Sommaire

Remerciements ..... **i**

Sommaire ..... **v**

Liste des figures ..... **xi**

Liste des tableaux ..... **xiii**

Acronymes principaux ..... **xv**

Avant-propos **1**

1. Émergence du projet de thèse 1
2. Enjeux cliniques 2
3. Structure du manuscrit 2

Partie théorique **3**

Chapitre 1 - La Neurofibromatose de type 1 (NF1) **5**

4. Généralités 5
   - 4.1. Critères diagnostiques 5
   - 4.2. Caractéristiques génétiques 6
   - 4.1. Manifestations et complications cliniques 6
5. Profils neuropsychologiques 7
   - 5.1. Efficience intellectuelle 7
   - 5.2. TDAH et processus attentionnels 8
   - 5.3. Fonctions exécutives 9
   - 5.4. Langage oral 10
   - 5.5. Mémoire à long terme 11
   - 5.6. Spécificités neurologiques et troubles cognitifs associés 11

6. Scolarité et troubles des apprentissages 14
6.1. Troubles des apprentissages 14
6.2. Focus sur les troubles de la lecture 15
6.3. Réussite scolaire et devenir académique 17

Chapitre 2 - Processus perceptifs et visuo-attentionnels impliqués dans la lecture **..... 19**

1. Système anatomo-fonctionnel du traitement visuel 19
1.1. Voies de traitement de l'information visuelle 19
1.2. Spécialisation cérébrale pour l'activité de lecture 21
2. Contraintes perceptives et attentionnelles de la prise d'information visuelle 22
2.1. Limites perceptives et attentionnelles 22
2.2. Guidage oculaire et prétraitement parafovéal 24
2.3. Position de fixation du regard dans les mots 28
3. Émergence des stratégies perceptives et visuo-attentionnelles pour l'accès lexical 30
3.1. Codage orthographique et accès lexical dans l'apprentissage de la lecture 30
3.2. Développement des limites perceptives pour la prise d'informations visuelles 32
3.3. Spécificités des processus visuo-attentionnels chez le jeune lecteur 33
3.4. Niveau de traitement perceptif global-local 34
3.5. Optimisation du comportement oculaire au cours de l'apprentissage 37
4. Déficits perceptifs et visuo-attentionnels dans les troubles de la lecture 38
4.1. Spécificités des processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels 38
4.2. Hypothèse magnocellulaire-dorsale de la dyslexie 40
4.3. Stratégie inefficiente du niveau d'analyse perceptive 41
4.4. Comportement oculaire dans la dyslexie développementale 42

Chapitre 3 - Déficit des processus visuels dans la NF1 : une revue systématique de littérature **..... 45**

A systematic review on visual-processing deficits in Neurofibromatosis type 1: what possible impact on learning to read? **..... 46**

1. Introduction 47
2. Method 51
2.1. Eligibility criteria 51
2.2. Information sources and search strategy 51
2.3. Selection process 51

3. Results 53
3.1. Visuo-perceptual processing. 58
3.2. Perceptivo-motor processes 61
3.3. Visuo-attentional processes. 62
4. Discussion 64

Problématique 71

1. Problématique du travail de thèse 71
2. Questions de recherche 72
3. Études expérimentales de la thèse 75
3.1. Étude Help Reading NF1 76
3.2. Étude DYSTAC MAP 77

Partie expérimentale 79

Chapitre 4 - Prévalence des troubles visuo-perceptifs et visuo-attentionnels : quel lien avec la lecture ? **81**

1. Étude 1 – Prévalence des difficultés perceptives, visuo-motrices et visuo-attentionnelles dans une cohorte d'enfants atteints de NF1 âgés de 6-8 ans 82
1.1. Méthode 82
1.2. Résultats 87
1.3. Synthèse des résultats et discussion intermédiaire 89
2. Étude 2 – Prévalence des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles dans une cohorte d'enfants atteints de NF1 âgés de 8-12 ans 90
2.1. Méthode 91
2.2. Résultats 94
2.3. Synthèse des résultats 100
3. Discussion générale du chapitre 101
3.1. Fréquence des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles chez les enfants atteints de NF1 101
3.2. Impact de la présence d'un trouble de lecture comorbide dans les difficultés visuelles observées 102
3.3. Utilité du DEM-test comme outil clinique de dépistage 104

Chapitre 5 - Spécificités du contrôle oculaire et du contrôle inhibiteur chez les enfants atteints de NF1 avec et sans déficit en lecture **107**

1. Partie 1 : Stratégies de programmation saccadique 108
   1.1. Méthode 109
   1.2. Résultats 112
   1.3. Synthèse des résultats 117
2. Partie 2 : Spécificités du contrôle inhibiteur 118
   2.1. Méthode 119
   2.2. Résultats 123
   2.3. Synthèse des résultats 123
3. Discussion générale du chapitre 5 124
   3.1. Stratégies du contrôle oculaire spécifiques aux compétences en lecture 124
   3.2. Déficit du contrôle inhibiteur spécifique à la NF1 126

Chapitre 6 - Dépistage et remédiation des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles nécessaires à l'acquisition de la lecture **129**

1. Partie 1 : Dépistage précoce des difficultés de lecture 130
   1.1. Méthode 131
   1.2. Résultats 134
   1.3. Synthèse des résultats 144
2. Partie 2 : Évaluation d'un outil d'aide à la lecture 145
   2.1. Méthode 146
   2.2. Résultats 149
   2.3. Synthèse des résultats 152
3. Discussion générale du chapitre 6 153
   3.1. Identification précoce des enfants à risque de présenter des difficultés de lecture 153
   3.2. Outil d'aide à la lecture visant à optimiser la programmation saccadique 155

Discussion générale 159

Chapitre 7 - Discussion générale **161**

1. Discussion des principaux résultats du travail de thèse 161
   1.1. Rappel des objectifs 161
   1.2. Implications des processus visuels dans les difficultés de lecture 162

1.3. Déficit du contrôle inhibiteur : une spécificité du profil cognitif associée à la NF1 164
1.4. Quelle est la nature du lien entre les profils cognitifs observés et la lecture ? 165
2. Limites principales de la thèse 168
2.1. Effectifs 168
2.2. Critères d'inclusion : la question du TDAH 169
3. Perspectives de recherche et applications cliniques 170
3.1. Perspectives à moyen terme 170
3.2. Perspectives à long terme 173

Bibliographie 177

Annexes 211

Annexe 1. Illustration des épreuves du DTVP-3 (Hammill et al., 2014) 213
Annexe 2. Exemple de planches de test à la tâche du JLO (Benton, 1978) 214
Annexe 3. Illustration des planches du DEM-test (Garzia et al., 1990; Richman, 2009) 215
Annexe 4. Stimuli utilisés dans la tâche de bissection oculaire présenté dans la partie 1 du chapitre 5 217
Annexe 5. Illustration de la planche du test du test OURA LEC (Billard et al., 2013) 218
Annexe 6. Illustration des tâches du logiciel VISA-kids (Leibnitz, 2015b, 2016) 219
Annexe 7. Stimuli utilisés pour l'étude de l'outil d'aide à la lecture présenté dans la partie 2 du chapitre 6 220

Liste des figures

Figure 1. Représentation schématique du processus de traitement de l'information visuelle de l'œil au cortex. 21

Figure 2. Représentation schématique des limites perceptives et attentionnelles contraintes par le système visuel, adaptée de Leibnitz et al. (2015). 24

Figure 3. Représentation graphique des ILPs optimales pour l'identification des mots écrits avec l'OVP en vision fovéale (partie gauche de la figure), la PVL dans le CVG (partie centrale de la figure) et la PVL dans le CVD (partie droite de la figure). 29

Figure 4. Représentations graphiques illustrant deux distributions différentes de l'attention sur le mot « image » selon le modèle BRAID (graphiques adaptés de Ginestet et al., 2019). 32

Figure 5. Exemples de stimuli hiérarchiques utilisés pour étudier les différents niveaux d'analyse perceptive. 35

Figure 6. Flow diagram of the study selection process for the present systematic review. 53

Figure 7. Fréquence des difficultés dans les processus visuels et linguistiques évalués en fonction de la présence ou non de difficultés de lecture. 89

Figure 8. Fréquence des difficultés des processus visuels et linguistiques en fonction du groupe de lecture. 98

Figure 9. Distribution des données pour tous les indices du DEM-test chez les enfants atteints de NF1 avec ou sans déficit en lecture et les enfants au développement typique. 99

Figure 10. Analyses de courbes ROC pour chaque indice DEM-test entre les enfants présentant une NF1 avec et sans déficit en lecture. 100

Figure 11. Description de la procédure utilisée dans la tâche de bissection oculaire latéralisée. 111

Figure 12. Distributions individuelles des ILPs dans les mots présentés dans le CVD chez les enfants NF1nonDL (i.e., partie gauche de la figure) et NF1+DL (i.e., partie droite de la figure). 114

Figure 13. Comparaison de la fréquence des ILPs pour les mots dans le CVD entre les 4 groupes d'enfants. 115

Figure 14. Fréquence d'atterrissage de la saccade initiale (en pourcentage) pour chaque position des mots en fonction de l'âge de lecture (en mois) et du groupe. 116

Figure 15. Distributions des ILPs (en pourcentage) selon les 3 clusters identifiés pour tous les groupes d'enfants confondus. 117

Figure 16. Description de la procédure utilisée dans la tâche de Stroop informatisée. 122

Figure 17. Profil de performances de GC aux différentes épreuves réalisées en maternelle et au CP. 138

Figure 18. Profil de performances de SN aux différentes épreuves réalisées en maternelle et au CP. 142

Figure 19. Description de la procédure utilisée dans la tâche de décision lexicale évaluant l'intérêt d'un outil d'aide à la lecture. 148

Figure 20. Proportion d'enfants présentant un bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle chez les participants présentant des difficultés de lecture (NF1+DL) et les lecteurs typiques (NF1nonDL). 152

Figure 21. Représentation schématique de la proportion d'enfants présentant des difficultés dans les processus visuels, de conscience phonologique et d'inhibition cognitive chez les enfants NF1 avec (NF1+DL) et sans (NF1nonDL) déficit en lecture. 167

Figure 22. Représentation de l'hypothèse du lien causal réciproque entre les profils cognitifs et les déficits en lecture, médié par les facteurs environnementaux. 168

Liste des tableaux

Tableau 1. Critères diagnostiques révisés de la NF1 définis par Legius et al. (2021). 6

Table 2. Tests used in studies on NF1 children assessing visual processes involved in reading. 52

Table 3. Characteristics of the studies selected in this systematic review. 54

Table 4. Schematic summary of the NF1 children's performance compared to the comparison groups for the different visual processes of interest. 57

Tableau 5. Tableau récapitulatif des deux protocoles inclus dans l'étude Help Reading NF1. 76

Tableau 6. Tableau récapitulatif du protocole inclus dans le projet ANR DYSTAC-MAP..... 77

Tableau 7. Caractéristiques démographiques et performances aux tests psychométriques des enfants présentant une NF1 (avec ou sans difficultés de lecture). 83

Tableau 8. Répartition des performances perceptives et visuo-attentionnelles chez les enfants avec une NF1. 87

Tableau 9. Caractéristiques démographiques et performances aux tests psychométriques des enfants présentant une NF1 en comparaison aux enfants au développement typique. 95

Tableau 10. Résultats des enfants présentant une NF1 avec ou sans déficit en lecture aux tests psychométriques. 97

Tableau 11. Moyenne de la taille de la saccade initiale (en caractères) en fonction de la nature du stimulus, du champ visuel d'apparition et du groupe d'enfants. 113

Tableau 12. Caractéristiques démographiques et performances d'identification des couleurs à la tâche de Stroop informatisée en fonction du type de stimulus chez les enfants atteints de NF1 (avec ou sans déficit en lecture) et les enfants au développement typique. 120

Tableau 13. Caractéristiques démographiques et performances aux tests psychométriques des huit enfants atteints de NF1 en maternelle et au CP. 136

Tableau 14. Performances brutes de GC aux tests psychométriques en maternelle et résultats des analyses de comparaisons de Crawford et Garthwaite (2002) par rapport aux données normatives. 139

Tableau 15. Performances brutes de GC aux tests de lecture au CP et résultats des analyses de comparaisons de Crawford et Garthwaite (2002) par rapport aux données normatives. 141

Tableau 16. Performances brutes de SN aux tests psychométriques en maternelle et résultats des analyses de comparaisons de Crawford et Garthwaite (2002) par rapport aux données normatives. 143

Tableau 17. Performances brutes de SN aux tests de lecture au CP et résultats des analyses de comparaisons de Crawford et Garthwaite (2002) par rapport aux données normatives..... 143

Tableau 18. Moyennes des pourcentages de réponses correctes et des temps de réponse (en millisecondes) à la tâche de décision lexicale en fonction de la lexicalité, de la fréquence et de la saillance de la lettre située à la PVL chez les enfants ayant une NF1 avec ou sans difficulté en lecture. 150

Acronymes principaux

AL : âge de lecture (test de l'Alouette)

CM : précision de lecture (test de l'Alouette)

CTL : vitesse de lecture (test de l'Alouette)

CVD : champ visuel droit

CVG : champ visuel gauche

DD : enfants présentant une dyslexie développementale

DT : enfants au développement typique

DS : déviation standard

ET : écart-type

EVA : empan visuo-attentionnel

GVP : indice de perception visuelle générale (DTVP-3)

HE : erreurs horizontales (DEM-test et/ou Module 1 Diaglect)

HTaj : temps horizontal ajusté (DEM-test et/ou Module 1 Diaglect)

ILP : position initiale d'atterrissage de l'œil dans les mots (*initial landing position*)

JLO : jugement d'orientation de lignes

M : moyenne

MVP : indice de perception visuelle avec implication motrice réduite (DTVP-3)

NC : note composite

NF1 : neurofibromatose de type 1

NF1+DL : enfants atteints de NF1 ayant des difficultés de lecture

NF1nonDL : enfants atteints de NF1 sans difficulté en lecture

NS : note standard

NSE : niveau socio-éducatif

OVP : position optimale de fixation en vision fovéale (*optimal viewing position*)

PVL : position préférée d'atterrissage en vision parafovéal (*preferred viewing location*)

QIT : quotient intellectuel total,

RAN : dénomination rapide (*Rapid Automatized Naming*)

TDAH : trouble déficitaire de l'attention/hyperactivité

VMI : indice d'intégration visuo-motrice (DTVP-3)

VT : temps vertical (DEM-test et/ou Module 1 Diaglect)

Avant-propos

1. Émergence du projet de thèse

Ce travail de thèse est le fruit de rencontres qui ont influencées, guidées mon parcours universitaire de psychologie débuté à Aix-Marseille Université. Ma rencontre avec Laurie Leibnitz en Licence a été un tournant décisif dans ce parcours et a abouti à des travaux de recherche au cours de deux années Master sous la direction de Stéphanie Ducrot sur la thématique de l'implication des processus visuels dans les difficultés de lecture. En parallèle, les collaborations mises en place entre les centres de recherche d'Aix-Marseille et de Toulouse dans le cadre de l'ARN DYSTAC-MAP ont été à l'origine du projet de thèse, avec l'idée d'une collaboration entre Yves Chaix, spécialiste de la NF1, et Stéphanie Ducrot, spécialiste de l'étude des processus visuels impliqués dans l'activité de lecture. Mon implication dans ce projet est apparue comme la suite logique de mon travail, à la fois en adéquation avec mes précédentes recherches mais aussi avec mon souhait d'effectuer à la fois de la recherche et de la clinique auprès des patients. J'ai ainsi pu, durant cette thèse, faire le lien entre deux laboratoires de recherche (laboratoire ToNIC INSERM de Toulouse et Laboratoire Parole et Langage d'Aix-en-Provence) et deux centres hospitaliers, dans lesquels j'ai effectué les bilans neuropsychologiques nécessaires à la réalisation de ce projet (CHU de Toulouse avec le Pr Yves Chaix et le Dr Eloïse Baudou et CHU de la Timone à Marseille en collaboration avec le Dr Frédérique Audic et le Dr Chloé Di Meglio).

Il est également important de souligner que cette thèse a pu être menée grâce à l'obtention de différents financements au cours de ces années. Ma première année a été financée au travers d'une vacation d'ingénieur d'études au Laboratoire Parole et Langage (financements APEX Région PACA et Amidex), puis l'obtention d'une bourse de 2 ans et 3 mois attribuée par la Fondation de France (allocation jeune chercheur en neuro-ophtalmologie) a permis de compléter le premier financement. Plusieurs difficultés ont été rencontrées au cours de la thèse, ralentissant significativement la finalisation de ce travail. Les délais d'autorisations du CPP ainsi que la période de crise sanitaire ont considérablement impacté la réalisation de ce projet, nécessitant une année supplémentaire de thèse. Le soutien de l'association Neurofibromatoses et Recklinghausen au travers de 6 mois de subvention a été véritablement décisif pour la finalisation de ce travail. Enfin, les derniers mois de thèse ont pu être financés grâce à l'obtention d'un contrat d'ATER à temps plein à l'Université Toulouse 2 - Jean Jaurès au sein du département de Psychologie cognitive et Ergonomie et du laboratoire CLLE.

2. Enjeux cliniques

La compréhension des mécanismes cognitifs sous-jacents à la forte prévalence de difficultés de lecture observée chez les enfants atteints de NF1 (près de 50 %) constitue un enjeu majeur puisqu'elle pourrait aboutir à l'amélioration du dépistage, du suivi et de la prise en charge de ces difficultés. Les processus perceptifs, visuo-attentionnels et oculomoteurs constituent des facteurs importants dans l'apprentissage de la lecture. Cette étude nous permettra ainsi de clarifier leurs implications dans l'échec fréquent d'acquisition de la lecture chez les enfants porteurs de la maladie. Un autre enjeu de ce travail consiste donc à étudier l'intérêt d'outils de dépistage et de remédiation de ces difficultés, qui pourraient ensuite être proposés dans la pratique clinique afin d'intervenir sur la trajectoire développementale des enfants. L'enjeu à plus long terme est de pouvoir accompagner les enfants dans leur apprentissage et ainsi, de limiter au maximum les répercussions que les difficultés de lecture peuvent avoir sur la poursuite de la scolarité, l'insertion professionnelle et plus généralement, la qualité de vie de ces personnes, déjà fortement affectée par les complications médicales associées à la maladie.

3. Structure du manuscrit

Ce travail de thèse a finalement permis de faire le lien entre plusieurs domaines de recherche et notamment la sphère médicale avec la NF1 comme objet d'étude, mais aussi la psychologique cognitive et développementale au travers de la question de l'implication des processus visuels dans l'apprentissage de la lecture. Au travers de deux chapitres théoriques, sont présentés dans un premier temps ces deux thématiques indépendamment (**chapitre 1 et 2**). Une revue systématique de littérature a ensuite permis d'étudier les résultats déjà mis en évidence, afin de mieux appréhender la question du lien entre ces deux pans théoriques (**chapitre 3**). La **problématique** a mis en lumière les différentes questions de recherche qui ont abouties à trois chapitres expérimentaux (**chapitre 4, 5 et 6**). Enfin, les différents résultats ainsi que les perspectives cliniques et de recherche qui ont émergées ont été discutés dans le **chapitre 7**.

Partie théorique

Chapitre 1

La Neurofibromatose de type 1 (NF1)

4. Généralités

La neurofibromatose de type 1 (NF1), aussi appelée maladie de Von Recklinghausen, est une maladie neurogénétique qui compte parmi les plus fréquentes. En effet, les données épidémiologiques disponibles attestent d'une prévalence moyenne d'environ 1 individu atteint sur 4 000 à 5 000 personnes (Evans et al., 2010; Huson et al., 1989; Kallionpää et al., 2018) et d'une incidence à la naissance d'environ 1 individu atteints sur 2 000 à 3 500 personnes (Evans et al., 2010; Lammert et al., 2005; Uusitalo et al., 2015). Le ratio homme femme est proche de 1 (Kallionpää et al., 2018), ne permettant donc pas d'observer des différences de prévalence en fonction du sexe.

4.1. Critères diagnostiques

Le diagnostic clinique de NF1 a initialement été défini par les critères énoncés dans la déclaration de la conférence de consensus du NIH (National Institutes of Health, 1988 ; voir notes du Tableau 1). Sur la base de ces critères, la pénétrance de la maladie est totale à l'âge adulte (i.e., 19 ans dans l'étude de DeBella et al. (2000)) avec dès 8 ans 97 % des enfants atteints de NF1 qui présentent au moins deux des caractéristiques cliniques nécessaires pour établir le diagnostic (DeBella et al., 2000). Toutefois, seulement 46 % des enfants atteints d'une forme sporadique de la maladie répondent aux critères diagnostiques à l'âge de 1 an. Face à ces difficultés diagnostiques chez le jeune enfant, notamment dans les formes sporadiques de la maladie, les critères ont été récemment révisés (Legius et al., 2021). Désormais le diagnostic (critères présentés dans le Tableau 1) dépend de la présence d'une forme familiale ou non. De plus, alors qu'initialement l'analyse génétique n'était que rarement réalisée, elle fait désormais partie intégrante des critères médicaux, facilitant ainsi le diagnostic précoce de la maladie.

4.2. Caractéristiques génétiques

La NF1 est une maladie à transmission autosomique dominante qui concerne dans près de la moitié des cas des formes familiales et dans l'autre moitié des formes sporadiques avec une mutation de novo du gène NF1. Ce gène est situé sur le bras long du chromosome 17 en q11.2. Il code pour la neurofibromine, protéine GAP qui permet l'inactivation des protéines RAS, impliquées dans différents processus cellulaires tels que la différenciation, l'apoptose ou encore la migration cellulaire. La neurofibromine agit donc comme un régulateur des processus cellulaires. C'est pour cette raison que le gène NF1 est considéré comme « suppresseur de tumeur » et que dans cette maladie la mutation du gène favorise le développement de tumeurs (Gutmann et al., 2017). Les modèles animaux ont joué un rôle majeur dans la compréhension des mécanismes génétiques associés à la NF1 (e.g., Costa & Silva, 2002; Shilyansky et al., 2011).

Tableau 1. Critères diagnostiques révisés de la NF1 définis par Legius et al. (2021).

Critères	**Description**
A. Critères diagnostiques de la NF1 remplis si au moins 2 des manifestations suivantes sont présentes chez un individu dont aucun parent ne présente un diagnostic de NF1	
• Au moins 6 tâches café au lait*	*Diamètre dépassant 0,5 cm avant la puberté et 1,5 cm ensuite*
• Lentigines axillaires ou inguinales*	*Petites tâches café-au-lait (diamètre < 3 mm) au niveau des aisselles ou de l'aine*
• Au moins 2 neurofibromes ou 1 neurofibrome plexiforme*	*Tumeurs nerveuses à la surface de la peau (cutané), sous la peau (sous-cutané) ou mixte (plexiforme)*
• Gliome des voies optiques*	*Tumeur au niveau des nerfs ou du chiasma optique*
• Au moins 2 nodules de Lisch* ou au moins deux anomalies choroïdiennes	*Nodules de Lisch identifiés à l'examen à la lampe à fente et anomalies choroïdiennes (tâches hyperréflectives) mises en évidence en tomographie par cohérence optique ou en spectroscopie proche infra-rouge*
• Une lésion osseuse caractéristique*	*Dysplasie du sphénoïde, courbure antérolatérale du tibia ou pseudarthrose d'un os long*
• Variante pathogène hétérozygote de la NF1 dans l'analyse génétique	*Fraction d'allèle de la variante de 50 % dans des tissus apparemment normaux tels que les globules blancs*
B. Critères diagnostiques de la NF1 remplis si au moins un critère de *A* est présent dans le cas où un parent répond aux critères diagnostiques définis par *A*	

Notes. Selon la première définition des critères diagnostiques définis par la déclaration de la conférence de consensus du NIH (NIH National Institutes of Health, 1988), si parmi les 6 critères suivis d'une « * » et un critère additionnel (i.e., au moins un apparenté au premier degré atteint), deux ou plus sont remplis, alors le diagnostic de NF1 était établi.

4.1. Manifestations et complications cliniques

De nombreuses complications cliniques sont associées à cette maladie. Ces manifestations touchent différentes sphères du domaine médical : elles peuvent être de nature dermatologique, ophtalmologique, orthopédique, endocrinienne, oncologique, cardiaque, vasculaire ou encore neurologique (Baudou & Chaix, 2020; PNDS, 2021). L'une des spécificités de cette maladie concerne la grande hétérogénéité de son expression clinique, avec des complications médicales très variables

d'un individu atteint à un autre. L'ensemble de ces manifestations a un impact considérable sur le fonctionnement psychologique et social ainsi que sur la qualité de vie des personnes atteintes de NF1 (Cipolletta et al., 2018; Domon-Archambault et al., 2018; Sanagoo et al., 2019). C'est pourquoi le dépistage et la prise en charge des manifestations cliniques constituent des enjeux majeurs dans cette maladie. En France, les directives concernant l'évaluation et la prise en charge thérapeutique sont définis par la Protocole National de Diagnostic et de Soins Neurofibromatose 1 (PNDS, 2021).

5. Profils neuropsychologiques

Outre les complications médicales, les enfants atteints d'une NF1 présentent fréquemment des difficultés dans divers domaines cognitifs incluant notamment le fonctionnement intellectuel, les processus visuels, les fonctions exécutives, l'attention ou encore le langage (pour des revues, voir Crow et al., 2022; Lehtonen et al., 2013). Tout comme pour les manifestations médicales, les profils cognitifs dans la NF1 sont caractérisés par une grande hétérogénéité interindividuelle. Il est donc essentiel de garder en tête que lorsqu'une étude met en évidence un déficit dans une fonction cognitive chez les enfants atteints de NF1, ce déficit ne concerne pas l'ensemble de la cohorte.

Dans cette section, nous allons nous intéresser à l'étude des profils cognitifs fréquemment observés dans la NF1 et aux spécificités neurologiques associées. La question des processus visuels, au centre de la problématique de cette thèse, sera abordée plus en détails dans le chapitre 2.

5.1. Efficience intellectuelle

Les études qui se sont intéressées au fonctionnement intellectuel chez les enfants présentant une NF1 révèlent une prévalence de déficience (i.e., quotient intellectuel total, QIT, au moins inférieur à 70)[1] d'environ 4 à 8 % (Eliason, 1986; Ferner et al., 1996; Hyman et al., 2005; Lehtonen et al., 2015). Cette estimation est légèrement plus élevée que dans la population générale : en France par exemple, la déficience intellectuelle concerne près de 1 à 3 % de la population (Buntinx et al., 2016). Cependant, même dans la NF1, elle ne concerne qu'un pourcentage faible d'individus, ne permettant donc pas d'établir un lien de causalité entre la maladie et la présence d'une déficience intellectuelle.

Le QIT apparait tout de même affaibli dans la NF1. En effet, des différences significatives dans le QIT ont été mises en évidence entre des patients atteints de NF1 et des enfants contrôles et/ou apparentés sains d'âge scolaire et préscolaire (Biotteau et al., 2019; Eldridge et al., 1989; Ferner et al., 1996; Hyman et al., 2005; Lehtonen et al., 2015; Lorenzo et al., 2013; Sangster et al., 2011). Ces résultats restent valables même lorsque les enfants avec déficiences intellectuelles ont été exclus (Roy et al., 2010). Le QIT moyen des enfants avec une NF1 se situe toutefois dans la zone moyenne (i.e., comprise entre 90 et 95 de note composite). Ce léger décalage des points de QI souligne la nécessité de prendre en compte le QIT dans l'interprétation des bilans neuropsychologiques et inversement,

[1] D'un point de vue clinique, il est important de souligner que pour définir ou exclure la déficience intellectuelle, ces études se sont basées principalement sur le critère du QIT. Toutefois, tel que défini dans le DSM-5, elle inclue un déficit des fonctions adaptatives qui peuvent être évaluées à partir de l'échelle de la VINELAND-II par exemple.

d'identifier les potentiels déficits cognitifs qui pourraient expliquer l'échec à certaines épreuves des batteries de QI.

Enfin, certaines études se sont intéressées à la différence entre le QI de performance (QIP) et le QI verbal (QIV). A noter que le QIP est une mesure de l'intelligence fluide tandis que le QIV est une mesure de l'intelligence cristallisée. Il n'y a pas véritablement de consensus concernant la dissociation entre ces deux indices dans la NF1. Certaines études attestent d'un QIP significativement plus faible que le QIV dans la NF1 (Coutinho et al., 2016; Descheemaeker et al., 2005; Eliason, 1986; Lorenzo et al., 2013), tandis que d'autres ne trouvent pas de dissociation entre eux (Ferner et al., 1996; Roy et al., 2010).

5.2. TDAH et processus attentionnels

Les troubles attentionnels dans la NF1 constituent une problématique centrale de la maladie. En effet, de nombreuses études s'accordent sur la prévalence élevée des troubles attentionnels : près de 25 % à 50 % des enfants atteints de NF1 présentent un trouble déficitaire de l'attention/hyperactivité (i.e., TDAH ; Biotteau et al., 2019; Cutting & Levine, 2010; Hyman et al., 2005; Isenberg et al., 2013; Mautner et al., 2002; Payne et al., 2011; Roy et al., 2010). La majorité de ces enfants présentent un sous-type mixte (i.e., inattentif et hyperactif) et près de 35 % un sous-type uniquement inattentif. Très peu d'enfants présentent un sous-type uniquement hyperactif (Hyman et al., 2005; Payne et al., 2011). De manière générale, les enfants atteints de NF1 manifestent des scores significativement plus élevés que les enfants au développement typique aux indices d'hyperactivité/impulsivité et d'inattention au questionnaire de Conners version parents (Arnold et al., 2020; Brei et al., 2014; Pride et al., 2018).

Lorsque l'on s'intéresse plus précisément aux fonctions attentionnelles, les performances d'attention soutenue sont toujours significativement plus faibles chez les enfants avec une NF1 que chez les enfants au développement typique (Arnold et al., 2020; Gilboa et al., 2011; Isenberg et al., 2013; Payne et al., 2021; Pride et al., 2018). Descheemaeker et al. (2005) ont même montré que 65 % de leur échantillon présentaient des performances inférieures à -1 DS dans une épreuve d'attention soutenue, soulignant ainsi une fragilité très fréquente dans ce domaine chez les enfants atteints de NF1. Gilboa et al. (2011) ont aussi révélé que les bonnes réponses dans une tâche d'attention soutenue proposée dans un paradigme de réalité virtuelle étaient négativement corrélées avec le score d'inattention au questionnaire de Conners (version parents) chez les enfants avec une NF1. Les résultats sur l'attention divisée sont en revanche plus controversés. Alors que Hyman et al. (2005) et Pride et al. (2018) ne trouvent pas de différence significative entre les enfants avec une NF1 et les enfants au développement typique, d'autres études attestent de plus faibles performances dans la NF1 (Arnold et al., 2020; Isenberg et al., 2013; Payne et al., 2011, 2021; Watt et al., 2008). Enfin, le processus d'attention visuelle sélective sera détaillé dans le chapitre 2 concernant les processus visuels impliqués dans la lecture.

5.3. Fonctions exécutives

Les difficultés dans les fonctions exécutives seraient un trait caractéristique du profil cognitif des enfants atteints de NF1 (pour une méta-analyse, voir Beaussart et al., 2018). Les fonctions exécutives regroupent différents processus cognitifs qui sont impliqués dans les comportements dirigés vers un but et qui interviennent dans l'adaptation du comportement notamment dans des situations nouvelles (Diamond, 2013; Luria, 1966). Elles se regroupent sous deux versants, la composante cognitive (dite « froide ») et la composante émotionnelle et sociale (dite « chaude »).

La composante froide des fonctions exécutives a beaucoup été étudiée dans la NF1 et révèle des difficultés fréquentes que ce soit dans les processus de planification, d'inhibition, de flexibilité ou encore dans la mémoire de travail (Beaussart et al., 2018; Lehtonen et al., 2013). Plus précisément, les études sur le processus de planification suggèrent des performances inférieures dans ce domaine chez les enfants présentant une NF1 par rapport à des enfants contrôles dans différentes tâches : tour de Londres, labyrinthe ou encore copie de la figure de Rey (Hyman et al., 2005; Payne et al., 2011; Plasschaert et al., 2016; Roy et al., 2010). Ce résultat reste significatif même après contrôle du QI et de l'efficience des processus visuo-spatiaux (Roy et al., 2010). Des difficultés ont également été identifiées dans des tâches plus écologiques, telles que le test de « recherche de clé » et le « test de l'eau » du BADS-C (Gilboa et al., 2014; Riva et al., 2017).

Les processus d'inhibition cognitive sont également affaiblis chez les enfants atteints de NF1 avec des performances significativement moins bonnes que chez les enfants au développement typique au score d'interférence de la tâche de Stroop, aux erreurs de commission de l'épreuve du CPT-II ou encore à la tâche de Flanker (Ferner et al., 1996; Isenberg et al., 2013; Plasschaert et al., 2016; Remigereau et al., 2018). Le même résultat est décrit pour l'inhibition motrice (Beaussart-Corbat et al., 2021; Plasschaert et al., 2016). Nous reviendrons plus en détails sur les résultats à la tâche de Stroop, sous l'angle des processus visuo-attentionnels dans le *Chapitre 3*.

La flexibilité mentale réactive a été étudiée avec différentes épreuves psychométriques : le test de classement de cartes du Wisconsin (WCST), l'épreuve de prédiction de règles de Brixton, le trail making test (TMT) ou encore les subtests de flexibilité de la TEA-CH. Quel que soit le test utilisé, les enfants avec une NF1 présentent en moyenne des performances inférieures aux enfants contrôles (Arnold et al., 2020; Beaussart-Corbat et al., 2021; Descheemaeker et al., 2005; Hyman et al., 2005; Payne et al., 2021; Pride et al., 2018; Roy et al., 2014; mais voir Mazzocco et al. (1995), pour un résultat contradictoire au WCST). Contrairement à ce constat, le processus de flexibilité spontanée n'apparait pas altéré dans la NF1 : les différentes études évaluant les fluences verbales n'ont pas observé de différences significatives entre les enfants atteints de NF1 et les enfants au développement typique (Hyman et al., 2005; Mazzocco et al., 1995; Remigereau et al., 2018; Roy et al., 2014; Watt et al., 2008).

Les résultats sur la mémoire de travail révèlent un empan visuel et verbal réduit chez les enfants atteints de NF1. Mazzocco et al. (1995) rapportaient déjà des performances plus faibles dans la NF1 à l'épreuve d'empan de chiffres de la WISC-R. Hyman et al. (2005) et Payne et al. (2011) corroborent ce résultat. En modalité visuelle, le même résultat est rapporté à l'épreuve des cubes de Corsi et à la tâche de mémoire de travail spatiale de la CANTAB (Chaix et al., 2017; Plasschaert et al., 2016).

En accord avec l'ensemble de ces résultats, des difficultés exécutives sont rapportées dans la vie quotidienne chez les enfants atteints de cette maladie. Le questionnaire de la BRIEF réalisé auprès des parents révèlent des scores à l'indice exécutif général et à l'indice de métacognition plus élevés que chez les enfants au développement typique (Beaussart-Corbat et al., 2021; Payne et al., 2011; Plasschaert et al., 2016; Remigereau et al., 2018). Bien que les résultats aux tâches psychométriques et au questionnaire de la BRIEF arrivent aux mêmes conclusions, il ne semble pas y avoir de corrélations directes entre eux (Payne et al., 2011; Remigereau et al., 2018).

Enfin, en ce qui concerne la dimension affective des fonctions exécutives (composante dite « chaude »), ce pan de recherche a été peu étudié dans la NF1. La majorité des études qui s'y sont intéressées ont utilisé le questionnaire de la BRIEF et révèlent des difficultés de régulation émotionnelle à l'âge scolaire (Lehtonen et al., 2015; Payne et al., 2011; Pride et al., 2010), qui ne sont pas rapportées à l'âge préscolaire (Beaussart-Corbat et al., 2021; Sangster et al., 2011). Concernant la cognition sociale, un défaut de théorie de l'esprit a été mis en évidence (Payne et al., 2016) ainsi que des difficultés dans la reconnaissance des émotions faciales (Allen et al., 2016; Huijbregts et al., 2010; Lewis et al., 2017).

5.4. Langage oral

L'étude du langage oral dans la NF1 a révélé des déficits affectant de nombreux domaines linguistiques. Sur le plan expressif, les enfants atteints de NF1 obtiennent des performances plus faibles par rapport aux enfants contrôles, mais qui restent tout de même dans la zone moyenne (Hyman et al., 2005). Des déficits de langage expressif sont montrés chez les enfants d'âge scolaire mais sont présents dès l'âge préscolaire où des difficultés préexistent déjà chez près de 20 % à 40 % des enfants atteints de NF1 (Brei et al., 2014; Soucy et al., 2012; Thompson et al., 2010). De manière générale, le stock lexical, étudié au travers de tâches de dénomination d'images, apparait réduit dans la NF1 (Hofman et al., 1994; Krab et al., 2008; Mazzocco et al., 1995). L'accès au lexique sémantique est, quant à lui, préservé notamment dans les tâches de fluences verbales, comme décrit dans la section Fonctions exécutives (Hyman et al., 2005; Mazzocco et al., 1995; Remigereau et al., 2018; Roy et al., 2014; Watt et al., 2008). Les processus de dénomination rapide (i.e., RAN, Rapid Automatized Naming) semblent également sans difficulté (Cutting et al., 2000a; Mazzocco et al., 1995; Mazzocco, 2001). Toutefois, la prise en compte du niveau de lecture laisse émerger des différences entre les enfants atteints de NF1 et les enfants au développement typique au niveau du RAN (Cutting & Levine, 2010). Ce point sera rediscuté dans la section Focus sur les troubles de la lecture.

Sur le versant réceptif, les résultats ne font pas consensus : alors que certaines études révèlent des difficultés dans la désignation d'images et la compréhension syntaxique (Arnold et al., 2020; Hyman et al., 2005; Mazzocco et al., 1995), d'autres ne corroborent pas ces résultats (Chaix et al., 2017; Cutting & Levine, 2010; Krab et al., 2008; Watt et al., 2008). Chez les enfants d'âge préscolaire, les études s'accordent sur la présence d'un retard développemental fréquent dans le langage réceptif (Brei et al., 2014; Klein-Tasman et al., 2013; Soucy et al., 2012; Thompson et al., 2010). Par ailleurs, les déficits dans les processus phonologiques sont décrits comme un marqueur du profil cognitif associé à la NF1 (Chaix et al., 2017). Ces difficultés affectent la segmentation, la fusion et la suppression

phonémique, mais aussi la mémoire de travail auditivo-verbale avec notamment la répétition de pseudo-mots et de phrases (Arnold et al., 2020; Chaix et al., 2017; Cutting & Levine, 2010; Mazzocco et al., 1995; Watt et al., 2008).

5.5. Mémoire à long terme

Les quelques études questionnant l'efficience de la mémoire à long terme dans la NF1 ne permettent pas l'émergence d'un consensus : quelle que soit la modalité d'entrée, les résultats divergent. En effet, sur le plan verbal, alors que certaines études témoignent de déficits en mémoire épisodique dans le rappel différé d'une liste de mots (Billingsley et al., 2003a; Ferner et al., 1996), d'autres attestent de performances similaires entre les enfants avec une NF1 et les enfants au développement typique (Descheemaeker et al., 2005; Hyman et al., 2005, 2006; Krab et al., 2008).

De manière similaire, en modalité visuelle, les résultats divergent. Bulgheroni et al. (2019) et Hofman et al. (1994) révèlent des scores en rappel différé de la figure complexe de Rey–Osterrieth (ROCF) significativement plus faibles chez les enfants présentant une NF1 par rapport à des apparentés sains et des enfants contrôles (pour une comparaison à la norme, voir aussi Coutinho et al., 2016). Contrairement à ce résultat, des études rapportent des différences non significatives au *Continuous Visual Memory Test* (CVMT ; Hyman et al., 2005, 2006) et au *Non Verbal Selective Reminding Test* (NVSRT ; Billingsley et al., 2003a; Moore et al., 2000).

5.6. Spécificités neurologiques et troubles cognitifs associés

5.6.1. Objets Brillants Non Identifiés (OBNI)

La NF1 est associée à des spécificités neurologiques à la fois structurelles et fonctionnelles (pour une revue, voir Baudou et al., 2020a). Parmi elles, les Objets Brillants Non Identifiés (OBNI) ont fait l'objet de beaucoup d'intérêt puisqu'ils sont très fréquemment observés dans cette maladie. En effet, près de 65 % à 80 % des enfants porteurs de NF1 présentent des OBNI (Chabernaud et al., 2009; Feldmann et al., 2010; Goh et al., 2004; Roy et al., 2015; Sabol et al., 2011) alors qu'ils ne concernent que 0.8 % à 2.2 % des enfants au développement typique (Baudou et al., 2020a).

Les OBNI sont des zones d'hyperintensité du signal, repérées sur les images IRM en séquence pondérées en T2. L'origine de ces hypersignaux est encore peu établie bien que l'hypothèse d'un défaut de myélinisation prédomine et soit soutenue par des études en histologie et en imagerie de diffusion (Alkan et al., 2005; DiPaolo et al., 1995). Ces hypersignaux peuvent être multiples avec des contours discrets (bien définis) ou diffus et sont préférentiellement localisés dans les ganglions de la base, le thalamus, le tronc cérébral et le cervelet (Baudou et al., 2020b; Sabol et al., 2011). Au-delà de la fréquence élevée des OBNI chez les enfants avec une NF1, leur présence constitue une caractéristique à la fois sensible (sensibilité : 81 %) et spécifique (spécificité : 99 %) à la maladie, notamment chez les enfants âgés jusqu'à 7 ans (Sabol et al., 2011). Avec l'âge, le nombre d'OBNI, leur taille et leur intensité diminuent notamment à l'adolescence et l'âge adulte (Gill et al., 2006; Goh

et al., 2004). Les OBNI qui tendent à disparaitre sont plus fréquemment des lésions discrètes localisées dans les régions sous-corticales (Feldmann et al., 2010; Payne et al., 2014).

Face à la forte prévalence des OBNI et des troubles d'apprentissage dans cette maladie, de nombreuses études se sont intéressées au lien qu'il pouvait y avoir entre elles. Plus que la présence, le nombre ou encore la taille des OBNI, leur localisation notamment thalamique semblerait être un meilleur facteur explicatif de certains troubles cognitifs (Goh et al., 2004; Hyman et al., 2007; Moore et al., 1996). Des études ont notamment mis en évidence un QI et des performances visuo-spatiales inférieures chez les enfants avec des OBNI (notamment discrets) par rapport aux enfants sans OBNI, que ce soit dans les régions thalamiques (Chabernaud et al., 2009; Hyman et al., 2007) ou cérébelleuses (Piscitelli et al., 2012). Une amélioration du QI a été également observée parallèlement à la diminution des OBNI au cours de l'âge dans ces régions (Feldmann et al., 2010; Payne et al., 2014). Chabernaud et al. (2009) suggèrent que les OBNI joueraient un rôle dans les déficits cognitifs au travers d'un dysfonctionnement thalamo-cortical. D'autres études, en revanche, ne permettent pas de corroborer cette observation. Roy et al. (2015) n'identifie pas de lien entre les OBNI (présence, nombre, taille et localisation) et les troubles exécutifs fréquemment observés dans cette population. De même, une étude récente de Baudou et al. (2020b) ne trouve pas de différence entre les enfants avec ou sans OBNI dans les performances visuo-spatiales et métaphonologiques et ce, quelle que soit la localisation des hypersignaux. Ainsi, bien que la présence d'OBNI et de troubles d'apprentissages soit fréquente dans la NF1, les résultats sur leurs possibles liens divergent entre les études.

5.6.2. Anomalies structurelles

Sur le plan macrostructural, le volume cérébral apparait supérieur chez les enfants atteints de NF1 par rapport aux enfants au développement typique : une macrocéphalie est retrouvée chez près de 50 % des enfants atteints de NF1 (Cutting et al., 2000b) avec une augmentation plus marquée de la matière blanche que de la matière grise (Duarte et al., 2014; Violante et al., 2013a). À noter que Cutting,et al. (2000b) ont montré qu'il n'y avait pas de lien entre la macrocéphalie et la présence d'OBNI, pourtant toutes deux très fréquemment observées dans la NF1. En accord avec l'augmentation du volume intracrânien, le volume d'un certain nombre de structures cérébrales a été rapporté comme plus important notamment au niveau de l'hippocampe, du thalamus, du striatum, de l'amygdale, du noyau accumbens et du corps calleux (Aydin et al., 2016; Huijbregts et al., 2015; Violante et al., 2013a). Huijbregts et al. (2015) ont également constaté un volume de matière grise plus faible que chez les enfants au développement typique dans les régions frontales et pariétales. Malgré un volume cérébral augmenté dans la NF1, une gyrification corticale réduite est rapportée principalement dans les lobes frontaux et temporaux, mais aussi au niveau de l'insula, du cortex cingulaire, pariétal et occipital (Violante et al., 2013a).

Les quelques études portant sur le lien entre les anomalies volumétriques et les profils neuropsychologiques des enfants atteints de NF1 suggèrent que l'augmentation du volume de substance blanche et de substance grise dans certaines régions spécifiques est associée à des difficultés cognitives spécifiques. Huijbregts et al. (2015) ont notamment montré que l'augmentation du volume de l'amygdale droite et du putamen gauche sont significativement corrélées aux fonctions exécutives évaluées par des questionnaires (i.e., BRIEF et DEX). Par ailleurs, une asymétrie plus importante du

volume des noyaux caudés en faveur du côté droit a été mis en lien avec l'augmentation d'un comportement d'inattention (Schrimsher et al., 2002). L'asymétrie augmentée du planum temporal est, quant à elle, associée à de moins bonnes performances académiques en lecture et mathématiques.

Sur le plan microstructurel, l'imagerie de diffusion a révélé une diminution de la fraction d'anisotropie et une augmentation du coefficient de diffusion (Alkan et al., 2005). Le lien entre cette anomalie et le fonctionnement cognitif a été très peu étudié. Des corrélations négatives ont été montrées entre : (1) le coefficient de diffusion absolu au niveau du genou du corps calleux et les subtests arithmétiques et empan de chiffres de la WISC-R et (2) la fraction d'anisotropie dans la même région et le subtest code de la WISC-R (Aydin et al., 2016). Un lien a également été mis en évidence entre le contrôle inhibiteur et les indicateurs microstructuraux au niveau du thalamus antérieur (Koini et al., 2017).

5.6.3. Anomalies fonctionnelles

Les études d'imagerie fonctionnelle en IRMf témoignent également de dysfonctionnements dans les activations cérébrales en comparaison à des enfants au développement typique. Les études ont révélé une hypoactivation du cortex occipital chez les enfants présentant une NF1 durant une tâche visuelle (Clements-Stephens et al., 2008; Violante et al., 2012), avec une activation plus importante dans l'hémisphère gauche que droit alors que le constat inverse est révélé chez les enfants au développement typique (Billingsley et al., 2004; Clements-Stephens et al., 2008). Deux études ont également mis en évidence un recrutement plus important des régions postérieures (cortex temporal moyen, pariétal et occipital latéral) par rapport aux régions frontales dans des tâches de traitement orthographique et de rotation mentale de chiffres et de lettres (Billingsley et al., 2003b; Billingsley et al., 2004). A noter que les performances comportementales étaient corrélées aux activations fonctionnelles. Les auteurs interprètent ce résultat comme un possible mécanisme de compensation permettant de pallier l'inefficacité fonctionnelle des régions frontales.

Sur le plan attentionnel, une étude a révélé des atypies d'activation au niveau du réseau attentionnel ventral avec une hypoactivation au niveau de la jonction temporo-pariétale et du cortex cingulaire antérieur (CCA). Ces observations ont été mises en lien avec des performances d'attention sélective auditive réduites et un contrôle attentionnel plus faible chez les enfants atteints de NF1 (Pride et al., 2018). Violante et al. (2012) ont également rapporté un défaut de désactivation du réseau par défaut (i.e., default mode network, DMN) lors de tâches de traitement visuel chez les individus atteints de NF1. Ce réseau est généralement activé à l'état de repos, alors qu'il est désactivé dans les tâches cognitives nécessitant un contrôle attentionnel (Raichle, 2015). L'activation anormale du DMN dans la NF1 pourrait être liée au déficit d'attention fréquemment retrouvé dans cette population. En ce sens, une faible désactivation du DMN est associée à des performances inférieures (e.g., des temps de réponse plus longs) et à une activation réduite de certaines régions du cortex visuel. Les résultats de Tomson et al. (2015) suggèrent également un dysfonctionnement du DMN dans la NF1 avec une réduction de la connectivité des régions postérieures vers les régions antérieures avec la méthode d'IRMf au repos.

Enfin la spectroscopie par résonance magnétique a permis d'identifier un dysfonctionnement GABAergique dans le cortex visuel et frontal (Ribeiro et al., 2015; Violante et al., 2016; Violante et

al., 2013b). Les enfants et adolescents présentant une NF1 auraient des taux de GABA/créatine totale significativement plus faibles dans le cortex visuel et le cortex frontal médian par rapport aux sujets au développement typique, alors que les ratios glutamine/créatine totale seraient préservés. Par conséquent, l'équilibre des processus d'excitation et d'inhibition dans ces deux régions serait perturbé dans la NF1 (Ribeiro et al., 2015; Violante et al., 2013b). Le niveau de GABA dans les régions frontales médianes sont corrélées positivement au QI et aux compétences d'inhibition (Ribeiro et al., 2015). Un lien est également supposé entre le faible taux de GABA dans le cortex visuel et l'efficience des processus visuo-spatiaux, fréquemment altérés dans la NF1 (Violante et al., 2013b).

Des études ont également rapporté des dysfonctionnements au niveau des voies magnocellulaire et parvocellulaire de traitement de l'information visuelle (Ribeiro et al., 2012; Violante et al., 2012). Ce point sera abordé plus en détails dans le Chapitre 2.

6. Scolarité et troubles des apprentissages

Les apprentissages scolaires tels que la lecture, les mathématiques ou encore l'expression écrite sont très fréquemment affectés dans la NF1 et constituent un enjeu majeur pour la scolarité et plus largement la qualité de vie des enfants (Coudé et al., 2006; Wolkenstein et al., 2009). Dans cette partie, les études sur les troubles des apprentissages sont détaillées, avec un focus plus spécifique sur les troubles de la lecture et les répercussions de la maladie sur le devenir académique de ces enfants.

6.1. Troubles des apprentissages

En moyenne, les enfants atteints de NF1 obtiennent des performances académiques en lecture, orthographe et mathématiques plus faibles que les enfants au développement typique, bien que leurs résultats restent dans la zone moyenne (Hyman et al., 2005; Moore et al., 2000). Lorsqu'on s'intéresse plus précisément au nombre d'enfants présentant des difficultés, près de 40 à 75 % des enfants atteints de NF1 manifestent une fragilité/difficulté (score inférieur à -1 DS) dans au moins un domaine académique (Hyman et al., 2005; Krab et al., 2008; Lehtonen et al., 2015; North et al., 1995) avec une comorbidité très fréquente entre les difficultés (i.e., environ 50 % des cas; Hyman et al., 2006; Orraca-Castillo et al., 2014). La qualité sporadique ou familiale de la maladie ne semble pas avoir d'impact majeur sur les performances académiques (Krab et al., 2008).

La prévalence des troubles spécifiques des apprentissages prenant en compte le QI est de 20 à 50 % chez les enfants porteurs de la maladie (Descheemaeker et al., 2005; Hyman et al., 2005; Krab et al., 2008; Orraca-Castillo et al., 2014), prévalence considérablement élevée par rapport à celle observée dans la population générale (i.e., 5 à 10 % ; Inserm, 2007). De manière intéressante, les enfants NF1 sans trouble des apprentissages obtiennent tout de même des performances inférieures au groupe contrôle (Hyman et al., 2006). Cela suggère que même sans trouble dans les apprentissages, les enfants atteints de NF1 sont plus enclins à manifester des fragilités dans les acquisitions scolaires. Cette observation peut être en lien avec les nombreuses difficultés cognitives rapportées précédemment.

En mathématiques, la majorité des études témoignent de difficultés avec des scores de calcul et de raisonnement mathématique plus faibles chez les enfants présentant une NF1 que chez les enfants contrôles (Dilts et al., 1996; Koth et al., 2000; Mazzocco et al., 1995; Pride et al., 2012 ; pour un résultat non significatif, voir Mazzocco, 2001). Toutefois, certaines études remettent en question ce résultat en montrant que les différences ne restent pas significatives une fois le QI pris en compte (Hofman et al., 1994; Lehtonen et al., 2015). La prévalence du trouble spécifique des mathématiques reste tout de même élevée, se manifestant chez près de 10 % à 40 % des enfants atteints de la maladie (Descheemaeker et al., 2005; Hyman et al., 2006; Mazzocco et al., 1995; Orraca-Castillo et al., 2014). Orraca-Castillo et al. (2014) précisent que les enfants avec un trouble spécifique en mathématiques présentent un déficit sélectif en arithmétique, associé à des compétences d'énumération et de comparaison de grandeur épargnées. Par ailleurs, en maternelle, près de 31 % des enfants atteints de NF1 manifestent déjà un retard développemental au niveau des prérequis en mathématiques (Soucy et al., 2012).

L'expression écrite est également fragilisée dans la NF1. Les enfants porteurs de la maladie présentent plus de difficultés à formuler et rédiger des phrases par rapport aux enfants au développement typique (Dilts et al., 1996; Hofman et al., 1994). La qualité du contenu de l'écrit est moins riche à la fois dans les idées proposées et développées, dans l'organisation du propos, dans le style utilisé et dans le choix des mots (Gilboa et al., 2010). Le graphisme est moins bien organisé dans l'espace et la hauteur des traits est plus importante, suggérant un retard dans la maturation de ce processus (Gilboa et al., 2010). Enfin, près d'un tiers des enfants atteints de NF1 présente des difficultés d'orthographe (Descheemaeker et al., 2005; North et al., 1995).

6.2. Focus sur les troubles de la lecture

Parmi les difficultés d'apprentissage repérées dans la NF1, la lecture est également fréquemment affectée : près de 30 à 60 % des enfants atteints de NF1 présentent des difficultés dans ce domaine (Chaix et al., 2017; Hyman et al., 2005; Orraca-Castillo et al., 2014; Watt et al., 2008). Bien que cette prévalence varie fortement entre les études, elle reste toujours supérieure à celle observée dans la population générale, où près de 10 % des enfants et adolescents présentent des difficultés de lecture (Andreu et al., 2021; Chabanon, 2021).

Chez les enfants atteints de NF1, les déficits de lecture comprennent la lecture de mots réguliers et irréguliers (Arnold et al., 2020; Descheemaeker et al., 2005; Orraca-Castillo et al., 2014; Watt et al., 2008). Ils touchent également la vitesse, la précision et la compréhension en lecture (Arnold et al., 2020; Biotteau et al., 2019; Coutinho et al., 2016; Cutting et al. , 2000a). Ferner et al. (1996) soulignent des problèmes d'inversion de lettres et des difficultés à rester focalisé sur les mots à lire. Le décodage graphophonologique des mots écrits semble être fortement impacté, se reflétant au travers de difficultés en lecture de pseudo-mots (Arnold et al., 2020 ; Watt et al., 2008). Dès la maternelle, un retard développemental dans les prérequis linguistiques nécessaires à l'acquisition de la lecture est montré chez près de 23 % des enfants (Arnold et al., 2018; Soucy et al., 2012).

Les difficultés de lecture dans la NF1 sont significativement corrélées à la sévérité de la maladie (Krab et al., 2008), tandis que la nature familiale ou sporadique de la NF1 ne constitue pas un facteur

explicatif des déficits en lecture, en dehors des difficultés de compréhension écrite (Biotteau et al., 2020; Coutinho et al., 2016). Les capacités attentionnelles jouent un rôle important qu'il est nécessaire de prendre en compte dans l'interprétation des difficultés de lecture. Biotteau et al. (2019) ont montré une différence significative entre les enfants présentant une NF1 et les enfants au développement typique sur le score de problèmes d'inattention d'un questionnaire parental alors même que les deux groupes étaient appariés en précision et vitesse de lecture. En ce sens, l'étude de Pride et al. (2012) montre que les enfants porteurs d'une NF1 qui manifestent un TDA-H présentent des performances de lecture plus faibles que les enfants sans TDAH avec ou sans NF1. Toutefois, même sans TDAH les enfants avec une NF1 obtiennent des scores de lecture significativement inférieurs aux enfants contrôles. Ainsi, le TDAH semble majorer les difficultés de lecture déjà observables chez les enfants avec une NF1 sans TDAH. Il apparait donc important de dissocier les difficultés causées par un trouble attentionnel, de celles véritablement en lien avec un problème de lecture.

Enfin, plusieurs études ont fait le parallèle entre les troubles de la lecture dans la NF1 et la dyslexie développementale, notamment dans les sous-types proposés, dits phonologiques, de surface ou mixtes[2] (Arnold et al., 2020; Orraca-Castillo et al., 2014; Watt et al., 2008). Les profils phonologiques, impliquant le décodage grapho-phonologique, sont fréquemment rapportés dans la NF1 : ils concernent 41 % des enfants avec un déficit de lecture dans l'étude de Arnold et al. (2020) et 67 % des enfants dans celle de Watt et al. (2008). Les profils de type mixte, impliquant les deux voies de traitement (grapho-phonologique et orthographique), sont également fréquents dans la NF1 : entre 20 % et 49 % de ces enfants ont un profil mixte. En revanche, le sous-type de surface n'a pas été retrouvé chez les enfants anglophones (Arnold et al., 2020; Watt et al., 2008). La prévalence des différents sous-types observée dans ces deux études n'est pas corroborée par celle d'Orraca-Castillo et al. (2014) chez des enfants hispaniques. En effet, cette recherche n'a pas révélé de déficits phonologiques purs et montre que près de 12 % des enfants présentent un profil mixte. Les chercheurs expliquent ce résultat au regard de la transparence de la langue espagnole et du faible échantillon d'enfants présentant un trouble de la lecture inclus dans l'étude.

Bien que le parallèle entre dyslexie et trouble de la lecture dans la NF1 soit établi, peut-on véritablement parler de dyslexie dans le cadre de la NF1 ? Les difficultés associées à la dyslexie sont-elles transposables aux troubles de la lecture dans la NF1 ? Un premier élément de réponse concerne la répartition des sous-types phonologiques, de surface et mixtes rapportée. Chez les enfants anglophones et hispaniques atteints de NF1 (Arnold et al., 2020; Orraca-Castillo et al., 2014), cette répartition apparait très similaire à celle retrouvée dans la population générale sans NF1 dans ces langues, avec une prédominance du profil mixte sur les autres profils et une variation inter-langues en lien avec leur transparence (Sprenger-Charolles et al., 2011). Malgré cette similitude dans les profils de lecture, Denckla (1996) considère les troubles de la lecture dans la NF1 comme inclus dans un contexte plus large de troubles du langage oral, notamment sur le versant réceptif. De plus, alors que

[2] Ces sous-types se réfèrent aux deux voies de traitement développées dans le modèle DRC (Dual Route Cascaded ; Coltheart et al., 2001) qui appréhende spécifiquement la lecture à haute voix dans les tâches de décision lexicale. Il s'agit d'un modèle computationnel qui met en jeu (1) une voie de traitement sub-lexicale faisant intervenir le système de codage graphophonologique et (2) une voie lexicale faisant intervenir le lexique orthographique en entrée et le lexique phonologique en sortie. La première voie est préférentiellement utilisée dans la lecture de mots inconnus et de pseudo-mots, tandis que la seconde est plutôt efficace pour la lecture de mots familiers et irréguliers.

des difficultés dans le processus de RAN sont mis en évidence dans la dyslexie, ce dernier apparait relativement préservé dans la NF1. Ce point d'argumentation est discutable puisque la plupart des études sur le RAN dans la NF1 ne prennent pas en compte le niveau de lecture des enfants. Cutting et Levine (2010) démontrent en revanche des difficultés dans ce processus chez les enfants atteints de NF1 avec un déficit de lecture par rapport aux enfants au développement typique. Par ailleurs, Denckla (1996) parle de dyslexie « pure » mais n'évoque pas la question de la comorbidité des troubles très fréquente à la fois dans la dyslexie (Chaix et al., 2007) mais aussi dans la NF1 (Hyman et al., 2006; Orraca-Castillo et al., 2014). Ce facteur peut expliquer en partie l'association avec des déficits dans le langage oral réceptif. Enfin, sur le plan linguistique, tout comme les enfants présentant une dyslexie développementale, dans la NF1, les déficits de conscience phonologique et de mémoire de travail auditivo-verbale constituent des variables cliniques importantes expliquant les troubles de la lecture (Arnold et al., 2020; Chaix et al., 2017; Cutting & Levine, 2010). Ainsi, de nombreux éléments sont en faveur d'un recouvrement partiel entre les déficits retrouvés chez les enfants atteints de dyslexie développementale et ceux retrouvés chez les enfants avec une NF1 et un déficit en lecture comorbide. Cette question reste tout de même à approfondir.

6.3. Réussite scolaire et devenir académique

Face à la forte prévalence des difficultés d'apprentissage dans la NF1, la réussite scolaire devient un enjeu majeur pour ces enfants. Les taux de maintien et d'exclusion scolaire au cours des premières années d'apprentissage (classes de maternelle et élémentaire) sont très élevés chez les enfants atteints de NF1 présentant des troubles d'apprentissage (Coudé et al., 2006; Krab et al., 2008). Pourtant les enseignants ne rapportent pas des taux de motivation ni d'engagement académique plus faibles chez ces enfants par rapport aux enfants au développement typique (Gilboa, Rosenblum, et al., 2014). Près de 10 % des enfants avec une NF1 sont scolarisés dans des classes ou institutions spécialisées et adaptées à leurs troubles (Coutinho et al., 2016). De nombreux enfants bénéficient également d'un suivi orthophonique, psychomoteur, psychologique ou encore d'aides éducatives telles qu'un soutien scolaire ou un temps supplémentaire aux examens par exemple (Coutinho et al., 2016; Hyman et al., 2005; Krab et al., 2008; Lehtonen et al., 2015; North et al., 1995).

A plus long terme, la poursuite des études et l'insertion professionnelle apparaissent plus difficiles chez les personnes atteintes de la maladie. Doser et al. (2019) ont notamment révélé un retard dans l'obtention du diplôme obligatoire au Danemark chez les personnes porteuses de NF1 : elles sont en moyenne 1,2 fois plus âgées que les individus au développement typique au moment du diplôme. Des recherches montrent également un niveau d'étude plus faible chez les personnes atteintes de la maladie, avec des orientations vers des formations majoritairement professionnelles plutôt qu'universitaires (Doser et al., 2019; Johansson et al., 2021). Une grande majorité des patients rapporte que la NF1 a eu un impact considérable à la fois sur leur parcours académique et sur leur insertion et leurs choix professionnels (Goetsch Weisman et al., 2020).

Face à l'ensemble des répercussions de la maladie sur la réussite scolaire et le devenir académique des personnes atteintes, il apparaît indispensable de poursuivre et d'améliorer le dépistage et la prise en charge des difficultés scolaires manifestées par ces enfants.

SYNTHÈSE DU CHAPITRE 1

La neurofibromatose de type 1 (NF1) est une maladie neurogénétique qui touche près d'une naissance sur 2500 à 3000 et qui peut être associée à différentes manifestations médicales incluant notamment les sphères cutanées, ophtalmologiques, orthopédiques ainsi que neurologiques et cognitives. Ainsi, en plus des manifestations physiques, les enfants atteints de NF1 présentent fréquemment des déficits dans divers domaines cognitifs tels que l'attention, les fonctions exécutives, le langage, la perception visuelle ou encore la motricité. Les difficultés dans les apprentissages scolaires sont également très fréquentes dans la NF1, avec une prévalence élevée de déficits en lecture repérée chez les enfants d'âge scolaire (entre 30 % et 80 % selon les études). Malgré la grande variabilité dans la fréquence des difficultés de lecture constatée entre les études, cette fréquence reste tout de même considérablement plus élevée que dans la population générale, où près de 10 % des enfants et adolescents présentent des difficultés de lecture. En raison de la fréquence élevée des déficits de lecture chez les enfants atteints de NF1 et des implications négatives qu'ils peuvent avoir à la fois sur la scolarité des enfants mais aussi sur leur qualité de vie, il apparaît crucial de clarifier les difficultés cognitives qui y sont associées. Cet objectif constitue un enjeu majeur pour l'amélioration du dépistage et de la prise en charge des difficultés de lecture dans la NF1.

La question est désormais de savoir quelles sont les compétences cognitives qui sont associées à l'apprentissage de la lecture et plus spécifiquement, celles qui sont impliquées dans la genèse des difficultés de lecture. Au-delà des compétences linguistiques déjà montrées comme étant impliquées dans les difficultés de lecture chez les enfants avec une NF1, le prochain chapitre vise à présenter l'implication des processus visuo-perceptifs, visuo-attentionnels et oculomoteurs impliqués dans la lecture que ce soit chez le lecteur expert, en cours d'apprentissage ou présentant un trouble associé.

Chapitre 2

Processus perceptifs et visuo-attentionnels impliqués dans la lecture

La lecture implique de nombreux processus cognitifs. Parmi eux, les compétences linguistiques ont largement été étudiées, incluant notamment la conscience phonologique et la dénomination rapide (i.e., RAN). Leurs liens avec les habiletés de lecture font aujourd'hui consensus dans la littérature (e.g., Carroll et al., 2016; Georgiou et al., 2013; Landerl et al., 2019; Piquard-Kipffer & Sprenger-Charolles, 2013). Toutefois, bien que le traitement phonologique soit nécessaire au développement efficient des compétences de lecture, il n'en constitue pas pour autant le seul facteur impliqué. La lecture est également une activité visuelle (chez les lecteurs voyants) qui implique des processus de contrôle attentionnel et oculaire dépendants des contraintes anatomo-fonctionnelles de notre système visuel (pour des revues, voir Leibnitz et al., 2015a, 2017). Dans cette partie, nous présentons les limites du système visuel impliqué dans la lecture et leurs répercussions sur les processus perceptifs et visuo-attentionnels qui limitent la prise d'informations orthographiques en lecture. Nous traiterons ensuite de l'émergence des stratégies oculomotrices et visuo-attentionnelles mises en place au cours de l'apprentissage de la lecture pour l'optimisation du traitement orthographique des mots. Une dernière partie visera à comprendre l'implication de ces processus dans les troubles de la lecture.

1. Système anatomo-fonctionnel du traitement visuel

La prise d'informations visuelles pour le traitement des mots écrits en lecture est dépendante des contraintes anatomo-fonctionnelles du système visuel. Cette partie présente les différentes étapes du cheminement de l'information visuelle de la rétine aux voies corticales de traitement.

1.1. Voies de traitement de l'information visuelle

La prise d'informations orthographiques durant la lecture est dépendante de l'acuité visuelle de l'œil en fonction des zones de la ligne de texte fixée. L'acuité décroit très fortement avec l'excentricité autour du point de fixation et permet de distinguer trois zones principales : les zones fovéale,

parafovéale et périphérique. Au sein de ces différentes régions, l'acuité visuelle est dépendante de la répartition des cellules photoréceptrices dans la rétine. Celle-ci est composée d'environ 125 millions de cellules photoréceptrices de deux types : les cônes (6 % des cellules photoréceptrices) et les bâtonnets (94 % des photorécepteurs). La région fovéale de la rétine est entièrement constituée de cônes permettant à la fois un traitement très précis des détails des stimuli visuels (i.e., lettres) mais aussi des couleurs. La fovéa est toutefois une région étroite d'environ 1,5 mm (correspondant à 2° du champ visuel) dans laquelle la présence des cônes y est maximale et décroît fortement avec l'excentricité. C'est pourquoi la parafovéa, située de part et d'autre de la fovéa, est majoritairement composée de bâtonnets. Elle effectue un traitement moins précis de l'information visuelle et s'étend à environ 0.5 mm autour de la fovéa (correspondant à 10° d'angle du point de fixation). L'acuité visuelle est fortement diminuée dans cette région : elle passe de 100 % au centre de la rétine (fovéa) à 75 % dès 1°28 d'angle à partir du point de fixation, puis à 25 % dès 6°30 (Lété & Ducrot, 2007).

Lorsque la rétine reçoit les informations visuelles, les photorécepteurs vont permettre l'absorption des photons et leur conversion en influx nerveux. Ce dernier est ensuite transmis aux cellules bipolaires puis aux cellules ganglionnaires et passe par des couches intermédiaires : les cellules horizontales (entre les photorécepteurs et les cellules bipolaires) et les cellules amacrines (entre les cellules bipolaires et ganglionnaires ; Hubel, 1995). L'influx nerveux va ensuite transiter par les neurones des voies visuelles parvocellulaire (P-système) et magnocellulaire (M-système) vers le corps genouillé latéral (CGL). La voie parvocellulaire est constituée de petites cellules représentant 90 % des cellules du CGL et recevant les informations des cônes. Le P-système présente donc une sensibilité aux hautes fréquences spatiales, aux basses fréquences temporelles, aux contrastes visuels élevés et aux nuances de couleurs. Ce système effectue un traitement fin et précis du stimulus visuel correspondant au traitement de l'information provenant de la vision fovéale (Atkinson, 1992). Durant la lecture, cette voie permet ainsi une identification précise des lettres qui composent les mots avec une distinction fine entre les lettres partageant des caractéristiques communes (e.g., distinction entre le « a » et le « o » ; Stein, 2022). La voie magnocellulaire, contrairement au système parvocellulaire, est constituée de grandes cellules représentant seulement 10 % des cellules du CGL et recevant les informations principalement des bâtonnets (mais aussi d'une faible proportion de cônes). Le M-système est caractérisé par une sensibilité aux basses fréquences spatiales, aux hautes fréquences temporelles, aux faibles contrastes visuels, ainsi qu'aux mouvements. Les cellules qui composent ce système sont achromatiques permettant le traitement des nuances de gris uniquement. Ainsi, ce système implique un traitement plus grossier des stimuli visuels et joue un rôle important dans la lecture au travers de la détection de l'ordre des lettres et du prétraitement de l'information située en parafovéa (Atkinson, 1992; Stein, 2019, 2022). Du fait de sa sensibilité aux basses fréquences spatiales, la voie magnocellulaire sous-tend également la mise en place d'un niveau d'analyse perceptive globale tandis que l'information visuelle au niveau local dépendrait de la voie parvocellulaire traitant des hautes fréquences spatiales. Le traitement plus rapide des informations de la voie magnocellulaire par rapport à celui des informations locales de la voie parvocellulaire explique en partie la primauté du traitement global observée chez l'adulte (Datin-Dorrière et al., 2021; Poirel et al., 2011, 2014).

Pour résumer, une fois le signal lumineux de l'information orthographique converti en influx nerveux par les cellules photoréceptrices, celui-ci transite par l'ensemble des couches rétiniennes puis

par le chiasma optique et le CGL dans le thalamus pour finalement atteindre le cortex visuel primaire (V1). Le cheminement de l'influx nerveux est résumé dans la Figure 1. Au niveau cortical, deux voies de traitement sont mobilisées : (1) la voie occipito-temporale (ventrale) qui prend principalement en charge les informations provenant de la voie parvocellulaire à partir d'un traitement lent mais précis de l'information et (2) la voie occipito-pariétale (dorsale) qui traite, quant à elle, surtout des informations en provenance de la voie magnocellulaire (Hubel, 1995; Merigan & Maunsell, 1993). Finalement, de la périphérie jusqu'au système nerveux central, l'information à traiter est fortement dépendante des contraintes anatomo-fonctionnelles du système visuel.

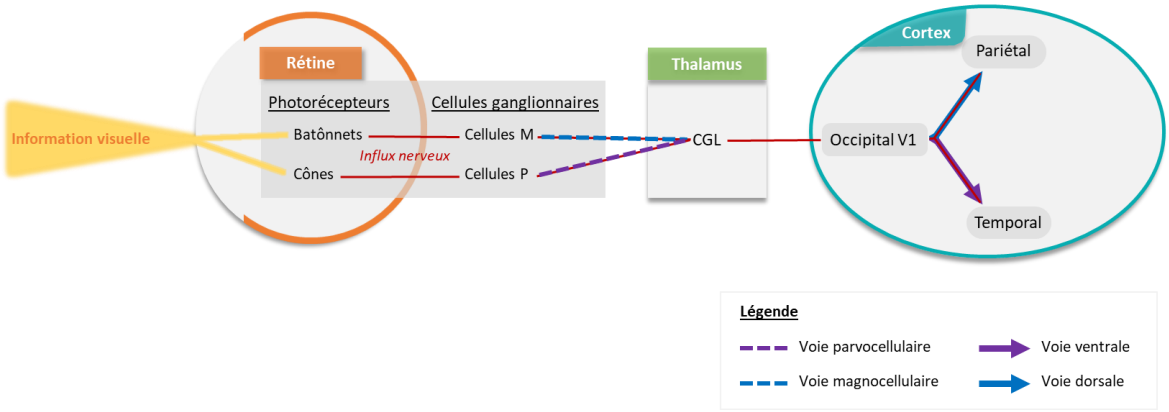


Figure 1. Représentation schématique du processus de traitement de l'information visuelle de l'œil au cortex.

1.2. Spécialisation cérébrale pour l'activité de lecture

La lecture est une invention culturelle mobilisant des réseaux neuronaux qui ne sont pas initialement dédiés à cette activité. La spécialisation d'aires corticales pour le traitement des stimuli orthographiques concerne notamment des régions occipitales, impliquées dans la perception de stimuli visuels, et temporales impliquées dans leurs codages phonologiques (Dehaene et al., 2015).

L'expertise en lecture implique notamment une augmentation de l'activation du cortex visuel primaire bilatéral lors du traitement de stimuli orthographiques (Dehaene et al., 2010) et une spécialisation du sillon occipito-temporal latéral gauche pour la reconnaissance des formes visuelles des mots : il s'agit de la VWFA (i.e., Visual Word Form Area). Cette région serait initialement dédiée au traitement des objets visuels et à la reconnaissance des visages et c'est au travers de l'apprentissage de la lecture qu'elle serait recrutée pour traiter la forme visuelle des lettres, c'est le principe de recyclage neuronal (Dehaene & Cohen, 2011). Le recrutement du sillon occipito-temporal latéral pour le traitement de l'écrit est spécifique à l'hémisphère gauche et sa morphologie dans cet hémisphère explique en partie la précision de lecture (Borst et al., 2016). La spécialisation de cette aire s'effectue très tôt au cours de l'apprentissage explicite de la lecture : dès 2 à 4 mois d'apprentissage, une augmentation du volume d'activation spécifique au traitement des mots est identifiable (Dehaene-Lambertz et al., 2018; Parviainen et al., 2006). Toutefois, une activation réduite de la VWFA est montrée pour la reconnaissance des mots écrits dans le cadre de trouble de la lecture (Monzalvo et al., 2012). La VWFA est également impliquée dans le phénomène de généralisation en miroir permettant

la reconnaissance d'un objet visuel, quelle que soit son orientation. Toutefois, dans le cas des stimuli orthographiques, la généralisation en miroir peut aboutir à l'identification erronée de certaines lettres qui, par rotation, changent d'identité (e.g., d/b/p/q). Le contrôle inhibiteur joue donc un rôle central dans la reconnaissance des lettres et ce, même après l'automatisation de la lecture (Borst et al., 2015). Cette capacité à inhiber spontanément l'effet de généralisation en miroir face à des items orthographiques est efficiente dès la première année d'apprentissage de la lecture (Ahr et al., 2016) et serait spécifique aux lettres homologues selon un axe latéral (e.g., d/b) mais non vertical (e.g., d/q ; Ahr et al., 2017).

Finalement, la lecture implique des efférences vers les régions temporales spécialisées dans le traitement des informations auditivo-verbales. Le planum temporal gauche, impliqué dans le codage phonologique des informations verbales, est notamment activé dans l'activité de lecture (Dehaene et al., 2015). Avec l'expertise en lecture, une augmentation de l'activité de cette région est observée lors de tâches de langage oral (Dehaene et al., 2010). Ce résultat est cohérent avec la réduction de l'activation dans le planum temporal gauche observée chez les enfants atteints de dyslexie développementale (Monzalvo et al., 2012).

Ainsi, la lecture implique des réseaux corticaux pour le traitement spécifique de stimuli orthographiques, initialement non dédiés à cette activité cognitive. La mise en place de ces réseaux est précoce, dès la première année d'apprentissage, mais témoigne d'un dysfonctionnement dans le cadre des troubles de la lecture.

2. Contraintes perceptives et attentionnelles de la prise d'information visuelle

2.1. Limites perceptives et attentionnelles

Face aux contraintes anatomo-fonctionnelles du système visuel, la prise d'informations orthographiques est spatialement limitée. Plus précisément, le nombre d'informations orthographiques pouvant être traitées en une fixation dépend de deux contraintes sensorielles majeures : l'acuité visuelle et l'effet d'encombrement perceptif (i.e., crowding effect en anglais ; Leibnitz et al., 2017). Ce dernier correspond à l'effet d'interférence entre un stimulus cible (i.e., lettres cibles) et l'environnement visuel qui l'entoure (i.e., lettres adjacentes). Cet effet tend à s'accroître avec l'excentricité, alors que l'acuité visuelle tend à diminuer. Ces deux phénomènes induisent donc un effet de masquage latéral c'est-à-dire une baisse de la capacité à discriminer et à identifier les lettres cibles lorsqu'on s'écarte du point de fixation central. Ainsi, la quantité d'informations (i.e., nombre de lettres) qui peut être extraite en une seule fixation en vision fovéale et parafovéale est déterminée par l'empan perceptif[3]. Il correspond à la région autour du point de fixation dans laquelle les

[3] Dans la littérature, plusieurs concepts d'empan ont été développés : perceptif, visuo-attentionnel et visuel (pour une revue sur les distinctions entre ces 3 notions, voir Frey & Bosse, 2018). Cette section présente plus en détail les deux premiers empans qui ont été largement étudiés au regard des mécanismes de lecture, en particulier dans son apprentissage.

informations qui sont traitées peuvent influencer à la fois le traitement orthographique et le comportement oculaire (McConkie & Rayner, 1975). L'utilisation du paradigme de fenêtre mobile[4] a permis de mettre en évidence, dans les langues alphabétiques se lisant de gauche à droite, une asymétrie en faveur du champ visuel droit (McConkie & Rayner, 1975). Chez le lecteur expert, cet empan s'étend en moyenne de 3-4 caractères à gauche du point de fixation à 14 -15 caractères à droite. Son étendue peut être modulée en fonction des paramètres linguistiques du texte : lorsque la complexité syntaxique est augmentée ou que la fréquence du mot situé en fovéa est faible, la taille de l'empan perceptif se trouve réduite (Henderson & Ferreira, 1990). Les différences interindividuelles dans le niveau de lecture influent également sur son étendue (Veldre & Andrews, 2014) : un lecteur présentant de bonnes compétences linguistiques a tendance à présenter un empan perceptif plus large qu'un lecteur ayant des compétences linguistiques plus faibles (W. Choi et al., 2015).

Quelle que soit la variabilité de la taille de l'empan perceptif, celui-ci témoigne systématiquement d'une asymétrie en faveur du champ visuel droit (CVD ; dans les langues alphabétiques se lisant de gauche à droite). Cette asymétrie peut s'expliquer par un apprentissage perceptif lié aux habitudes de lecture. La direction du balayage visuel favorise l'activation des zones spécifiques de la rétine traitant des informations en direction de ce balayage. Cela implique que la reconnaissance des mots est meilleure lorsqu'ils sont traités par cette zone de la rétine (Dehaene et al., 2005; Nazir et al., 2004). Dans les langues alphabétiques se lisant de gauche à droite, les informations à traiter se situent majoritairement à droite du point de fixation. Ainsi, il existe un avantage du déploiement attentionnel préférentiellement dans le CVD et les habitudes de fixations activent préférentiellement la partie droite de la rétine résultant en un meilleur traitement des informations parafovéales situées à droite du point de fixation (Brysbaert & Nazir, 2005; Nazir, 2000; Nazir et al., 2004). L'influence des habitudes de lecture et plus précisément du sens de lecture dans le déploiement asymétrique des ressources attentionnelles est en accord avec l'asymétrie observée dans les langues se lisant de droite à gauche, cette fois-ci, en faveur du champ visuel gauche (CVG; voir Jordan et al., 2014 pour l'arabe; Paterson et al., 2014 pour l'urdu; Pollatsek et al., 1981 pour l'hébreu; Zhou et al., 2021 pour l'ouïghour).

Alors que l'empan perceptif prend en compte à la fois le traitement fovéal et parafovéal, l'empan visuo-attentionnel se focalise sur le traitement fovéal. Celui-ci correspond au nombre d'unités orthographiques pouvant être identifiées simultanément en une fixation au sein d'une séquence de caractères (Bosse et al., 2007; Bosse & Valdois, 2009). L'empan visuo-attentionnel est évalué à partir de tâches de report global et partiel de suite de lettres[5]. La distribution des ressources attentionnelles est, contrairement à l'empan perceptif, symétrique et correspond à 5 caractères maximum répartis autour du point de fixation central. La précision et la vitesse de lecture ont été montrées comme étant

[4] Le paradigme de fenêtre mobile consiste à définir une zone autour du point de fixation dans laquelle le texte est présenté et à substituer le reste du texte par des symboles ou des lettres aléatoires. Lorsque le lecteur effectue une saccade, la nouvelle zone de texte autour du point de fixation est démasquée. L'empan perceptif est déterminé par la taille minimum de texte affiché requise pour une lecture efficace. La lecture ne devrait pas être ralentie par le remplacement d'une zone de texte par d'autres caractères si aucune information n'est traitée à l'emplacement des lettres modifiées.

[5] Dans ces tâches, une suite de consonnes est affichée sur l'axe central horizontal durant 200 ms. Dans la tâche de report global, un masque apparaît immédiatement après et le participant doit rappeler un maximum de lettres vues. Dans la tâche de report partiel, un indice apparaît immédiatement après la suite de lettres indiquant la position d'une des lettres. Un masque apparaît ensuite et le participant doit rappeler la lettre indicée. L'estimation de l'empan visuo-attentionnel correspond au nombre moyen de lettres correctement rappelées dans une suite.

fortement influencées par la taille de cet empan visuo-attentionnel (Bosse & Valdois, 2009; Lobier et al., 2013; Prado et al., 2007)

Les limites perceptives et attentionnelles, définies par les empans perceptif et visuo-attentionnel et illustrées dans la Figure 2, sont déterminantes pour la prise d'informations visuelles au cours de la lecture. Elles vont nécessiter la mise en place de mouvements oculaires efficients pour la lecture et sont intimement liées à la qualité du prétraitement parafovéal.

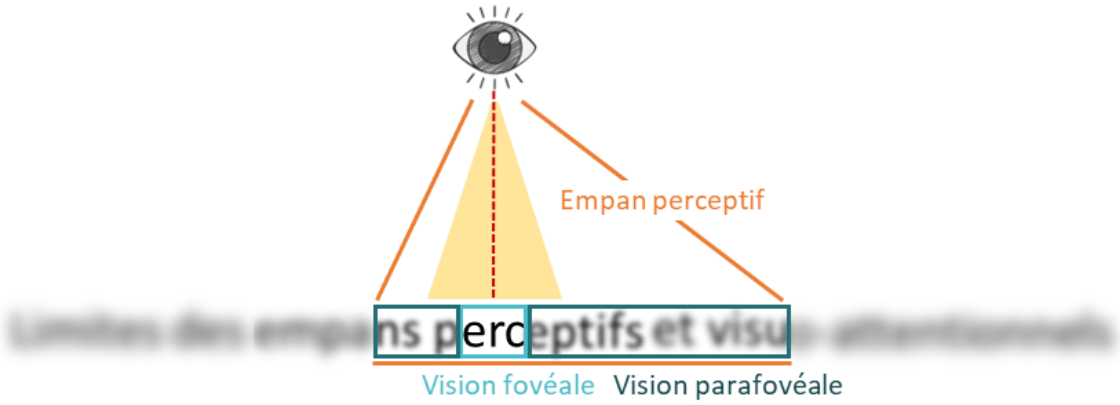


Figure 2. Représentation schématique des limites perceptives et attentionnelles contraintes par le système visuel, adaptée de Leibnitz et al. (2015a).

Notes. Les zones de texte traitées en vision fovéale sont encadrées en bleu clair et celles traitées en vision parafovéale sont encadrées en bleu foncé. Les empans perceptif (lignes orange) et visuo-attentionnel (zone jaune) sont définis à partir du point de fixation du regard (ligne pointillée rouge).

2.2. Guidage oculaire et prétraitement parafovéal

Les limites perceptives et attentionnelles de la prise d'information visuelle nécessitent la mise en place de processus oculomoteurs efficients pour déplacer le regard le long du texte. L'œil effectue donc continuellement des fixations pour extraire l'information orthographique importante et des saccades (i.e., sauts rapides de l'œil) pour déplacer la fovéa vers la nouvelle information à traiter. Chez le lecteur expert, les fixations durent en moyenne 200 à 250 millisecondes et les saccades présentent une amplitude moyenne de 7 à 9 caractères (Rayner, 1998). Durant la lecture de texte, tous les mots ne sont pas fixés par le lecteur expert : près de 44 % des mots d'un texte sont sautés (Blythe et al., 2009). Les sauts de mots sont plus fréquents pour les mots courts que les mots longs, et pour les mots spatialement proches du précédent point de fixation plutôt que les mots éloignés (Vitu et al., 1995). L'œil effectue également des saccades de correction de droite à gauche, aussi nommées régressions oculaires, pour replacer correctement la zone fovéale ou traiter à nouveau une information mal identifiée. Les régressions correspondent à environ 10 à 15 % des saccades effectuées par le lecteur expert (Rayner, 1998).

L'attention joue un rôle crucial dans le traitement de l'information fixée et dans le guidage oculaire. Elle permet de rendre saillantes les informations situées en fovéa pour faciliter leur traitement, mais aussi de prétraiter les informations situées en parafovéa pour la programmation

saccadique. Cette dernière fonction est importante dans le guidage oculaire et dans la reconnaissance et l'identification du mot situé en parafovéa lors de son traitement ultérieur lorsqu'il est ensuite situé en vision fovéale. Il a notamment été montré que lorsque le lecteur fixe un mot *n* en vision fovéale, les premières lettres ou la totalité du mot *n+1* sont prétraitées en vision parafovéale (Rayner et al., 1980). En ce sens, Inhoff et Rayner (1986) ont montré que lorsque l'information en parafovéa n'est pas présente, les performances en lecture ne sont pas optimales, impactant notamment le comportement oculaire avec des saccades plus courtes et des fixations plus longues et plus nombreuses. Rayner et al. (1982) ont également montré, à partir du paradigme de la fenêtre mobile[4], qu'une fenêtre visuelle réduite au mot fixé ralentissait considérablement la lecture. Différents effets ont été constatés et révèlent l'importance du prétraitement parafovéal pour le traitement de l'information située en fovéa (i.e., *parafoveal-on-foveal effects*, POF) et pour le traitement à venir de l'information en parafovéa (i.e., bénéfice du prétraitement parafovéal, *preview benefit* et sauts de mots, *word skipping*).

2.2.1. Effets POF

Les effets POF correspondent à l'influence des caractéristiques du mot *n+1*[6] (i.e., orthographiques et/ou lexicales), situé en parafovéa à droite du point de fixation, sur le traitement du mot *n* actuellement fixé en vision fovéale (Schotter et al., 2012). Lorsqu'un mot est fixé en fovéa, son traitement est plus rapide si des informations cohérentes sont présentes en parafovéa (Simola et al., 2009; Snell & Grainger, 2018). Cet effet a également été identifié au travers d'études montrant un impact de la complexité orthographique du mot *n+1* sur la durée de fixation du mot *n*. En ce sens, Pynte et al. (2004) ont constaté des temps de fixation du mot *n* réduits et un taux de sauts plus faible du mot *n+1* lorsque celui-ci contenait une erreur typographique. De la même manière, White (2008) a montré que la familiarité orthographique d'un mot cible affectait la durée de fixation du mot situé en fovéa. Alors que l'implication du traitement orthographique dans l'effet POF est bien établie, celle du traitement des informations lexicales, syntaxiques et sémantiques en parafovéa est plus controversée (pour des revues, voir Rayner et al., 2003; Schotter et al., 2012). Dans ce cadre, Kennedy et Pynte (2005) ont montré que la taille du mot *n* situé en fovéa détermine en partie le niveau de traitement du mot *n+1* : pour les mots courts en fovéa, les auteurs rapportent un effet de fréquence lexicale du mot *n+1* tandis que pour les mots longs, ce sont les propriétés pré-lexicales ou sub-lexicales qui sont traitées (i.e., lettres initiales et familiarité orthographique). Les effets POF impliquent donc un traitement parallèle des informations situées en fovéa et en parafovéa.

2.2.2. Bénéfice du prétraitement

La nature de l'information parafovéale a aussi un impact sur son propre traitement ultérieur. Le bénéfice du prétraitement parafovéal témoigne bien de l'influence de l'information située en parafovéa sur son traitement lorsqu'elle est ensuite traitée en fovéa. Les paradigmes utilisés pour étudier ce bénéfice utilisent un stimulus en parafovéa qui est remplacé par le mot cible lorsque les yeux effectuent une saccade vers cette information (i.e., *gaze-contingent boundary paradigm* ; Rayner, 1975a). Le bénéfice observé constitue l'intégration temporelle d'une information associée à la même position

[6] Le mot *n* représente le mot actuellement fixé en fovéa et le mot *n+1* constitue le mot situé juste après en parafovéa.

spatiale (Grainger, 2018). Dans ce cadre, tout comme pour les effets POF, l'effet du prétraitement orthographique a bien été identifié dans la littérature alors que celui du prétraitement des informations sémantiques en parafovéa ne fait pas consensus (Rayner et al., 2014). Sur la question du traitement orthographique, Johnson et al. (2007) ont par exemple montré que les lecteurs témoignent d'un bénéfice d'un prétraitement du mot cible même lorsque celui-ci a subi une modification : des bénéfices ont été mis en évidence lors de transpositions et de substitutions de lettres par rapport au mot cible mais de manière plus importante dans le cas des lettres transposées (e.g., friut pour fruit) que dans le cas des lettres substituées (e.g., freot). Le prétraitement des codes phonologiques du mot en parafovéa facilite également le traitement de la cible : un aperçu parafovéal d'un mot phonologiquement apparenté améliore le traitement du mot cible (Pollatsek et al., 1992). L'avantage du prétraitement parafovéal explique en partie les sauts de mots fréquemment observés en lecture, bien que différentes hypothèses soient formulées quant aux facteurs contribuant à la décision de sauts (pour des revues, voir Rayner et al., 2003; Schotter et al., 2012).

2.2.3. Nature du déploiement des ressources attentionnelles en parafovéa

La question du prétraitement des informations parafovéales a été centrale dans les débats sur les modèles computationnels développés pour rendre compte des mécanismes de contrôle attentionnel et de contrôle oculaire en jeu dans la lecture experte (pour une revue sur les modèles princeps, voir Ducrot & Lété, 2007). Les modèles SAS (i.e., *Serial Attentional Shift*) tels que le modèle EZ-Reader (e.g., Reichle et al., 1998, 2006) envisagent un déplacement séquentiel de l'attention au cours de la lecture tandis que les modèles GAG (i.e., *Gradient by Attention Guidance*) envisagent le déplacement de l'attention selon un gradient d'activation prenant en compte plusieurs mots en parallèle et pouvant être modulé sur la base de facteurs de haut niveau (e.g., modèle SWIFT, Engbert et al., 2002, 2005; modèle OB1-reader, Snell et al., 2018a).

Une adaptation du paradigme de Flanker au travers d'une tâche de décision lexicale (*Flanking Letters Lexical Decision task*, FLLD ; Dare & Shillcock, 2013) a permis d'apporter des éléments de réponse concernant la distribution des ressources attentionnelles en lecture. Cette tâche consistait à déterminer si le stimulus présenté au centre de l'écran était un mot ou un pseudo-mot. Les items cibles étaient entourés de paires de lettres (bigrammes) situées dans le CVG et le CVD. Cette configuration permettait de simuler des conditions de lecture dans une tâche simplifiée impliquant à la fois une charge de traitement fovéal et un prétraitement parafovéal dans les champs visuels, tout en limitant les traitements linguistiques de plus haut niveau (e.g., sémantique et syntaxique). Deux lignes verticales indiquaient initialement le centre de l'écran, position où le mot cible apparaissait. Ce dernier était entouré des bigrammes le composant avec soit les bigrammes adjacents (e.g., ro rock ck), soit les bigrammes inversés (e.g., ck rock ro) ou finalement des bigrammes sans rapport avec le mot cible. La particularité de cette tâche était que les stimuli n'étaient affichés que durant 150 millisecondes, ne permettant la reconnaissance que du mot cible. Ainsi, si un avantage des lettres adjacentes était retrouvé, cela impliquait une distribution des ressources attentionnelles sur plusieurs mots en parallèle. En ce sens, Dare et Shillcock (2013) ont mis en évidence une réduction du temps de réponse lorsque les bigrammes (adjacents ou inversés) étaient en lien avec le mot cible par rapport aux bigrammes aléatoires. Ce résultat indique que les temps de décision lexicale sont influencés par la ressemblance

orthographique des lettres voisines et va dans le sens de l'hypothèse d'un traitement parallèle des mots.

Cette tâche a été réutilisée à plusieurs reprises avec des items lexicaux à la place des bigrammes. Snell et al. (2018b) ont notamment montré que le traitement du mot cible est facilité et témoigne d'une réaction pupillaire cohérente avec la présence d'un mot adjacent répété situé de part et d'autre de la cible sur l'axe horizontal et non sur l'axe vertical. Ce résultat indique que les ressources attentionnelles sont allouées à plusieurs mots en parallèle qui sont impliqués dans les effets POF. Un avantage parafovéal du mot *n-1* et *n+1* sur le temps de traitement du mot *n* est également retrouvé dans ce paradigme, avec toutefois un effet POF plus marqué lors du prétraitement du mot *n+1* situé dans le CVD (Snell & Grainger, 2018). Ces différentes observations étayent l'hypothèse d'un déploiement attentionnel parallèle sur plusieurs mots simultanément (Engbert et al., 2005; Snell et al., 2018a) et attestent d'un biais attentionnel en faveur du CVD.

2.2.4. Avantage du champ visuel droit

L'extraction des informations parafovéales est ainsi affectée par la distribution des ressources attentionnelles qui, tout comme en vision fovéale, sont réparties de manière asymétrique entre les champs visuels avec un avantage pour les mots présentés dans le CVD (Ducrot & Grainger, 2007; Hyönä & Koivisto, 2006). En effet, ceux-ci sont identifiés plus rapidement et plus précisément que les mots présentés dans le CVG (Ducrot et al., 2013; Siéroff & Riva, 2011; Simola et al., 2009; Willemin et al., 2016). Cet avantage du traitement des mots dans le CVD peut s'expliquer au travers de différents processus. L'implication des hémisphères cérébraux constitue un premier élément d'explication (Both-De Vries et al., 2016; Siéroff & Slama, 2018). Les items présentés dans le CVD bénéficient d'un accès direct à l'hémisphère gauche, considéré comme dominant dans le traitement du langage, tandis que les stimuli présentés dans le CVG sont d'abord traités par l'hémisphère droit, nécessitant un transfert inter-hémisphérique pour être traités par l'hémisphère gauche (Ducrot et al., 2013). Par ailleurs, le simple fait qu'une saccade de plus grande amplitude soit nécessaire dans le CVG que dans le CVD pour atteindre le début du mot (la partie la plus informative ; Brysbaert & Nazir, 2005) peut également expliquer l'avantage du CVD. Enfin, tout comme pour l'asymétrie observée dans l'empan perceptif, celle-ci est en partie le résultat d'un apprentissage perceptif de bas niveau basé sur les habitudes de lecture et notamment sur le sens de lecture (Battista & Kalloniatis, 2002; Siéroff et al., 2012; Siéroff & Riva, 2011). En ce sens, l'effet de longueur des mots est plus marqué dans le CVG que dans le CVD dans les langues alphabétiques se lisant de gauche à droite, tandis qu'aucune différence n'est observée dans les langues se lisant de droite à gauche (voir Siéroff & Slama, 2018, pour une comparaison entre le français et l'hébreux). Siéroff et Haehnel-Benoliel (2015) montrent également qu'au-delà de la langue maternelle, le sens de lecture de l'environnement dans lequel l'individu est immergé a un effet sur l'avantage du CVD : les lecteurs natifs hébreux vivant en Israël manifestent le même effet du champ visuel pour les mots français et hébreux, alors que ceux vivant en France témoignent d'un avantage du CVD plus important pour les mots français.

Pour résumer, alors que le traitement fovéal permet une analyse perceptive détaillée pour l'identification des mots écrits, le traitement parafovéal joue un rôle majeur à la fois dans le traitement du mot en fovéa mais aussi dans la programmation saccadique et le prétraitement des informations

parafovéales. La distribution asymétrique et parallèle des ressources attentionnelles en parafovéa (en faveur du CVD) va donc être déterminante dans ce processus et adaptée à l'activité de lecture au cours de son apprentissage.

2.3. Position de fixation du regard dans les mots

Le prétraitement parafovéal module le comportement oculaire et plus précisément les stratégies de programmation des saccades mises en place. Dans ce cadre, la position initiale d'atterrissage de l'œil dans les mots (i.e., *initial landing position*, ILP) est centrale pour pallier les contraintes anatomo-fonctionnelles de l'œil et optimiser le traitement des mots écrits. Rayner (1979) a identifié pour la première fois que la position préférée d'atterrissage (i.e., *preferred viewing location*, PVL) dans un mot se situe à mi-chemin entre le début et le milieu du mot pour les langues se lisant de gauche à droite (Ducrot & Pynte, 2002; McConkie et al., 1988; Rayner, 1979; Vitu et al., 1990). En présentation centrale de mots isolés, un phénomène similaire a été montré : il s'agit de l'effet de « position optimale de fixation » (i.e., *optimal viewing position*, OVP ; O'Regan et al., 1984). Lorsqu'on fait varier expérimentalement la position de la première fixation dans le mot, un avantage est montré lorsque celle-ci se situe au centre-gauche de l'item lexical (O'Regan & Jacobs, 1992; Vitu et al., 1990). Cet effet est caractérisé par une courbe asymétrique de performances en forme de « J » inversé avec une reconnaissance plus rapide et plus précise lors d'une fixation à la lettre située au centre-gauche du mot et une probabilité de refixation plus faible par rapport aux autres positions dans le mot. Le temps de fixation tend à augmenter d'environ 23 à 32 millisecondes pour chaque lettre s'éloignant de cette position (O'Regan et al., 1984). A noter que cet effet a été démontré avec différentes fréquences et longueurs de mots (O'Regan & Jacobs, 1992). En fait, lorsque la première fixation est imposée au centre-gauche du mot, le lecteur bénéficie d'un meilleur accès aux représentations lexicales par rapport aux autres positions dans le mot. Cette idée est étayée par les études montrant que lorsque le regard est attiré spécifiquement à cette position dans une tâche de Stroop[7], une augmentation de l'effet d'interférence est observée par rapport aux autres positions dans le mot (Parris et al., 2007; Perret & Ducrot, 2010), témoignant d'un accès plus rapide aux représentations lexicales du mot écrit et ainsi, de processus d'inhibition plus couteux. Les différentes ILPs optimales pour l'identification des mots écrits (OVP et PVL) sont illustrées dans la Figure 3.

Des recherches indiquent également que la position d'atterrissage des saccades est guidée par les informations visuelles de bas niveau prises en compte lors du prétraitement parafovéal comprenant notamment les codes orthographiques, la longueur des mots ou encore l'espacement entre les caractères (Danna et al., 2018; Ducrot & Pynte, 2002; Juhasz et al., 2008; Paterson & Jordan, 2010; Rayner et al., 1998; Schotter et al., 2012). En ce sens, la présence d'irrégularités orthographiques ou de fautes d'orthographe au début d'un mot situé en parafovéa entraîne une ILP plus proche du début du mot (Hyönä, 1995; Plummer & Rayner, 2012; White & Liversedge, 2004). Les stratégies de

[7] Dans la tâche de Stroop, les stimuli sont des noms de couleurs écrits en couleur. Le participant doit dénommer la couleur d'encre du nom de couleur et inhiber la réponse associée à la lecture du nom. Dans certains cas, le nom de couleurs est congruent avec la couleur dans laquelle il est écrit (e.g., rouge écrit en rouge) et parfois il est incongruent (e.g., rouge écrit en bleu). Une condition neutre est également proposée afin d'étudier les effets d'interférence (i.e., comparaison entre les conditions neutre et incongruente) et de facilitation (i.e., comparaison entre les conditions neutre et congruente).

programmation des saccades prennent également en compte la longueur des mots situés en parafovéa : plus un mot est long, plus la position d'atterrissage de la saccade se décale vers la droite de sorte qu'elle corresponde toujours à une position optimale pour le traitement du mot écrit (e.g., Paterson et al., 2015; Plummer & Rayner, 2012; Vitu et al., 1990). Morris et al. (1990) ont montré que même en remplaçant le mot *n+1* par des Xs, les lecteurs effectuaient des saccades de plus grande amplitude lorsque l'item situé en parafovéa était plus long. Les auteurs interprètent ce résultat par l'influence des espaces inter-mots, délimitant le début et la fin du mot *n+1*, sur la programmation saccadique. Rayner et al. (1998) étaye cette idée en montrant un décalage de l'ILP vers le début du mot lorsque les espaces inter-mots ont été supprimés. Par ailleurs, il est important de noter que les mots sont, dans ces nombreuses études, des stimuli discrets et par conséquent que leur longueur est également composée d'un nombre d'espaces inter-lettres variables. Pour étudier cet effet, Ducrot et Pynte (2002) ont développé une tâche expérimentale de bissection oculaire dans laquelle les participants devaient déplacer leur regard vers le centre d'un stimulus présenté sur l'axe horizontal dans le CVG ou le CVD, puis appuyer sur un bouton lorsqu'ils pensaient fixer la bonne position. L'idée était de proposer une tâche qui engage spontanément une saccade vers un champ visuel ne nécessitant pas explicitement la lecture pour étudier l'ILP en fonction de différents types de stimuli : linguistiques (e.g., mots), non-linguistiques et discrets (e.g., séquences de dièses) ou encore non-linguistiques et continus (e.g., lignes). Au travers de plusieurs études, Ducrot et Pynte (2002) ont montré que la présence d'espaces entre les caractères d'un stimulus situé en parafovéa influençait la programmation saccadique et générait une ILP adaptée au traitement d'un stimulus linguistique.

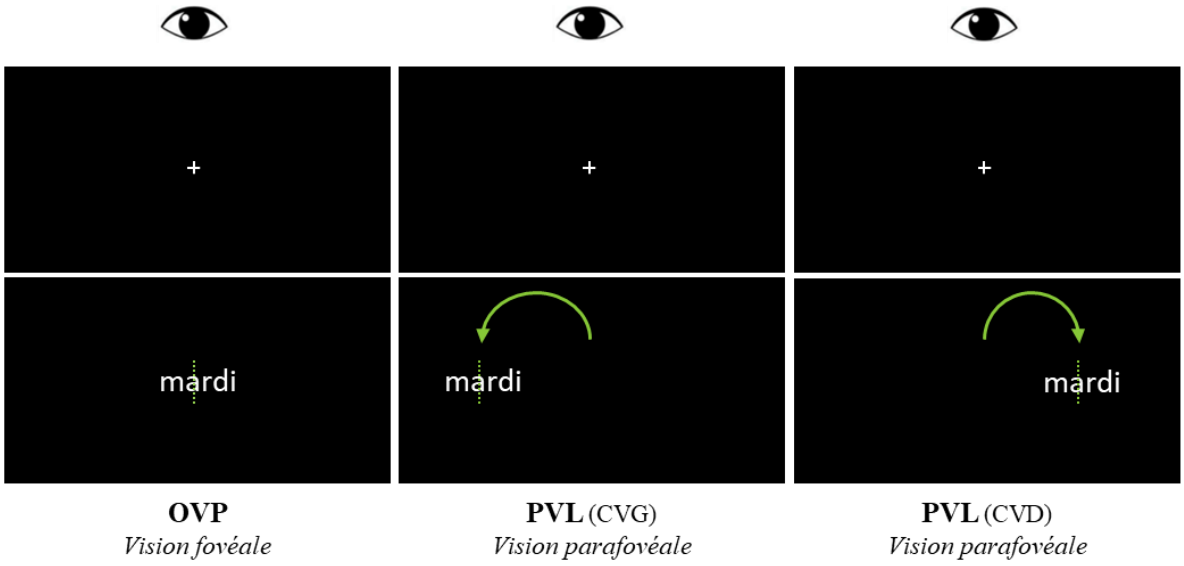


Figure 3. Représentation graphique des ILPs optimales pour l'identification des mots écrits avec l'OVP en vision fovéale (partie gauche de la figure), la PVL dans le CVG (partie centrale de la figure) et la PVL dans le CVD (partie droite de la figure).

Notes. Les flèches vertes représentent la saccade initiale effectuée vers le mot situé en parafovéa et les lignes pointillées vertes verticales représentent la position initiale d'atterrissage de l'œil sur le mot (ILP).

La détermination des ILPs dans les mots est étroitement liée à la distribution des ressources attentionnelles sur les mots. Ducrot et Pynte (2002) affirment que les stimuli contenant des espaces

inter-lettres entraînent une programmation saccadique prenant en compte la direction de l'exploration visuelle, générant une PVL en vue d'un balayage attentionnel ultérieur de gauche à droite (pour les langues alphabétiques se lisant de gauche à droite). L'asymétrie attentionnelle entre les champs visuels vient moduler cette stratégie de guidage oculaire entraînant une asymétrie gauche-droite dans l'amplitude des saccades (i.e., saccades plus longues dans le CVG que le CVD, afin d'être en mesure d'atteindre la PVL ; Ducrot & Pynte, 2002).

3. Émergence des stratégies perceptives et visuo-attentionnelles pour l'accès lexical

Au cours du développement et de l'apprentissage de la lecture, des modifications s'opèrent dans les processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels limitant la prise d'information (pour une revue récente, voir Gavril et al., 2021). Plusieurs modèles théoriques sur les mécanismes de lecture (e.g., modèles doubles voies et modèles de traitement visuo-attentionnel) ont été mis au point et permettent d'éclairer le lien entre ces modifications et la mise en place de stratégies dans le niveau d'analyse perceptive et le guidage oculaire.

3.1. Codage orthographique et accès lexical dans l'apprentissage de la lecture

La reconnaissance des mots écrits se base sur une conversion d'unités orthographiques en unités phonologiques en interaction avec les connaissances lexicales. Dans ce cadre, le codage orthographique constitue le point d'entrée du traitement lexical (Coltheart et al., 2001; Grainger, Dufau, et al., 2016; Grainger & Ziegler, 2011; Perry et al., 2007) et code l'identité et la position des lettres composant un mot (Grainger, 2018; Grainger & Van Heuven, 2004). C'est à ce niveau-là que les contraintes visuo-perceptives, précédemment décrites, telles que l'acuité visuelle ou les effets d'encombrement perceptif vont notamment s'exercer (Grainger, Bertrand, et al., 2016). Afin de déterminer la position des lettres dans le mot, les informations concernant leurs positions relatives par rapport au point de fixation sur le méridien horizontal doivent être associées à celles concernant l'emplacement des espaces inter-mots (Grainger & Van Heuven, 2004).

Les modèles à double voie de la lecture à voix haute, comme le modèle DRC (*Dual Route Cascaded* ; Coltheart et al., 2001) et les modèles CDP+ et CDP++ (Perry et al., 2007, 2010), définissent deux procédures de traitement orthographique : (1) une procédure sub-lexicale (indirecte) faisant intervenir le système de décodage graphophonologique et (2) une procédure lexicale (directe) permettant de déterminer l'identité orthographique des mots et de les mettre directement en lien avec leurs codes sémantiques et phonologiques. La voie indirecte est efficace pour la lecture de mots réguliers, inconnus ou de pseudo-mots mais aboutira à une lecture erronée de mots irréguliers. La voie directe implique, quant à elle, un traitement parallèle des lettres composant le mot et est particulièrement efficace pour la lecture de mots irréguliers.

Au cours de l'apprentissage, le lecteur passe progressivement d'une stratégie de décodage grapho-phonologique analytique vers un traitement préférentiellement lexical direct. La répétition

d'un décodage graphophonologique permet l'émergence du lexique sémantique (Share, 1995). Grainger et Ziegler (2011)[8] font l'hypothèse qu'au cours de ce processus de recodage phonologique, l'exposition répétée à des mots écrits permet la mise en place progressive du mode de traitement lexical avec un traitement parallèle des lettres qui composent le mot et ainsi, l'automatisation de la lecture.

Une autre manière d'appréhender le traitement des informations orthographiques concerne la distribution des ressources attentionnelles au niveau du mot. Le modèle connexionniste multi-traces (*MultiTrace Memory model, MTM* ; Ans et al., 1998) a initialement postulé l'existence d'une fenêtre visuo-attentionnelle qui définit la quantité d'information orthographique pouvant être traitée à chaque fixation et qui s'adapte à la nature des informations à traiter. Tout comme les modèles à double voie, il envisage deux procédures de traitement dans laquelle la fenêtre visuo-attentionnelle déployée serait différente. Lorsqu'un mot est perçu, le traitement global va d'abord être mis en œuvre avec une fenêtre visuo-attentionnelle englobant l'intégralité du mot à lire. Cette procédure est efficace pour les mots familiers. En revanche, dans le cas où aucune représentation lexicale du mot ne préexiste (i.e., mots inconnus ou pseudo-mots), le lecteur passe au mode de décodage analytique avec une fenêtre visuo-attentionnelle déployée uniquement sur des unités orthographiques sub-lexicales. Bosse et Valdois (2009) ont montré que la taille de la fenêtre visuo-attentionnelle, mesurée à partir de l'empan visuo-attentionnel, s'accroît en parallèle de l'apprentissage de la lecture et par conséquent, du développement du lexique orthographique.

Plus récemment, le modèle BRAID (*Bayesian word Recognition using Attention, Interference and Dynamics* ; Ginestet et al., 2019; Phenix, 2018) a envisagé une distribution probabiliste de l'attention sur les lettres du mot. Ce modèle est défini par une architecture à 3 niveaux principaux[9] incluant : (1) un sous-modèle sensoriel des lettres qui intègre les contraintes liées aux limites du système visuel (i.e., acuité visuelle et phénomène d'encombrement perceptif), (2) un sous-modèle perceptif des lettres qui rend compte de l'encodage et du maintien des représentations orthographiques des lettres et enfin, (3) un sous-modèle des connaissances lexicales témoignant de l'encodage du lexique orthographique à partir d'une distribution probabiliste de l'ordre des lettres composants les mots. L'une des particularités de ce modèle est qu'il inclut également un sous-modèle d'attention visuelle effectuant l'intermédiaire entre les sous-modèles sensoriel et perceptif des lettres. Il va déterminer la répartition des ressources attentionnelles sur les lettres du mot et ainsi moduler le transfert des informations vers le sous-modèle de traitement perceptif. Les ressources attentionnelles sont distribuées selon une loi gaussienne unidimensionnelle avec pour moyenne la position centrale du focus attentionnel (ici le centre du mot) et avec une dispersion variable autour de cette position. Ainsi, quelle que soit la dispersion, plus une lettre est éloignée de cette position, moins elle bénéficiera de ressources attentionnelles pour son traitement. Dans ce modèle, les lettres sont traitées en parallèle mais c'est la quantité totale de ressources attentionnelles disponibles et sa répartition sur le mot qui va déterminer leur traitement. La Figure 4 présente deux exemples de répartition de l'attention visuelle sur le mot. Au cours du développement, les paramètres de distribution des ressources visuo-attentionnelles (i.e., focalisation et dispersion attentionnelles) vont s'ajuster avec l'exposition répétée

[8] À noter que cette hypothèse est décrite dans une approche double voie du traitement orthographique en lecture silencieuse, n'impliquant donc pas de production orale en sortie.

[9] À ces 3 sous-modèles principaux s'ajoutent deux sous-modèles : le sous-modèle d'attention visuelle détaillé ensuite et le sous-modèle d'appartenance lexicale qui permet de rendre compte des processus de décision lexicale.

aux mots écrits (Ginestet et al., 2022). La première exposition à un mot implique une distribution de l'attention sur des unités sub-lexicales nécessitant un déploiement attentionnel ultérieur sur les unités orthographiques non traitées et un nombre plus important de fixations sur le mot. Avec l'exposition répétée, le sous-modèle des connaissances lexicales va exercer une influence descendante[10] sur le traitement des lettres qui le composent et induire une distribution de l'attention plus étendue, à l'échelle lexicale. Si nous faisons le parallèle avec le modèle MTM (Ans et al., 1998), l'augmentation de la taille de l'empan visuo-attentionnel au cours de l'apprentissage pourrait être le reflet d'une augmentation de la dispersion des ressources attentionnelles disponibles sur les mots avec l'accroissement des connaissances lexicales.

Finalement, les deux catégories de modèles évoquées (i.e., modèles à double voie et modèles visuo-attentionnels) témoignent du passage d'un traitement orthographique analytique basé sur des unités sub-lexicales (i.e., graphèmes ou syllabes) chez le lecteur débutant vers un traitement parallèle global des lettres qui composent le mot avec l'apprentissage et l'automatisation de la lecture. Cette transition s'accompagne de modifications dans l'efficience des processus visuo-perceptifs, visuo-attentionnels et inhérents au guidage oculaire.

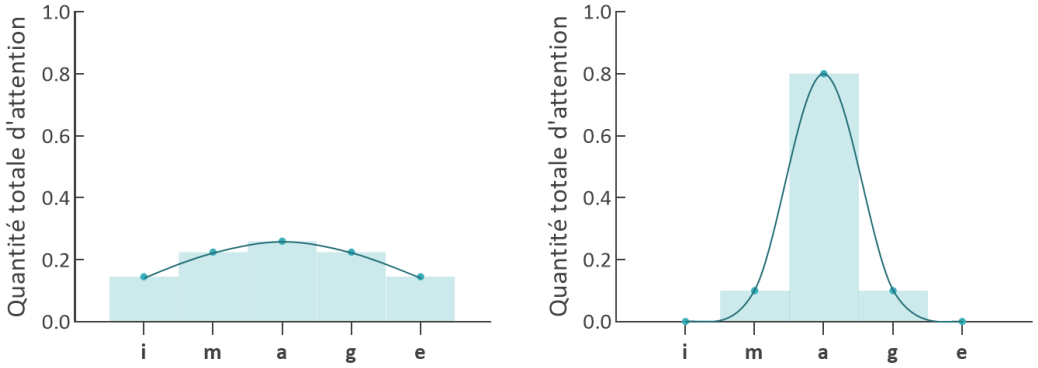


Figure 4. Représentations graphiques illustrant deux distributions différentes de l'attention sur le mot « image » selon le modèle BRAID (graphiques adaptés de Ginestet et al., 2019).

Notes. La dispersion des ressources attentionnelles est plus importante dans le graphique de gauche que de droite avec à gauche une distribution attentionnelle répartie sur l'ensemble des lettres composants le mot et à droite une distribution réduite à seulement 3 lettres.

3.2. Développement des limites perceptives pour la prise d'informations visuelles

Chez le lecteur débutant, l'empan perceptif s'étendrait à seulement 11 caractères à droite du point de fixation, ce qui atteste d'un traitement davantage focalisé sur la zone fovéale par rapport aux lecteurs experts, bien qu'une distribution asymétrique des ressources attentionnelles soit déjà observée (Häikiö et al., 2009; Rayner, 1986). Une augmentation significative de la taille de l'empan perceptif s'opère entre le CE1 et le CE2, témoignant de l'influence des compétences de lecture sur le

[10] Les processus descendants, nommés *top-down* en anglais, sont guidés par des facteurs cognitifs, notamment par les connaissances, et vont influencer la perception. Au contraire, les processus ascendants, nommés *bottom-up*, sont guidés par les caractéristiques perceptives des stimuli traités.

déploiement des ressources attentionnelles nécessaires à la prise d'information (Meixner et al., 2022; Sperlich et al., 2016). Cette idée est en accord avec (1) l'empan perceptif plus étroit chez les lecteurs lents par rapport aux lecteurs rapides et (2) l'empan perceptif réduit chez les lecteurs non-natifs par rapport aux lecteurs natifs (Leung et al., 2014).

L'empan perceptif réduit chez les lecteurs débutants est généralement mis en lien avec la quantité de ressources attentionnelles nécessaires au traitement du mot fixé. Meixner et al. (2022) ont notamment montré que la fréquence du mot en fovéa modulait la taille de l'empan perceptif et aurait ainsi un impact sur le traitement du mot situé en parafovéa. L'effet de charge fovéale sur la taille de l'empan perceptif émerge entre le CP et le CE1 et augmente significativement à partir du CE2 en parallèle de l'augmentation de l'empan perceptif.

3.3. Spécificités des processus visuo-attentionnels chez le jeune lecteur

3.3.1. Distribution des ressources attentionnelles en fovéa avec l'apprentissage

Au cours de l'apprentissage de la lecture, le déploiement des ressources attentionnelles va progressivement s'optimiser pour le traitement des mots écrits. Au niveau fovéal, une augmentation significative de la taille de l'empan visuo-attentionnel a été montrée durant les cinq premières années d'apprentissage de la lecture, du CP au CM2 (Bosse & Valdois, 2009). Au début de l'apprentissage de la lecture, l'empan visuo-attentionnel contribuerait dans un premier temps à la lecture de pseudo-mots (procédure graphophonologique) puis avec l'automatisation, il deviendrait un facteur important pour la lecture de mots irréguliers (Bosse et al., 2009). L'empan visuo-attentionnel est aussi lié à la vitesse de lecture durant son apprentissage (Lobier et al., 2013; Valdois et al., 2019).

3.3.2. Prétraitement parafovéal chez le jeune lecteur

Les études récentes sur le prétraitement parafovéal ont montré que très rapidement dans l'apprentissage de la lecture, les enfants sont capables d'effectuer un prétraitement orthographique concernant l'identité et l'ordre des lettres du mot situé en parafovéa (Johnson et al., 2018; Khelifi et al., 2015; Milledge et al., 2021; Pagán et al., 2016; Tiffin-Richards & Schroeder, 2015). Dès le CP, Snell et al. (2021) ont rapporté, dans un paradigme de *Flanker*, un effet de la similarité orthographique des mots situés dans le CVD et le CVG sur la vitesse de reconnaissance d'un mot cible situé en fovéa. Ce résultat suggère que dès la première année d'apprentissage explicite de la lecture, l'attention est distribuée au-delà du mot fixé. Des études ont également révélé que les enfants âgés de 8-9 ans étaient sensibles à la transposition des 3 premières lettres d'un mot situé en parafovéa pour le traitement ultérieur de celui-ci (Pagán et al., 2016; Tiffin-Richards & Schroeder, 2015). Plus spécifiquement, un prétraitement de l'intégralité du mot *n+1* a été montré, avec une plus forte sensibilité aux manipulations orthographiques des lettres externes que des lettres internes du mot situé en parafovéa (Milledge et al., 2021). Sur le plan développemental, Johnson et al. (2018) ont mis en évidence que l'extraction des informations parafovéales concernant l'identité des lettres est réalisée dès l'âge de 6 ans puis avec l'expertise en lecture, un nombre plus important d'informations parafovéales peuvent être extraites simultanément. Cette observation est cohérente avec l'influence de la longueur des mots

sur les effets *Flankers* chez les jeunes lecteurs. En ce sens, Cauchi et al. (2022) ont mis en évidence un bénéfice de la similarité orthographique des mots situés en parafovéa, seulement pour les formes radicales (i.e., formes courtes) et non leurs dérivés suffixés (i.e., forme longue). Ce résultat pourrait être mis en lien avec la taille de l'empan perceptif qui s'accroît au cours de l'apprentissage et l'automatisation de la lecture. Plus l'empan perceptif est large, plus un nombre important d'informations situées en parafovéa peuvent être traitées en une fixation (Rayner et al., 2010). Un bénéfice du prétraitement phonologique de pseudo-homophones[11] a également été identifié chez des enfants âgés de 8-9 ans (Tiffin-Richards & Schroeder, 2015) témoignant ainsi du processus de recodage phonologique lors du pré-traitement parafovéal chez les jeunes lecteurs (Milledge et al., 2022).

Plusieurs études ont montré que l'allocation des ressources attentionnelles en parafovéa chez l'apprenti-lecteur était asymétrique, avec un biais en faveur des items situés dans le CVD, de façon analogue au lecteur expert (Bricout-Tomasi et al., 2010; Ducrot et al., 2013; Siéroff & Riva, 2011). Cet avantage du CVD a été rapporté dès l'âge préscolaire pour l'identification de lettres, quelle que soit la langue (i.e., se lisant de gauche à droite ou de droite à gauche), étayant l'hypothèse d'une implication primaire des hémisphères cérébraux dans l'asymétrie des champs visuels (Both-De Vries et al., 2016). À noter que la distance à partir de laquelle l'information peut être traitée reste malgré tout réduite à moins de 6 caractères chez les enfants de maternelle. Pour les mots, l'asymétrie en faveur du CVD a été observée dès le CP (dans les langues alphabétiques se lisant de gauche à droite ; Bellocchi et al., 2019; Ducrot et al., 2013). Ces résultats témoignent de la mise en place précoce, dès les premières années d'exposition à l'écrit, de procédures automatisées de programmation saccadique vers le CVD. Le développement de ce biais attentionnel pour les mots durant la première année d'apprentissage de la lecture est en accord avec l'émergence des compétences d'attention *covert*[12] entre 6 et 8 ans (Leclercq & Siéroff, 2013). Dès l'âge de 7 ans, cette asymétrie dans la distribution des ressources attentionnelles en parafovéa devient similaire à celle observée chez les adultes (Siéroff & Riva, 2011).

3.4. Niveau de traitement perceptif global-local

Le déploiement des ressources attentionnelles sur les informations visuelles module le niveau de traitement perceptif mis en œuvre. Le traitement orthographique des mots implique un groupement perceptif entre des éléments qui le composent (les lettres). Un mot constitue donc un objet visuel composé de plusieurs niveaux de traitement perceptif avec un niveau global (mot) et un niveau local (graphèmes et syllabes). La question du niveau de traitement a été introduite par Navon (1977), au moyen de stimuli avec des niveaux de traitement hiérarchiques, permettant d'étudier (1) la primauté d'un niveau de traitement sur l'autre et (2) les facteurs modulant la mise en place d'un type d'analyse (e.g., Datin-Dorrière et al., 2021; Franceschini et al., 2021; Krakowski et al., 2015; Mondloch et al., 2003; Porporino et al., 2004). La Figure 5 illustre des exemples de stimuli utilisés dans ce cadre. De

[11] Il s'agit d'un pseudo-mot phonologiquement identique à un mot existant (e.g., « siel » est un pseudo-homophone de « ciel » ; Farioli et al., 2011)

[12] L'attention *covert* correspond au déplacement du focus attentionnel sans mouvement oculaire associé (Carrasco, 2011).

nombreuses études ont rapporté un effet de primauté du traitement global par rapport au traitement local chez l'adulte (Austen & Enns, 2000; Krakowski et al., 2015, 2016, 2018; Navon, 1977; Poirel et al., 2014). Dans ce cadre, un effet d'interférence est montré lorsque l'individu doit identifier la cible au niveau local, tandis que l'identification au niveau global n'affiche pas d'interférence et ce, quel que soit le niveau de saillance du stimulus au niveau global (Krakowski et al., 2018). Ainsi, lors du traitement de l'information locale, l'adulte doit effectuer un traitement supplémentaire en inhibant la primauté du traitement global (Krakowski et al., 2018; Poirel et al., 2014).

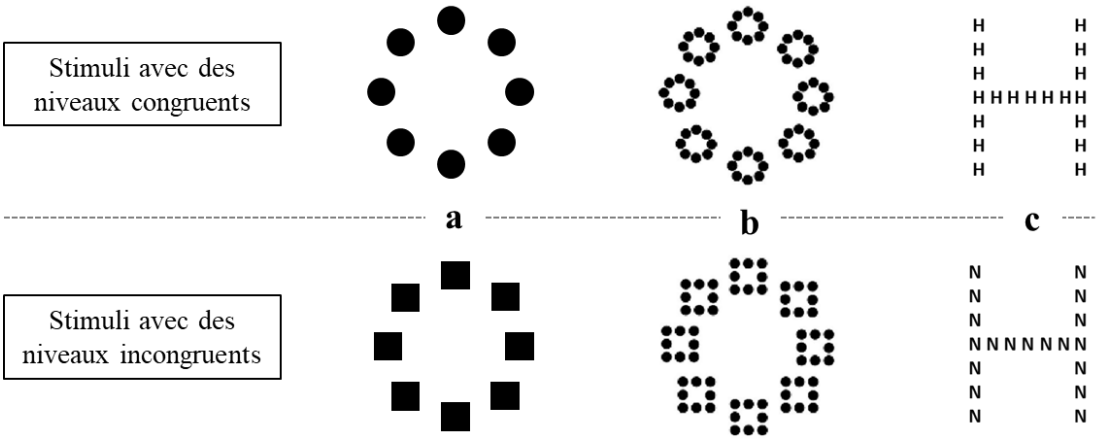


Figure 5. Exemples de stimuli hiérarchiques utilisés pour étudier les différents niveaux d'analyse perceptive.

Notes. Trois types de stimuli hiérarchiques sont présentés dans cette illustration : (a) des stimuli à deux niveaux de traitement basés sur les formes avec au niveau global un rond et au niveau local des ronds (condition congruente en haut) ou des carrés (condition incongruente en bas), (b) des stimuli à trois niveaux de traitement basés sur les formes avec au niveau global et local des ronds et au niveau intermédiaire des ronds (condition congruente en haut) ou des carrés (condition incongruente en bas), et enfin (c) des stimuli à deux niveaux de traitement basés sur les lettres avec au niveau global la lettre H et au niveau local des lettres H (condition congruente en haut) ou des lettres N (condition incongruente en bas).

Au cours du développement, des modifications qualitatives de l'analyse perceptive s'opèrent. Alors que les enfants d'âge préscolaire (i.e., avant 6 ans) manifestent un biais de traitement perceptif plutôt en faveur du traitement local, dès 7 ans la primauté du traitement global est mise en place. Les effets d'interférences deviennent ensuite similaires à l'adulte dès l'âge de 9-10 ans (Krakowski et al., 2016, 2018; Poirel et al., 2008; Porporino et al., 2004; Schmitt et al., 2019). Le passage d'un type de stratégie à l'autre est fortement marqué entre 5 et 6 ans. L'année des 6 ans constituerait la période de transition durant laquelle un gain d'efficacité du traitement visuel s'opérerait en faveur du traitement des informations globales (Poirel et al., 2008, 2011). La maturation des processus attentionnels et exécutifs constitue un facteur clé expliquant la trajectoire développementale observée dans les stratégies d'analyse perceptive mises en place. Déjà chez l'adulte, le déploiement des ressources attentionnelles sur l'information visuelle module le niveau de traitement perceptif mis en place. En attention distribuée, l'effet de primauté du traitement global est observé, tandis qu'en attention focalisée, les performances pour détecter un changement au niveau local ou au niveau global sont similaires (Austen & Enns, 2000). Chez l'enfant, la mise en place de l'effet de primauté de l'analyse perceptive globale vers 6-7 ans, qui devient comparable à l'adulte dès 9-10 ans, s'effectue en parallèle du développement des processus attentionnels et exécutifs. En effet, dès 7 ans les processus

d'engagement, de déplacement et de distribution de l'attention sont efficients et c'est à 9-10 ans que le contrôle des ressources attentionnelles, permettant l'inhibition des informations non pertinentes[13], devient efficace (Leclercq & Siéroff, 2013; Michael et al., 2013). À noter que les processus d'inhibition se développent progressivement au cours de l'enfance et de l'adolescence (Best & Miller, 2010; Gil-Gómez de Liaño et al., 2020; Macdonald et al., 2014; Roy et al., 2018). Il est donc possible de faire le parallèle entre les compétences de distribution et de déplacement attentionnel et la primauté du traitement global mis en place à 6-7 ans, mais aussi entre les processus d'inhibition et les effets d'interférences similaires à l'adulte dès 9-10 ans (Krakowski et al., 2016; Poirel et al., 2008).

La mise en place de la primauté du traitement global à partir de 6 ans coïncide avec le début de l'apprentissage explicite de la lecture en classe de CP (Krakowski et al., 2016; Poirel et al., 2008). Elle correspond également à la période à laquelle le processus d'inhibition de l'effet de généralisation en miroir face à des items orthographiques se met en place (Ahr et al., 2016). Ce constat est en accord avec l'idée que le traitement orthographique en lecture implique des niveaux différents d'analyses perceptives avec les graphèmes à un niveau local, les syllabes à un niveau intermédiaire et les mots au niveau global. Krakowski et al. (2016) ont mis en évidence une primauté du niveau intermédiaire seulement à l'âge de 6 ans, correspondant à l'âge où le décodage grapho-phonologique à partir d'unités sub-lexicales est préférentiellement mis en place pour l'apprentissage. Dans ce cadre, la primauté du traitement global dès 7 ans refléterait le passage vers un mode de traitement lexical à l'échelle du mot. Ce processus de transition de la primauté du traitement intermédiaire à 6 ans vers celle du traitement global est en accord avec le passage, durant l'automatisation de la lecture, entre les deux procédures décrites par les modèles à double voie présentés dans la section précédente (Coltheart et al., 2001; Grainger & Ziegler, 2011; Perry et al., 2007, 2010). En ce sens, Franceschini et al. (2021) ont étudié l'effet du niveau d'analyse perceptive sur le traitement lexical et sub-lexical en lecture. Les résultats montrent qu'après un amorçage au niveau local, la lecture de mots irréguliers est ralentie par rapport à la lecture de mots réguliers, suggérant qu'une analyse perceptive locale limite le traitement rapide des mots écrits et donc le passage par la procédure lexicale chez les lecteurs experts. Cela peut s'expliquer par le déploiement réduit des ressources visuo-attentionnelles à la suite d'un amorçage local. Cette hypothèse concorde avec l'idée que le niveau d'analyse perceptive dépend de la répartition spatiale des ressources attentionnelles et est en accord avec les modèles MTM et BRAID décrits dans la section précédente (Ans et al., 1998; Ginestet et al., 2019, 2022). Dans ces modèles, le déploiement des ressources visuo-attentionnelles à l'échelle du mot en première intention est concordant avec la primauté du traitement global et, en cas de non-pertinence de cette nature d'analyse perceptive (i.e., nouveaux mots non encodés dans les connaissances lexicales), la dispersion des ressources attentionnelles serait réduite à des unités sub-lexicales (niveau d'analyse perceptive locale) nécessitant une inhibition du traitement global. Ainsi, le niveau d'analyse perceptive et les mécanismes attentionnels et exécutifs qui en découlent apparaissent centraux dans l'apprentissage et l'automatisation de la lecture.

[13] En se référant au modèle de Diamond (2013), le contrôle attentionnel serait impliqué dans le contrôle inhibiteur. Il permet de sélectionner l'information pertinente à traiter et d'inhiber l'attention portée sur d'autres stimuli.

3.5. Optimisation du comportement oculaire au cours de l'apprentissage

3.5.1. Comportement oculaire au cours de l'acquisition de la lecture

En parallèle de la mise en place de processus visuo-attentionnels et d'analyse perceptive efficients pour la lecture, une optimisation des paramètres oculomoteurs s'opère également : la durée, le nombre de fixations ainsi que le nombre de régressions diminuent alors que l'amplitude des saccades et la probabilité de sauter un mot augmentent (Blythe et al., 2009; Ducrot et al., 2013; Häikiö et al., 2009; Huestegge et al., 2009; Joseph et al., 2009; Lopukhina et al., 2022; Vorstius et al., 2014 ; et pour des revues, voir Blythe, 2014; Blythe & Joseph, 2011). Le pourcentage de refixation diminue également : près de 26 % des mots sont refixés au CP tandis qu'entre 7 et 9 ans cette probabilité diminue à 15 -20 % (Blythe et al., 2009; Vorstius et al., 2014). La modification de ces paramètres oculomoteurs est à mettre en lien avec l'augmentation de la taille de l'empan perceptif au cours du développement (Häikiö et al., 2009). En effet, un empan perceptif plus étendu est associé à une programmation saccadique plus efficace, incluant notamment la position d'arrivée et l'amplitude des saccades (Häikiö et al., 2009).

3.5.2. Émergence des effets de position du regard au cours de l'apprentissage : OVP et PVL

Durant l'apprentissage de la lecture, l'émergence de la PVL est rapide et devient comparable à celle des adultes dès la fin du CP (Aghababian & Nazir, 2000; Ducrot et al., 2013). Au début de l'apprentissage, le lecteur tend à initialement fixer le début du mot et très rapidement un décalage va s'observer vers le centre-gauche du mot. À noter que celui-ci ne dépasse pas un demi-caractère (Ducrot et al., 2013; Huestegge et al., 2009). Ces modifications se manifestent par l'optimisation des paramètres oculomoteurs précédemment décrits. Ce changement développemental au cours des premières années d'apprentissage pourrait refléter la transition d'un traitement séquentiel vers un traitement parallèle des lettres qui composent les mots (Leibnitz et al., 2017; Mancheva et al., 2015). Sur la base des modèles double voie précédemment décrits (Coltheart et al., 2001; Grainger & Ziegler, 2011; Perry et al., 2007), l'enfant passerait rapidement d'un mode de décodage grapho-phonologique (procédure sub-lexicale) avec un déplacement séquentiel du regard sur les mots, à un mode de traitement orthographique (procédure lexicale) avec une position d'arrivée dans les mots située à la PVL pour le traitement des mots en une seule fixation. De même, l'attention déployée sur les mots serait adaptée au mode de traitement global privilégié (Ans et al., 1998; Ginestet et al., 2022) et serait liée à l'efficacité des paramètres oculomoteurs (Ginestet et al., 2022; Prado et al., 2007). Ainsi, au cours de la première année d'apprentissage, le guidage oculaire et notamment la PVL s'ajuste en parallèle de la mise en place d'une stratégie optimale de traitement lexical et visuo-attentionnel pour la lecture de mots.

Des recherches indiquent que tout comme chez l'adulte expert, très rapidement au cours de l'apprentissage, la position d'atterrissage des saccades du jeune lecteur est en partie guidée par les informations visuelles de bas niveau prises en compte lors du prétraitement parafovéal telles que la longueur des mots ou encore l'espacement entre les caractères (Bellocchi et al., 2019; Danna et al., 2018; Joseph et al., 2009). Comme précédemment décrit chez l'adulte, la longueur des mots situés en parafovéa influence la programmation saccadique chez l'enfant de sorte qu'un mot long entraîne une

ILP plus loin dans le mot qu'un mot court, afin d'atterrir à une position optimale pour le traitement du mot écrit. Le rôle des espaces inter-caractères dans la programmation saccadique a été étudié au travers de la tâche expérimentale, précédemment décrite, de bissection oculaire développée par Ducrot et Pynte (2002). Avec cette tâche, Bellocchi et al. (2019) ont constaté que les ILPs des enfants scolarisés en CM2 étaient, comme pour les lecteurs experts, situées à la PVL pour les stimuli discrets (i.e., comprenant des espaces inter-caractères ; mots et séquences de dièses) que ce soit dans le CVD ou le CVG. Toutefois, les lecteurs débutants étaient uniquement influencés par la nature linguistique des stimuli entraînant une distribution asymétrique des ILPs (avec des saccades visant la PVL) seulement pour les mots. La distribution de leurs ILPs était symétrique pour les stimuli non-linguistiques (voir aussi Bellocchi et al., 2013). Les lecteurs débutants seraient ainsi initialement influencés par la nature linguistique des stimuli dans la programmation saccadique, tandis que la position initiale de fixation chez le lecteur expert dépendrait de la présence d'espaces inter-caractères (Bellocchi et al., 2019; Ducrot & Pynte, 2002). Avec l'expertise, le caractère discret des stimuli deviendrait l'un des éléments perceptifs clés pour la programmation saccadique vers la PVL.

Pour résumer, au cours de l'apprentissage, le lecteur va progressivement mettre en place des stratégies oculomotrices et visuo-attentionnelles optimales pour le traitement des mots écrits, afin de pallier les contraintes perceptives et attentionnelles induites par les limites du système visuel. La première année d'apprentissage explicite de la lecture va marquer la transition progressive (1) d'une procédure analytique de traitement avec une stratégie d'analyse perceptive en faveur du traitement local et une position initiale de fixation proche du début du mot, vers (2) une procédure de traitement lexical direct avec une primauté du niveau de traitement perceptif global et l'émergence d'une PVL visant à l'identification du mot écrit en une seule fixation.

4. Déficits perceptifs et visuo-attentionnels dans les troubles de la lecture

En plus des composantes linguistiques impliquées dans les troubles de la lecture et notamment dans la dyslexie développementale, les processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels nécessaires à la prise d'informations orthographiques ont été rapportés comme étant différents des lecteurs experts (pour des revues, voir Bellocchi et al., 2013; Facoetti et al., 2019).

4.1. Spécificités des processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels

4.1.1. Allocation des ressources attentionnelles en fovéa

Au niveau fovéal, une réduction de la distribution des ressources visuo-attentionnelles limite le traitement parallèle des lettres composant un mot (Prado et al., 2007; Valdois et al., 2021). En ce sens l'empan visuo-attentionnel a été identifié comme un facteur explicatif de la variabilité du niveau de lecture et ainsi des difficultés associées et ce, indépendamment des processus phonologiques (Bosse et al., 2007; Liu et al., 2022; Lobier et al., 2013; Valdois et al., 2019). Liu et al. (2022) ont d'ailleurs

montré que les déficits phonologiques et d'empan visuo-attentionnel étaient sous-tendus par des réseaux neuronaux distincts. La réduction de l'empan visuo-attentionnel limiterait le passage d'une procédure de décodage graphophonologique vers une procédure lexicale de traitement, comme le feraient les normo-lecteurs (Bosse et al., 2009).

En plus de la réduction de l'empan visuo-attentionnel, un ralentissement de l'orientation de l'attention visuo-spatiale a également été montré chez les enfants présentant une dyslexie développementale. Cette observation est en accord avec l'hypothèse d'une lenteur du déplacement des ressources attentionnelles (i.e., *sluggish attentionnal shifting* ; Facoetti et al., 2003; Hari & Renvall, 2001). Ce déficit touche à la fois l'attention visuelle dans sa composante spatiale et temporelle (Facoetti et al., 2006; Ruffino et al., 2010, 2014). Il serait en fait lié à l'orientation séquentielle de l'attention nécessaire au décodage graphophonologique (Bedoin, 2014; Franceschini et al., 2012). Ce déficit peut impacter la procédure lexicale dans le déplacement inter-mots du focus attentionnel et l'adaptation nécessaire de la taille de ce faisceau attentionnel. Dans ce cadre, Bedoin (2014) a mis en évidence des difficultés d'engagement et de désengagement attentionnel spécifiques à la nature de la procédure de traitement affectée. Un déficit en lecture de mots irréguliers, témoignant d'une procédure lexicale altérée, est associé à un défaut d'engagement volontaire de l'attention visuelle vers les stimuli proches situés dans le CVG. Par ailleurs, un déficit en lecture de pseudo-mots, témoignant de difficultés de décodage graphophonologique des unités sub-lexicales, est associé à un défaut de désengagement de l'attention visuelle pour une réorientation vers les stimuli cibles proches situés dans le CVG.

4.1.2. Spécificités du prétraitement parafovéal et de la distribution de l'attention

Les difficultés d'engagement et de désengagement attentionnel, précédemment décrites, sont en accord avec une allocation atypique des ressources attentionnelles en parafovéa. En ce sens, le bénéfice du prétraitement parafovéal orthographique montré chez les lecteurs experts (voir section 2.2.2 Bénéfice du prétraitement) est rapporté comme étant significativement réduit chez les individus présentant une dyslexie (S. Silva et al., 2016), tout comme chez les lecteurs débutants (Johnson et al., 2018). Plus précisément, un effet de prétraitement est mis en évidence lorsque le stimulus *n+1* est identique à la cible, mais l'effet diminue de manière significativement plus importante par rapport aux lecteurs experts dès lors qu'une transposition au sein du bigramme initial est réalisée (Kirkby et al., 2022). Ainsi les lecteurs présentant une dyslexie sont capables d'extraire des informations parafovéales sur l'identité et la position des lettres initiales d'un mot, mais celles-ci sont traitées de manière moins flexible que chez les lecteurs experts. La dépendance à l'égard de l'information sur la position des lettres dans la dyslexie refléterait des difficultés d'activation des codes phonologiques lorsque le stimulus *n+1* a subi une modification (substitution ou transposition de lettres ; Kirkby et al., 2022). Les fragilités dans le prétraitement des informations parafovéales peuvent expliquer en partie la diminution de la probabilité de saut de mots ainsi que l'augmentation de la durée et du nombre de fixations (Pynte et al., 2004; Schotter et al., 2012).

Une asymétrie importante dans la distribution de l'attention est également rapportée chez les enfants dyslexiques. Alors que des effets d'indiçage spatial similaires entre le CVG et le CVD sont observés chez les lecteurs experts, une allocation anormalement importante des ressources

attentionnelles dans le CVD est rapportée dans la dyslexie et est associée à un déficit d'analyse dans le CVG (e.g., Facoetti & Turatto, 2000; Geiger et al., 2008; Lorusso et al., 2004). Deux hypothèses principales ont été proposées pour expliquer ce phénomène : celle d'une mini-négligence des informations situées dans le CVG (Facoetti et al., 2006; Facoetti & Turatto, 2000; Hari, 2001; Liddle et al., 2009) et celle d'un défaut de filtrage attentionnel des informations parafovéales dans le CVD (Facoetti & Turatto, 2000; Geiger et al., 2008; Lorusso et al., 2004). Les individus atteints de dyslexie manifesteraient des difficultés à restreindre le faisceau attentionnel et ainsi à inhiber les informations en vision périphérique dans le CVD (Geiger et al., 2008; Lorusso et al., 2004). Ce défaut de filtrage des informations situées dans ce champ visuel permet de rendre compte du phénomène d'encombrement perceptif pour lequel les individus avec une dyslexie présentent une grande sensibilité (Bellocchi, 2013; Gori & Facoetti, 2015; Martelli et al., 2009; Spinelli et al., 2002; Zorzi et al., 2012). En ce sens, la réduction de l'encombrement perceptif, par le biais d'un espacement inter-lettres et inter-mots augmenté et d'un nombre de mots réduits par ligne, améliore les performances de lecture des enfants présentant des difficultés de lecture et plus spécifiquement des enfants atteints de dyslexie (Perea et al., 2012; Schneps et al., 2013; Spinelli et al., 2002; Zorzi et al., 2012).

4.2. Hypothèse magnocellulaire-dorsale de la dyslexie

Les difficultés dans les processus visuels retrouvées dans la dyslexie ont été mises en lien par certains auteurs avec l'hypothèse causale d'un dysfonctionnement de la voie visuelle magnocellulaire-dorsale (pour des revues récentes, voir Kristjánsson & Sigurdardottir, 2022; Stein, 2022). Les études qui se sont intéressées à cette question ont principalement utilisé deux paradigmes, l'illusion de double fréquence spatiale et la détection du mouvement, impliquant l'activation de la voie visuelle magnocellulaire-dorsale. Un certain nombre de ces études ont mis en évidence des performances plus faibles à ces tâches chez les individus présentant une dyslexie par rapport à des normo-lecteurs (Gori et al., 2016; Hill & Raymond, 2002; Kevan & Pammer, 2009). Le dysfonctionnement magnocellulaire fréquemment retrouvé chez les enfants présentant une dyslexie (i.e., chez près de 75 % des enfants selon Talcott et al., 1998) serait causé par une désorganisation et une réduction de la taille des cellules de la voie magnocellulaire (Livingstone et al., 1991). Toutefois, l'hypothèse d'une causalité entre les déficits des processus visuels et les troubles de la lecture est controversée (pour une discussion, voir Blythe et al., 2018). En effet, tous les enfants présentant une dyslexie ne manifestent pas systématiquement des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles associées (Ramus, 2003; Saksida et al., 2016) et les différences obtenues aux tâches comportementales activant la voie magnocellulaire entre les enfants avec une dyslexie et ceux présentant un développement typique ne peuvent pas être directement associées à l'activité de lecture (Hutzler et al., 2006). Il convient donc d'être prudent dans l'interprétation du lien causal entre un dysfonctionnement magnocellulaire et la nature des difficultés visuelles retrouvées en lecture chez les enfants avec une dyslexie. Frith et Frith (1996) proposent que la faible sensibilité magnocellulaire chez les enfants avec une dyslexie ne soit pas directement la cause des déficits des processus visuels retrouvés en lecture chez ces enfants, mais plutôt le marqueur d'une déviance génétique qui se manifesterait de plusieurs façons. Les difficultés de lecture pourraient ainsi être la conséquence de l'une de ces autres manifestations. En ce sens, Hutzler et al. (2006) ne trouvent pas de corrélations significatives entre les performances en détection

de mouvement (activant la voie magnocellulaire de traitement) et les paramètres du guidage oculaire en lecture de pseudo-mots. Ce résultat est observé malgré (1) une variabilité dans la sensibilité magnocellulaire chez les participants et (2) une différence significative entre les enfants dyslexiques et contrôles dans le nombre de fixations et la durée d'exploration du regard en lecture de pseudo-mots. Qui plus est, un certain nombre d'études ne trouvent pas de différences entre les lecteurs typiques et ceux présentant une dyslexie dans des tâches visuelles n'impliquant pas de lecture (Black et al., 1984; Hutzler et al., 2006; Vikesdal et al., 2021; Vinuela-Navarro et al., 2017). Ainsi, malgré la présence d'une sensibilité magnocellulaire réduite chez certains enfants atteints de dyslexie, la spécificité des processus visuo-perceptifs, visuo-attentionnels et des mouvements oculaires en lecture seraient plutôt le reflet du niveau de lecture de ces enfants.

4.3. Stratégie inefficiente du niveau d'analyse perceptive

Les spécificités visuo-perceptives et visuo-attentionnelles pour la prise d'informations orthographiques différentes dans la dyslexie se traduisent par des stratégies de niveau d'analyse perceptive peu optimales. Les enfants avec une dyslexie témoignent notamment d'une stratégie perceptive reposant de manière excessive sur le niveau local d'analyse avec un défaut du traitement global par rapport aux lecteurs typiques (Bedoin, 2017; Franceschini et al., 2017; Schmitt et al., 2019). Un biais de traitement perceptif local a d'ailleurs été identifié comme étant un prédicteur de faibles compétences de lecture plus tard au cours de l'apprentissage (Franceschini et al., 2017). La nature des déficits de lecture est également mise en lien avec des stratégies de traitement perceptif spécifiques mises en place. Bedoin (2017) a observé que des interférences marquées du niveau local sur la perception du niveau global étaient spécifiques aux enfants présentant un déficit en lecture de pseudo-mots. Cette atypie est interprétée comme un défaut d'inhibition du traitement local et une faible automaticité de l'analyse perceptive globale. Par ailleurs, Goldstein-Marcusohn et al. (2020) révèlent un défaut de traitement local chez les enfants présentant un déficit en précision de lecture et un défaut de traitement global chez ceux qui présentent un déficit en vitesse de lecture. Ce résultat est en accord avec l'idée qu'un défaut du traitement local est lié à un déficit d'allocation des ressources attentionnelles à des unités sub-lexicales (i.e., graphèmes ou syllabes) nuisant au décodage graphophonologique. Au contraire, un défaut d'analyse perceptive globale s'expliquerait par des difficultés à étendre le faisceau attentionnel à l'ensemble du mot. Il est ainsi possible de faire le parallèle avec la réduction de la dispersion des ressources attentionnelles (ou de l'empan visuo-attentionnel) observée chez les enfants présentant une dyslexie développementale et à la réduction de la vitesse de lecture qui y est associée (Lobier et al., 2013; Prado et al., 2007; Valdois et al., 2021). Le même profil de supériorité d'une stratégie d'analyse locale au détriment de la primauté du traitement global plus optimal est retrouvé chez les enfants très grands prématurés (Datin-Dorrière et al., 2021) qui présentent fréquemment des difficultés en lecture ainsi qu'une immaturité des processus visuels (Perez-roche et al., 2016). Bien que très débattue, l'hypothèse du lien entre les spécificités des niveaux d'analyses perceptives préférentiellement mis en place et un dysfonctionnement de la voie visuelle magnocellulaire a été proposée dans le cadre de la prématurité (Datin-Dorrière et al., 2021; voir Muneaux & Ducrot, 2014b, pour une revue) et pourrait être questionnée dans la dyslexie (Gori et al., 2016; Stein, 2022).

De manière générale, ces études suggèrent que le déficit de traitement global observé chez certains enfants ayant une dyslexie limite l'identification parallèle des lettres composant le mot et de surcroît, la mise en place de la procédure orthographique de traitement, comme le ferait un enfant en cours d'automatisation de la lecture. Cette idée est cohérente avec l'amélioration des compétences de lecture des enfants dyslexiques avec un entraînement à l'inhibition des informations au niveau local et à la priorisation d'un niveau d'analyse perceptive globale (Bedoin, 2017; Franceschini et al., 2017). Ce résultat étaye l'implication majeure du contrôle inhibiteur et plus particulièrement, du désengagement attentionnel dans le niveau d'analyse perceptive préférentiellement mis en place (Poirel et al., 2014). Or ce mécanisme du contrôle attentionnel a déjà été montré comme étant affecté dans la dyslexie développementale notamment au travers de tâches d'anti-saccade en oculométrie (Biscaldi et al., 2000; Wilcockson et al., 2019). Ainsi, l'entraînement à la sélection de l'information au niveau perceptif global permettrait l'amélioration des performances de lecture grâce à la mise en place d'une procédure de traitement lexical, favorisant l'émergence d'un comportement oculaire et d'une fenêtre attentionnelle adaptée pour le traitement des mots écrits.

4.4. Comportement oculaire dans la dyslexie développementale

De nombreuses études rapportent des patterns oculomoteurs inefficients en lecture avec des durées de fixation plus longues, des amplitudes de saccade plus courtes, des régressions en plus grand nombre et un nombre réduit de mots sautés dans le cadre d'études de suivi oculaire chez des enfants et des adultes présentant de faibles capacités de lecture ou une dyslexie, par rapport aux bons lecteurs (De Luca et al., 2002; Franzen et al., 2021; Hawelka et al., 2010; Lefton et al., 1979). Ce comportement oculaire peu efficient est cohérent avec l'ensemble des spécificités perceptives et de déploiement des ressources attentionnelles en fovéa et parafovéa mises en évidence dans la dyslexie.

Dans ce cadre, des répercussions ont été observées dans les stratégies de programmation saccadique et plus précisément, dans les stratégies de positionnement du regard dans les mots. La réduction du prétraitement parafovéal et la plus forte sensibilité à l'effet d'encombrement perceptif, rapportées dans la dyslexie, limitent la prise d'information nécessaire pour la planification de la saccade vers le mot *n+1*. C'est pourquoi les lecteurs présentant une dyslexie ont tendance à cibler le début du mot plus fréquemment que les lecteurs experts, entraînant des durées de fixation plus longues et davantage de refixations (Hawelka et al., 2010). Hawelka et al. (2010) interprètent ce résultat comme un échec fréquent de la reconnaissance orthographique des mots entiers (procédure lexicale) et une dépendance au traitement sériel sub-lexical. En vision fovéale, un avantage à fixer le centre-gauche a bien été retrouvé chez les enfants atteints de dyslexie, avec toutefois une absence d'asymétrie gauche-droite dans l'OVP lors de la première fixation, contrairement aux enfants au développement typique qui présentent une courbe asymétrique en forme de « J » inversé (Bellocchi & Ducrot, 2021; Ducrot et al., 2003; pour un pattern similaire chez les lecteurs débutants faibles lecteurs, voir Aghababian & Nazir, 2000). Un effet similaire a été mis en évidence en parafovéa avec une réduction de l'asymétrie gauche-droite chez les enfants présentant une dyslexie développementale. En effet, Bellocchi et al. (2019) ont montré que tout comme pour les lecteurs débutants, les lecteurs ayant une dyslexie étaient uniquement influencés par la nature linguistique des stimuli pour le calcul de la position d'arrivée dans les mots et présentaient des distributions gauche-droite d'ILPs asymétriques

uniquement pour les mots. Ainsi comme pour les lecteurs débutants, les enfants présentant une dyslexie se baseraient plutôt sur la nature linguistique de l'information située en parafovéa pour la programmation saccadique plutôt que sur la base des informations concernant la présence d'espaces entre les caractères[14]. Compte tenu des similitudes dans le comportement oculaire entre les lecteurs débutants et ceux présentant une dyslexie, Bellocchi et al. (2019) font l'hypothèse que les spécificités de programmation des saccades dans la dyslexie constitueraient le reflet de leurs difficultés de lecture probablement en lien avec un manque d'exposition à l'écrit (Snowling et al., 2007).

SYNTHÈSE DU CHAPITRE 2

La lecture est une activité visuelle dépendante des contraintes anatomo-fonctionnelles du système visuel et des limitations perceptives et attentionnelles associées. Dans ce cadre, le déploiement des ressources attentionnelles en fovéa et en parafovéa joue un rôle central dans l'identification et le prétraitement des mots écrits et vient guider le comportement oculaire en lecture. Au cours de l'apprentissage, le lecteur va progressivement mettre en place des stratégies visuo-attentionnelles et de guidage oculaire pour un traitement optimal des mots écrits, marquant le passage progressif d'une procédure analytique de traitement vers une procédure de traitement lexical. Les difficultés de lecture, notamment dans la dyslexie, seraient associées à des compétences visuo-perceptives et visuo-attentionnelles réduites par rapport aux lecteurs experts, mais similaires à celles observées chez l'apprenti-lecteur utilisant préférentiellement un mode de décodage grapho-phonologique de l'écrit. Cette immaturité des processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels se traduirait par la mise en place de stratégies d'analyses perceptives et de contrôle oculaire peu efficace pour le traitement parallèle des unités orthographiques composant les mots.

La question est désormais de savoir si de telles atypies des processus visuels sont également observées dans le cadre de la Neurofibromatose de Type 1 (NF1), où près de la moitié des enfants atteints de cette maladie présentent des difficultés de lecture. Ainsi, le prochain chapitre propose une revue de la littérature des études portant sur ces processus visuels dans la NF1 afin d'identifier les liens possibles qu'ils entretiennent avec les difficultés de lecture fréquemment rapportées dans cette population.

[14] À noter que l'étude de Bellocchi et al. (2019) ne comporte aucune comparaison permettant de distinguer les stratégies de guidage oculaire mises en place entre des items discrets et des items continus (i.e., sans espaces inter-caractères). L'absence de cette dernière condition contrôle ne permet pas de conclure quant à la non-prise en compte des espaces inter-caractères dans la programmation saccadique chez les enfants ayant une dyslexie.

Chapitre 3

Déficit des processus visuels dans la NF1 : une revue systématique de littérature

PRÉSENTATION

La question de l'implication d'un déficit des processus visuels dans les difficultés de lecture fréquemment identifiées chez les enfants atteints de NF1 a fait l'objet d'une revue de littérature systématique soumise pour publication dans *Journal of Child Neurology*.

Vernet, M., Ducrot, S., & Chaix, Y. (2022). A systematic review on visual-processing deficits in Neurofibromatosis type 1: what possible impact on learning to read? [Manuscript submitted in *Journal of Child Neurology*].

Cette revue est directement intégrée dans ce chapitre afin de présenter la méthodologie spécifique de sélection des articles et les résultats qui y sont associés. Elle visait (1) à examiner la littérature sur les processus visuo-perceptifs, visuo-attentionnels et oculomoteurs chez les enfants présentant une NF1, et (2) à étudier leur impact possible sur le processus d'apprentissage de la lecture chez les enfants atteints de cette maladie.

A systematic review on visual-processing deficits in Neurofibromatosis type 1: what possible impact on learning to read?

Marie Vernet[a,b], Stéphanie Ducrot[b], Yves Chaix[a,c]

[a] ToNIC, Toulouse NeuroImaging Center, Université de Toulouse, Inserm, UPS, Toulouse, France

[b] Aix Marseille Univ, CNRS, LPL, Aix-en-Provence, France

[c] Hôpital des enfants, Centre hospitalier universitaire Purpan, Toulouse, France

ABSTRACT

Neurofibromatosis type 1 (NF1) is a neurogenetic disease in which nearly half of children experienced reading deficits. Given their lifelong negative implication, the comprehension of the neurocognitive profile associated with these difficulties is essential. While the linguistic components were widely explored, very few studies investigated visual processing implications in NF1 children's reading abilities. In this context, this systematic review aimed to examine the literature on visual-perceptual, visuo-attentional and oculomotor processing in NF1 children, and to investigate their possible impact on the learning-to-read process in NF1. Using PRISMA methodological guidelines, this review examined 45 studies that met the selection criteria. The results revealed that most studies report visuo-perceptual and visuo-attentional difficulties in children with NF1 and more specifically, in those with a reading deficit. This review provides a detailed discussion on the relationship between these unusual visual processes and the high prevalence of reading deficits in NF1 children.

KEYWORDS. Neurofibromatosis type 1; Reading; Visuo-attentional processing; Visual perception; Perceptual-motor control

1. Introduction

Neurofibromatosis type 1 (NF1) is a neurogenetic disorder, affecting approximately 1 in 2 500 to 3 000 births (Evans et al., 2010). The diagnosis is based on the clinical criteria defined in the recently revised version of the NIH Consensus Conference Statement (Legius et al., 2021; National Institutes of Health, 1988). The associated medical manifestations are multiple, affecting cutaneous, ophthalmologic, orthopaedic as well as neurologic and cognitive domains (Baudou & Chaix, 2020). A prominent feature of this disease concerns the heterogeneity of the affected individuals' profiles, either on the medical or cognitive levels. In that sense, cognitive deficits can affect attention, language, executive functions, praxis or even visual-perceptual processes (Hyman et al., 2005; see also Crow et al., 2022; Lehtonen et al., 2013, for reviews). All these impairments could explain the high frequency of learning disabilities found in this population. Specifically, 30 to 60 % of children with NF1 exhibit difficulties in reading acquisition (Descheemaeker et al., 2005; Hyman et al., 2006; Orraca-Castillo et al., 2014). Although this prevalence varies greatly between studies, it is always higher than that observed in the general population, where nearly 10 % of children and adolescents experience reading difficulties (Andreu et al., 2021; Chabanon, 2021).

In NF1 children, reading deficits include deficits in single-word and non-word reading efficiency (Arnold et al., 2020; Cutting et al., 2000a; Hyman et al., 2005; Lehtonen et al., 2015; Orraca-Castillo et al., 2014; Watt et al., 2008). At the text level, difficulties can affect reading speed, accuracy (Chaix et al., 2017) and also comprehension (Arnold et al., 2020; Biotteau et al., 2019; Cutting et al, 2000a; Orraca-Castillo et al., 2014). In this context, the graphophonological decoding of written words appears to be greatly impacted: two studies of native English-speaking children with NF1 have shown that between 49 % and 67 % of these children presented word decoding problems (Arnold et al., 2020; Watt et al., 2008). These may be explained in part by the phonological impairments found in this population and considered as an integrant feature of the neurocognitive profile of this disease (Arnold et al., 2018; Chaix et al., 2017; Cutting et al., 2000a; Cutting & Levine, 2010). More generally, linguistic skills known to be related to reading, such as phonological awareness, phonological memory, rapid automatic naming (RAN), and letter-sound knowledge were also found to be impaired in children with NF1 (Arnold et al., 2018; Cutting & Levine, 2010). Note that the deficit in the RAN process observed in NF1 children with a reading deficit was not corroborated in all NF1 children when the reading level was not taken into account (Cutting et al., 2000a; Mazzocco et al., 1995). The deficit in RAN would rather be specific to NF1 children with a reading disability.

Linguistic skills are essential for reading but are not the only cognitive factor involved. In addition to the linguistic dimension, children need to develop efficient visual-processing skills, including perceptual, attentional and eye-movement controls, which are necessary to extract orthographic information from written words (Grainger, 2018). Indeed, visual information gathering in reading is highly constrained by the anatomical and functional limits of the visual system. The foveal area of the retina presents a high but spatially limited visual acuity providing accurate identification of the written stimulus in a restricted region. With eccentricity around the fixation point, especially in the parafoveal region, visual acuity decreases significantly. As a result, to read, the eyes must constantly perform fixations to extract the relevant orthographic information and saccades to move the foveal area towards the next information to be processed. The effectiveness of oculomotor control emerges during learning

to read, with an improvement in eye movement parameters. For instance, the duration, the number of fixations and the number of regressions decrease, while the amplitude of saccades and the probability of skipping a word increase (e.g., Blythe et al., 2009; Ducrot et al., 2013; Lopukhina et al., 2022; Vorstius et al., 2014). The implementation of an optimal saccade targeting strategy early in the learning-to-read process explains in part the enhanced efficiency of these eye movement parameters. While beginning readers tend to first fixate on the first letterof the word and shift their gaze over it, by the end of first grade they become able to first land on the preferred viewing location (PVL; Ducrot et al., 2013; Huestegge et al., 2009; Rayner, 1979). This position is located halway between te beginning and the middle of the word and is considered as optimal for the processing and identification of the written word. Improved efficiency of eye movement control is related to the increase in the size of the perceptual span during development (Häikiö et al., 2009). The perceptual span[15] is critical to the amount of orthographic information that can be processed in a single fixation. It corresponds to the region around the fixation point in which the extracted information can influence both orthographic processing and oculomotor behaviour (McConkie & Rayner, 1975). The perceptual span in left-to-right alphabetic languages displays a pronounced asymmetry in favour of the right visual field. In this context, the distribution of visual-spatial attention in foveal and parafoveal areas plays an essential role. This is part of visuo-spatial abilities including also visuo-spatial perception, which allowed us to process the visual orientation and the location in space of a stimulus (Irani, 2011). Several studies showed an association between visuo-spatial perception and reading (Giovagnoli et al., 2016; Layes et al., 2021). Nevertheless, it is important to note that the majority of studies on the relationship between reading and visual-spatial abilities deal with the spatial deployment of attentional resources (e.g., Facoetti et al., 2010; Franceschini et al., 2012). Its distribution over the text is particularly important to overcome the perceptual constraints resulting from the limitations of the visual system. The voluntary allocation of attentional resources in the fovea supports the processing and the accurate identification of written words. It was defined by a visual attention span which corresponds to the number of orthographic units that can be processed simultaneously in the foveal regions in one fixation (Bosse et al., 2007; Bosse & Valdois, 2009). This visual attention span is related to reading skills regardless of phonological awareness processes (Liu et al., 2022; Lobier et al., 2013; Valdois et al., 2019). In addition to the foveal allocation of attention, pre-attentive processing in the parafovea is also important as it facilitates the processing of the currently fixed word but also influences saccadic computation towards the next fixation (for a review, see Schotter et al., 2012).

The deployment of attentional resources on visual information modulates the level of perceptual processing implemented. For instance, expert readers spread their attentional focus over the whole word to be processed, and demonstrate a global precedence on local perception (Austen & Enns, 2000; Krakowski et al., 2015, 2016, 2018; Navon, 1977; Poirel et al., 2014). During development, qualitative changes in perceptual analysis operate: with a local precedence in preschoolers and then a global precedence implemented from 6-7 years (Krakowski et al., 2016, 2018; Poirel et al., 2008; Porporino et al., 2004; Schmitt et al., 2019). This change in the level of perceptual analysis from the age of 6-7 years onwards corresponds to the beginning of explicit reading instruction in the first grade (Krakowski et al., 2016; Poirel et al., 2008). This is an argument for the already demonstrated

[15] For a discussion on the differences between perceptual, visual and visual-attentional spans see Frey and Bosse (2018).

involvement of global-to-local levels of perceptual analysis in reading (Franceschini et al., 2017, 2021). This hypothesis is consistent with the idea that the level of perceptual analysis depends on the spatial distribution of attentional resources, according to the increase in the visual attention span in parallel with the reading level (Bosse & Valdois, 2009).

Orthographic identification is also influenced by multimodal learning in which visual-motor processes are involved. Several studies showed that visual-motor processes assessed through tasks involving grapho-motor response are related to reading abilities (Bellocchi et al., 2017; Hopkins et al., 2019; Meng et al., 2019). This multimodal learning allows the integration of both the visual configuration of the stimulus and its motor execution pattern, explaining why visual-motor skills are important for learning to read (Suggate et al., 2018). In this sense, Longcamp et al. (2005) reported that preschoolers' training in handwriting induced better letter recognition than typing, strengthening the idea of visual-motor involvement in reading.

All the visuo-perceptual (with or without motor implication), visuo-attentional processes mentioned above were shown to longitudinally predicts future poor reading skills and to differentiate children with developmental dyslexia (DD) from typically developing children (TD; e.g., Bellocchi et al., 2017; Franceschini et al., 2012, 2017; Giovagnoli et al., 2016; Meng et al., 2019; Son & Meisels, 2006; Vernet et al., 2022a). In this way, specific features in these visual processes have been shown in reading disabilities and in particular in DD (for a review, see Bellocchi et al., 2013). First, visual-motor abilities are more highly impacted in DD than in TD children: near than 44.4 % of DD children exhibited visual-motor difficulties, while only 5.5 % in controls (Kooistra et al., 2005). This result agreed with the poorer visual-motor integration identified in children with DD compared to TD (Bellocchi et al., 2017; Iversen et al., 2005; Meng et al., 2019). In perceptual-motor skills, children with DD demonstrated also inefficient eye-movement patterns with longer fixation times, shorter saccade amplitudes, more regressions and fewer skipped words in eye-tracking studies compared to expert readers (De Luca et al., 2002; Franzen et al., 2021; Hawelka et al., 2010; Lefton et al., 1979).

The weakness of these eye movement parameters is related to an unusual deployment of visual attention in DD individuals. In the parafoveal vision, an abnormally important allocation of attentional resources in the right visual field was found in dyslexia and is associated with a deficit in the left visual field (e.g., Facoetti & Turatto, 2000; Geiger et al., 2008; Lorusso et al., 2004). This filtering defect accounts for the great sensitivity to visual crowding[16] experienced by DD children (for a review, see Bellocchi, 2013). Abnormal patterns of eye-movement control during reading are also associated with a limited distribution of attention in the foveal area, including a reduction in visual attention span (Prado et al., 2007). The reduction of attentional focus in foveal vision limits the parallel processing of the letters composing a word. This idea is consistent with the atypical perceptual analysis observed in children with dyslexia. Indeed, DD children demonstrate a perceptual analysis strategy that depends excessively on the local level of processing with a defect in global processing compared to typical readers, and thus similarly to beginning readers (Bedoin, 2017; Franceschini et al., 2017; Schmitt et al., 2019).

[16] The visual crowding effect corresponds to the identification of a visual target being harder due to interference from surrounding visual objects, compared to when it is isolated.

The deficits in visual processes detailed above have been associated by some authors with a dysfunction of the magnocellular visual pathway (see Kristjánsson & Sigurdardottir, 2022; Stein, 2022, for recent reviews). It refers to a pathway involved in visual information processing that allows the transmission of the nerve impulse from the retina to the visual cortex. It is involved in low-spatial- and high-temporal-frequency processing and is associated with parafoveal and peripheral vision. In contrast, the parvocellular system, which is the other main pathway for the processing of visual information, is most sensitive to high-spatial and low-temporal frequencies and is associated with foveal vision. Several studies reported poorer performance in individuals with dyslexia compared to typically developing readers on tasks activating the magnocellular pathway (Gori et al., 2016; Kevan & Pammer, 2009). Stein (2019) considered that the disruption of the magnocellular system in dyslexia contributes to the visuo-perceptual and visuo-attentional deficits. This magnocellular dysfunction is thought to be caused by disorganization and reduction in the size of the cells of the magnocellular pathway (Livingstone et al., 1991). However, the assumption of causality between deficits in visual processes and reading disability is highly controversial (for a discussion, see Blythe et al., 2018). Indeed, despite variability in magnocellular sensitivity between participants and a significant difference between dyslexic and typically developing children in eye-movement behaviour, Hutzler et al. (2006) did not find significant correlations between performance on the task activating the magnocellular processing pathway and oculomotor parameters in non-word reading. Accordingly, Hutzler et al. (2006) concluded that differences obtained in behavioural tasks activating the magnocellular pathway between children with dyslexia and those with typical development cannot be directly associated with the reading activity. Moreover, not all children with dyslexia consistently exhibit associated visuo-perceptual and visuo-attentional difficulties (Ramus, 2003; Saksida et al., 2016) and several studies did not find differences in oculomotor patterns between children with good and poor reading skills when completing non-reading saccadic tasks (Black et al., 1984; Vinuela-Navarro et al., 2017). This suggests that despite the presence of reduced magnocellular sensitivity in some children with dyslexia, difficulties in visuo-perceptual, visuo-attentional processes, and eye-movement control would rather reflect the reading level of these children.

Summing up, a high proportion of children with NF1 experience a reading deficit. In this context, the link between reading difficulties and linguistic skills was already highlighted in NF1. Reading also involves visuo-perceptual, visuo-attentional, and perceptual-motor processes, both in typically and dyslexic readers. However, despite the frequency of reading deficits in NF1 children, very few studies have directly investigated the involvement of visual-processing difficulties in reading learning failure in NF1. Yet reading difficulties constitute a critical area of interest given their lifelong negative implications (see Livingston et al., 2018, for a review on DD). Moreover, nonverbal learning disabilities and more precisely visuo-spatial perception deficits have long been defined as a hallmark feature of the NF1 neurocognitive profile (Eldridge et al., 1989; Eliason, 1986). In light of all these observations, this systematic review aimed to examine the literature on visuo-perceptual processing (with and without motor implications) and visuo-attentional processes in NF1 children, and to investigate the possible impact of these processes on the observed reading skills of individuals with NF1. To this end, the present review targets data from neuropsychological assessments, experimental tasks, neuroimaging, and eye-tracking to study the efficiency of these visual processes.

2. Method

This systematic review was based on the PRISMA (Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses) methodological guidelines (Gates & March, 2016; Page et al., 2021).

2.1. Eligibility criteria

Studies included in the present systematic review were required to meet all of the following eligibility criteria: (1) articles were original studies published before January 2022, (2) patients included met the clinical diagnostic criteria for NF1, according to the Neurofibromatosis Conference Statement (National Institutes of Health, 1988), (3) participants were children and adolescents with NF1 younger than 18 years old, (4) studies assessed visual processes, specifically visuo-perceptual, visuo-attentional or oculomotor processes, (5) participants did not experience any other neurological disease in addition to NF1, and finally, (5) studies were English language full text.

2.2. Information sources and search strategy

The literature search was performed in March 2022, from three computerized databases: PubMed, Embase and PsycARTICLES. The search for articles was carried out using the following combination of keywords: (“NF1” or “neurofibromatosis type 1”) and (“vision” or “attention” or “visuo-perceptual” or “visuo-attentional” or “oculomotor”) and (“cognitive” or “neuropsychology” or “neurocognitive”). No other filters were applied at this stage of the paper search to avoid missing studies relevant to the current research question. For the same reason, additional studies identified through other sources (e.g., citation searching) were included in the selection process.

2.3. Selection process

A single reviewer (M. V.) carried out the article selection process to ensure consistency between the different screening steps. The first assessment phase was to eliminate duplicate articles. Then, the studies were checked for eligibility by examining their titles and abstracts, and finally, by a careful reading of the remaining articles' full texts. All eligibility criteria mentioned above were verified during the selection process. At the same time, we decided to exclude articles that specifically assessed the effect of drugs or disorders associated with NF1 (e.g., Attention Deficit Hyperactivity Disorder, ADHD or Autism Spectrum Disorder, ASD) on cognitive functioning, and not directly evaluate the effect of NF1 on cognitive performance. Note that we keep studies including NF1 children with ADHD but not those where attentional manifestations of ADHD are the main focus of interest. Similarly, we removed papers focusing only on sensory impairments of vision. Additionally, studies reporting results on the same cohort as another article and not providing additional information on the present issue were also excluded during the selection process. For the psychometric tests, we retained only the studies involving tests that assessed visual-processing in 2D, whether in paper-pencil or computerized version, to be as close as possible to the conditions found in reading. The tests eligible for inclusion in the reviewed studies and the visual processes they assess are listed in Table 2.

Table 2. Tests used in studies on NF1 children assessing visual processes involved in reading.

Visual processes assessed	Test	Subtest
Visuo-perceptual (including global-to-local process)	DTVP/DTVP-2	Figure-ground Form constancy Visual closure
Visuo-spatial perception	BORB	Gap matching Line orientation
	DTVP/DTVP-2	Position in space
	FKSB	Recognition-Discrimination
	HVOT	-
	JLO	-
	NEPSY	Arrows
	Thurstone test	
	TVPS / TVPS-R	Visual-spatial relations Visual Discrimination
	WJ-R	Spatial relations
Visual-motor/visual-constructive	Beery VMI	Visual-Motor Integration Motor coordination
	Bender Visual-Motor Gestalt Test	-
	DAS-II	Copying
	NEPSY/NEPSY-II	Design copying Visual motor precision
	ROCF	-
Visuo-attentionnal	NEPSY	Visual attention
	SCWT	-
	TEA-Ch	Sky search

Notes. Only 2D tests were retained to be as close as possible to the conditions found in the reading. We acknowledge that one test does not isolate a specific process, it is therefore a schematic classification to highlight the main visual process that is evaluated. DTVP Developmental Test of Visual Perception, BORB Birmingham Object Recognition Battery, FKSB Florida kindergarten screening battery, HVOT Hooper Visual Organization Test, JLO Judgment of Line Orientation, TVPS Test of Visual Perceptual Skills, WJ-R Woodcock–Johnson–revised Test of Cognitive Abilities, Beery VMI Beery–Buktenica Developmental Test of Visual-Motor Integration, DAS-II Differential Ability Scales-II, ROCF Rey-Osterrieth Complex Figure Test, SCWT Stroop Color-Word Test, TEA-Ch Test of Everyday Attention for Children.

3. Results

The search strategy resulted in 502 articles, of which 45 met the criteria for inclusion in this systematic review. The flow diagram of the study selection process is detailed in Figure 6 and the studies' characteristics are reported in Table 3. The results are organized according to the visual processes studied: visuo-perceptual processes with a reduced motor implication (i.e., visuo-spatial perception, global-to-local visual processing and visual pathways functioning), perceptual-motor processes (i.e., visual-motor abilities and saccadic system functioning) and finally, visuo-attentional skills. The same study can be included in different sections if they assessed several of our interest processes. NF1 children's performance compared to the control groups for the different visual processes of interest in the selected studies are schematically represented in Table 4.

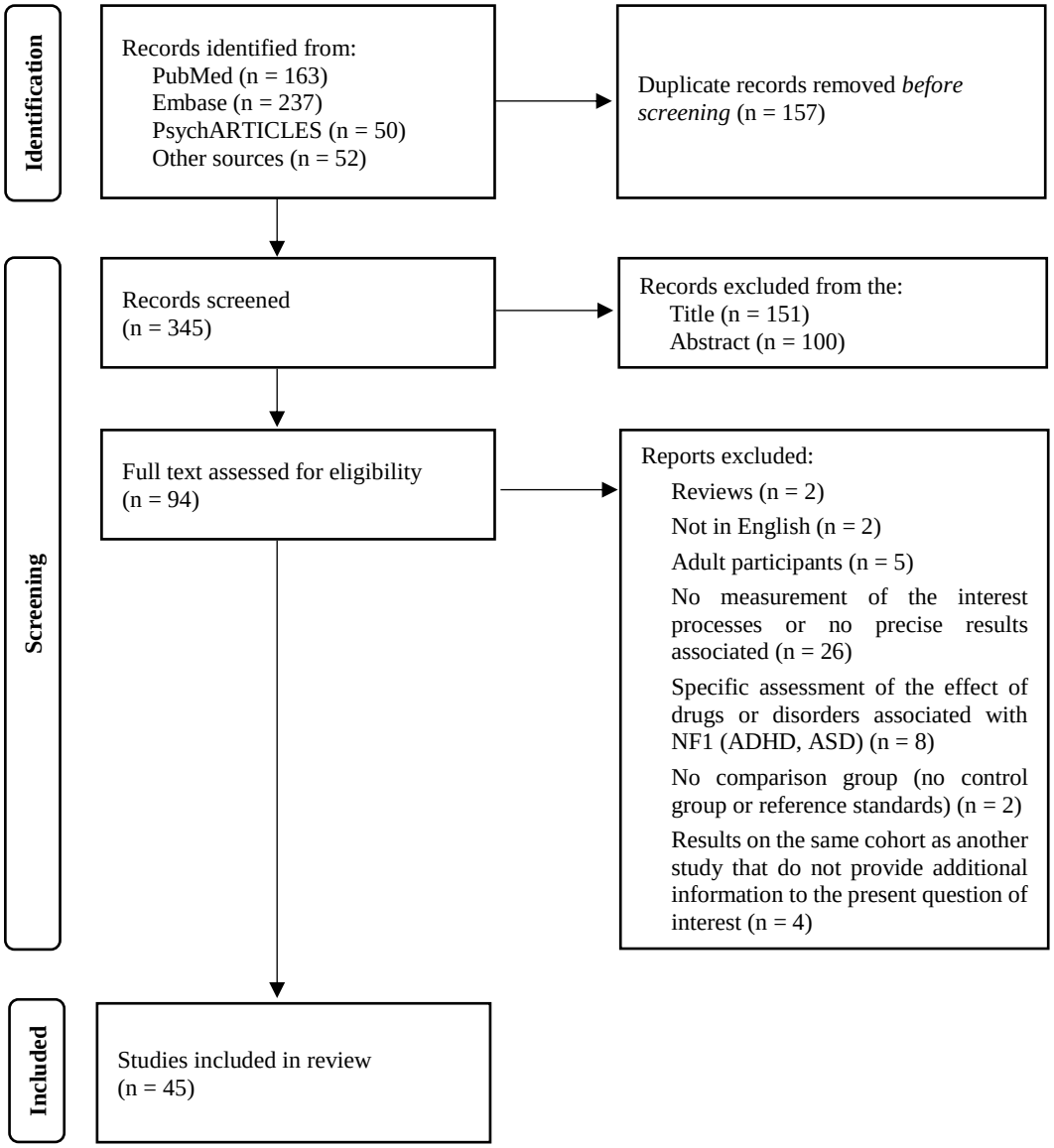


Figure 6. Flow diagram of the study selection process for the present systematic review.

Table 3. Characteristics of the studies selected in this systematic review.

Authors (year)	Sample size (F/M)	Mean age (SD)	Task(s)
Arnold et al. (2018)	NF1: 42 (19/23) TD: 32 (17/15)	NF1: 5.5 (0.5) TD: 5.3 (0.5)	Visual-spatial relations (TVPS-R)
Arnold et al. (2020)	NF1: 60 (28/32) TD: 36 (18/18)	NF1: 8.7 (1.8) TD: 8.8 (1.6)	JLO Sky search (TEA-Ch)
Barquero et al. (2015)	NF1+RD: 17 (6/11) RD: 32 (15/17) TD: 26 (13/13)	NF1+RD: 10.4 (1.5) RD: 10.2 (1.9) TD: 9.7 (1.5)	JLO Visual closure (DTVP) Position in space (DTVP)
Baudou et al. (2020b)	NF1: 38 (23/15) TD: 42 (20/22)	NF1: 9.1 (1.3) TD: 9.5 (1.1)	JLO
Billingsley et al. (2002)	NF1: 24 (12/12) TD: 24 (12/12)	NF1: 11.0 (N.A.) TD: 11.8 (N.A.)	JLO Recognition-discrimination (FKSB)
Bulgheroni et al. (2019)	NF1: 18 (7/11) Siblings: 17 (8/9) TD: 18 (7/11)	NF1: 10.2 (2.5) Siblings: 12.2 (0.3) TD: 10.2 (2.9)	ROCF
Casnar et al. (2014)	NF1: 38 (17/21) TD: 23 (8/15)	NF1: 5.3 (0.7) TD: 5.4 (0.8)	Copying (DAS-II) Visual motor precision (NEPSY-II)
Chaix et al. (2018)	NF1: 75 (39/36) TD: 75 (39/36)	NF1: 10.0 (1.3) TD: 10.0 (1.2)	JLO Thurstone test
Clements-Stephens et al. (2008)	NF1: 13 (6/7) TD: 13 (6/7)	NF1: 9.8 (1.8) TD: 9.8 (2.6)	JLO HVOT Position in space (DTVP-2) Visual closure (DTVP-2)
Cutting and Levine (2010)	NF1+RD: 13 (4/9) NF1noRD: 12 (7/5) TD: 36 (14/22) RD: 33 (10/23)	NF1+RD: 10.3 (2.2) NF1noRD: 9.6 (2.1) TD: 9.6 (2.3) RD: 9.3 (1.2)	JLO HVOT Position in space (DTVP) Visual closure (DTVP)
Cutting et al. (2000a)	NF1: 20 (3/17) ADHD: 13 (5/8) TD: 16 (8/8)	NF1: 9.6 (2.4) ADHD: 8.1 (2.1) TD: 10.2 (2.5)	JLO
Descheemaeker et al. (2005)	NF1: 17 (5/12)	NF1: 9.2 (N.A.)	ROCF Beery VMI Bender Visual-Motor Gestalt Test SCWT
Dilts et al. (1996)	NF1: 20 (12/8) Siblings: 20 (12/8)	NF1: 10.8 (N.A.) Siblings: 12.5 (N.A.)	JLO TVPS Beery VMI
Eldridge et al. (1989)	NF1: 13 (3/10) Siblings: 13 (9/14)	NF1: 13.1 (6.4) Siblings: 14.5 (5.0)	JLO Beery VMI
Erdoğan-Bakar et al. (2009)	NF1: 27 (14/13) Siblings: 20 (16/4) ADHD: 40 (20/20) TD: 40 (20/20)	NF1: 11.1 (F) / 10.5 (M) (N.A.) Siblings: 13.2 (F) / 9.5 (M) (N.A.) ADHD: 9.8 (F) / 10.2 (M) (N.A.) TD: 10.1 (F) / 10.2 (M) (N.A.)	JLO Bender Visual-Motor Gestalt Test

Gilboa et al. (2010)	NF1: 30 (21/9) TD: 30 (21/9)	NF1: 12.2 (2.5) TD: 12.3 (2.4)	Beery VMI
Gilboa et al. (2014)	NF1: 30 (21/9) TD: 30 (21/9)	NF1: 12.2 (2.5) TD: 12.3 (2.4)	JLO Beery VMI ROCF
Hofman et al. (1994)	NF1: 12 (2/10) Siblings: 12 (6/6)	NF1: 10.4 (N.A.) Siblings: 11.2 (N.A.)	JLO ROCF
Hyman et al. (2005)	NF1: 81 (43/38) TD: 49 (29/20)	NF1: 11.5 (N.A.) TD: 12.0 (N.A.)	JLO Spatial relations (WJ-R) Gap matching (BORB) Line orientation (BORB) ROCF Sky search (TEA-Ch)
Iannaccone et al. (2002)	NF1: 16 (7/9) TD: 14 (N.A.)	NF1: 10.4 (2.8) TD: 10.6 (3.6)	Visual evoked potential tasks with transient pattern-reversal and flash stimuli
Isenberg et al. (2013)	NF1: 55 (N.A.)	NF1: 9.7 (2.6)	JLO Sky search (TEA-Ch)
Krab et al. (2008)	NF1: 86 (39/47)	NF1: 11.9 (2.5)	JLO ROCF Beery VMI SCWT
Krab et al. (2011)	NF1: 70 (34/36) TD: 19 (13/6)	NF1: 12.3 (2.5) TD: 10.7 (2.1)	Beery VMI Saccade adaptation task
Lasker et al. (2003)	NF1: 10 (3/7) TD: 12 (5/7)	NF1: [6-11] [a] TD: [6-12] [a]	Visually guided saccade paradigm Antisaccade paradigm Memory-guided saccade paradigm Prediction paradigm
Lehtonen et al. (2015)	NF1: 49 (24/25) Siblings: 19 (10/9)	NF1: 11.9 (3.2) Siblings: 12.7 (2.7)	JLO
Lorenzo et al. (2013)	NF1: 43 (11/32) TD: 43 (11/32)	NF1: 40.2 (0.7) [b] TD: 40.2 (0.5) [b]	Beery VMI Visual attention (NEPSY)
Mazzocco (2001)	NF1: 11 (7/4) TD: 66 (46/20)	NF1: 6.3 (N.A.) TD: 6.5 (N.A.)	Position in space (DTVP-2) Form constancy (DTVP-2) Figure-ground (DTVP-2) Visual closure (DTVP-2) Beery VMI
Mazzocco et al. (1995)	NF1: 19 (3/16) Siblings: 19 (7/12)	NF1: 9.9 (2.4) Siblings: 10.1 (2.5)	JLO ROCF
Michael et al. (2014)	NF1: 20 (6/14) TD: 20 (10/10)	NF1: 9.2 (1.9) TD: 9.7 (1.8)	Experimental target detection task
Moore et al. (2000)	NF1: 52 (N.A.) TD: 19 (N.A.)	NF1: 9.8 (3.6) TD: 10.9 (2.7)	JLO Beery VMI Recognition-discrimination (FKSB)

Payne et al. (2011)	NF1: 199 (91/108) Siblings: 55 (33/22)	NF1: 10.6 (2.3) Siblings: 11.2 (2.0)	Sky search (TEA-Ch)
Payne et al. (2013)	NF1: 71 (30/41) TD: 29 (15/14)	NF1: 10.50 (4) [c] TD: 10.00 (5) [c]	JLO
Payne et al. (2017)	NF1: 30 (18/12) TD: 24 (15/9)	NF1: 10.8 (2.4) TD: 10.2 (1.8)	Modified Navon paradigm
Pride et al. (2018)	NF1: 19 (10/9) TD: 18 (9/9)	NF1: 11.0 (2.8) TD: 10.5 (2.5)	Sky search (TEA-Ch)
Remigereau et al. (2018)	NF1: 18 (6/12) TD: 20 (6/14)	NF1: 10.4 (2.4) TD: 10.4 (1.9)	SCWT
Ribeiro et al. (2012)	NF1: 19 (12/7) TD: 33 (20/13)	NF1: 11.5 (2.5) TD: 11.7 (2.3)	JLO Experimental contrast sensitivity tasks activating parvocellular, koniocellular or magnocellular visual pathways
Ribeiro et al. (2014)	NF1: 17 (12/5) TD: 19 (11/8)	NF1: 11.9 (2.3) TD: 12.9 (2.6)	Visual detection task under overt attention in EEG
Roy et al. (2010)	NF1: 36 (18/18) TD: 36 (18/18)	NF1: 9.6 (1.7) TD: 9.6 (1.7)	Arrows (NEPSY)
Sangster et al. (2011)	NF1: 26 (9/17) TD: 21 (10/11)	NF1: 5.2 (0.5) TD: 4.7 (0.5)	Visual discrimination (TVPS-R) Beery VMI
Silva et al. (2016)	NF1: 16 (12/4) TD: 24 (16/8)	NF1: 13.9 (2.7) TD: 13.5 (2.7)	Peripheral attentional targets experimental task under covert attention in EEG
Ullrich et al. (2010)	NF1: 10 (5/5) Siblings: 6 (3/3)	NF1: 13.5 (2.3) Siblings: 12.7 (1.7)	JLO
Van Eylen et al. (2017)	NF1: 39 (15/24) TD: 52 (20/32)	NF1: 12.6 (3.1) TD: 12.3 (2.6)	Coherent Motion task Fragmented Object Outlines task Visual search task ROCF
Vaucheret Paz et al. (2019)	NF1: 24 (10/14)	NF1: 9.9 (N.A.)	ROCF Design copying (NEPSY) Visual attention (NEPSY)
Violante et al. (2012)	NF1: 15 (9/6) TD: 24 (13/11)	NF1: 11.7 (2.9) TD: 12.0 (2.3)	Experimental fMRI fixation task activating parvocellular or magnocellular visual pathways
Watt et al. (2008)	NF1: 30 (13/17)	NF1: 9.3 (1.3)	JLO Beery VMI Sky search (TEA-Ch)

Notes. N.A. not available, ADHD Children with attention deficit hyperactivity disorder, RD Children with idiopathic reading disabilities, NF1+RD Children with NF1 and reading deficits, NF1noRD Children with NF1 without reading deficits, TD Typically developing children. [a] Age range, [b] Age in months, [c] Median age (IQR).

Table 4. Schematic summary of the NF1 children's performance compared to the comparison groups for the different visual processes of interest**.**

Study	Visual process/system of interest					
	Visuo-spatial	Global-local	Visual pathways	Visuo-attentionnal	Visual-motor	Saccadic
Arnold et al. (2018)	–					
Arnold et al. (2020)	–			ø		
Barquero et al. (2015)	–	–				
Baudou et al. (2020b)	–					
Billingsley et al. (2002)	ø					
Bulgheroni et al. (2019)		–			–	
Casnar et al. (2014)					–	
Chaix et al. (2018)	–					
Clements-Stephens et al. (2008)	– / ø	–				
Cutting and Levine (2010)	– / ø	–				
Cutting et al. (2000a)	ø					
Descheemaeker et al. (2005)				–	–	
Dilts et al. (1996)	–				–	
Eldridge et al. (1989)	–				ø	
Erdoğan-Bakar et al. (2009)	–				ø	
Gilboa et al. (2010)					–	
Gilboa et al. (2014)	–				–	
Hofman et al. (1994)	–				–	
Hyman et al. (2005)	–			ø	–	
Iannaccone et al. (2002)			–			
Isenberg et al. (2013)	–			ø		
Krab et al. (2008)	–			ø	–	
Krab et al. (2011)					–	ø
Lasker et al. (2003)						–
Lehtonen et al. (2015)	–					
Lorenzo et al. (2013)				ø	–	
Mazzocco (2001)	ø	ø			ø	
Mazzocco et al. (1995)	–				–	
Michael et al. (2014)				–		
Moore et al. (2000)	– / ø				ø	
Payne et al. (2011)				–		
Payne et al. (2013)	–					
Payne et al. (2017)		–				
Pride et al. (2018)				ø		
Remigereau et al. (2018)				–		
Ribeiro et al. (2012)	–		–			
Ribeiro et al. (2014)			–	–		
Roy et al. (2010)	ø					
Sangster et al. (2011)	ø				ø	
Silva et al. (2016)				–		
Ullrich et al. (2010)	–					

Van Eylen et al. (2017)		ø	ø	ø	ø	
Vaucheret Paz et al. (2019)				–	–	
Violante et al. (2012)			–			
Watt et al. (2008)	–			–	–	

Notes. The results are schematically represented by the symbol " –" when they are in favour of NF1 children's difficulties in the visual skill concerned. A result in favour of difficulties in the area of interest may correspond for instance to a significant difference with the comparison group or to a large prevalence of children with difficulties in this domain. In contrast, the symbol " ø" indicates results that are not different from those of the comparison group. Sometimes studies are displayed with both symbols. This means that two different tests assessing the same visual process give divergent results.

3.1. Visuo-perceptual processing[17].

3.1.1. Visuo-spatial perception

Visuo-spatial perception in NF1 children was extensively studied, in particular using the *Judgment of Line Orientation test (JLO)*. The majority of these studies showed poorer performance on this task in NF1 children compared to siblings, TD subjects and also normative data (Arnold et al., 2020; Barquero et al., 2015; Baudou et al., 2020b; Chaix et al., 2017; Clements-Stephens et al., 2008; Cutting & Levine, 2010; Dilts et al., 1996; Eldridge et al., 1989; Erdogan-Bakar et al., 2009; Gilboa et al., 2014; Hofman et al., 1994; Hyman et al., 2005; Isenberg et al., 2013; Krab et al., 2008; Lehtonen et al., 2015; Mazzocco et al., 1995; Moore et al., 2000; Payne et al., 2013; Ribeiro et al., 2012; Ullrich et al., 2010; Watt et al., 2008; but see Billingsley et al., 2002; Cutting et al., 2000a, for non-significant difference). Moreover, the proportion of children performing below the mean on the JLO test is significantly higher in NF1 compared to TD children (Dilts et al., 1996; Eldridge et al., 1989). Hyman et al. (2005) showed for instance that 56.3 % of NF1 children scored more than one standard deviation below the mean on the JLO, compared to only 14.6 % of controls.

Significant worse visuo-spatial outcomes than controls were also shown on other tests such as: the *Thurstone test (*Chaix et al., 2017), the *TVPS* (Arnold et al., 2018; Dilts et al., 1996; but see Sangster et al., 2011 for a non-significant result on the *Visual discrimination* subtest) and also the *Spatial relations* subtest (*WJ-R*), the *Gap matching* and the *Line orientation* subtests (*BORB*; Hyman et al., 2005). However, no group significant difference was found on the *Recognition-discrimination* subtest (*FKSB*) in either the Billingsley et al. (2002) or Moore et al. (2000) studies. The same result was reported on the *HVOT* (Clements-Stephens et al., 2008; Cutting & Levine, 2010). Finally, visuo-spatial abilities assessed with the *Position in space* subtest of the *DTVP* did not lead to a consensus: while Clements-Stephens et al. (2008) showed poor scores for NF1 participants compared to control, no significant difference emerged in Mazzocco (2001) study.

An important issue concerns the IQ implication in the low scores of NF1 children. Payne et al. (2013) revealed a strong relationship between IQ and JLO outcomes. In line with this observation, Roy et al. (2010) reported that, after controlling for IQ, the lower scores of NF1 children compared to

[17] Note that this section includes only visuo-perceptual processes with reduced motor involvement. Perceptual-motor processes will be discussed in a subsequent section.

controls on the *Arrows* subtest *(NEPSY)* did not remain significant. Conversely, other studies showed a remained significant reduced visuo-spatial perception skills in the NF1 group even after taking into account IQ as a covariate (Hyman et al., 2005; Krab et al., 2008).

Regarding the relationship between visuo-spatial perception abilities and reading proficiency, very few studies were conducted. The results on this issue showed lower visuo-spatial abilities obtained in NF1 children with a reading deficit compared to children with reading disabilities without NF1 (RD) and TD children (Barquero et al., 2015; Cutting & Levine, 2010). Cutting and Levine (2010) demonstrated also a significant association between word reading outcomes and visuo-spatial processes on the *JLO test* and the *Position in space* subtest. This link was demonstrated in NF1 children with a reading deficit, but not in TD, RD children, nor in NF1 children without a reading deficit. This could explain why Arnold et al. (2020) and Watt et al. (2008) did not find any significant correlation between the *JLO* performance and word reading in NF1 children (but see Mazzocco et al., 1995 for significant results). Another argument concerns preliteracy skills. Preschoolers with NF1 showed lower visuo-spatial abilities than controls and their performances were related to the spelling measure (Arnold et al., 2018). This supports the idea that visual deficits may contribute to the high frequency of literacy difficulties in NF1.

Finally, neuroimaging observations revealed a greater left than right hemisphere activation in NF1, whereas controls showed the opposite in a visuo-spatial perception task, even after controlling for IQ (Clements-Stephens et al., 2008). It supports the idea that in this neurodevelopmental disease there is an inefficient right hemisphere network related to deficient visuospatial processing. Note that additional activation was shown in frontal regions, which is in line with the observation that executive processes could explain in part the deficit in visuo-spatial abilities (Roy et al., 2010).

3.1.2. Global–Local visual processing.

A disruption in the global-to-local visual processing seems to be a central feature of the visual processing difficulties reported in NF1 children. Payne et al. (2017) used a modified Navon paradigm[18] to study this issue (Navon, 1977). They replicated the expected global processing bias in control subjects, with no effect of the congruency when they process the global form but a significant interference with incongruency when they process the local level of the letter. NF1 children, however, didn't show this global processing bias: they experienced significant interference when naming both local and global levels of the stimuli. Thus, while the same high interference was highlighted between the two groups of children in the local processing, the interference in global treatment was significantly higher for children with NF1. In the same vein, Bulgheroni et al. (2019) suggested a predominance of local over global processing compared to controls in the *Rey-Osterrieth Complex Figure (ROCF)*. Although this test involves different processing skills, visual, executive, and motor functions, it is interesting to note that NF1 children favoured a more detail-oriented copy strategy rather than processing the whole shape of the figure, even though the global processing is more relevant to the task.

[18] In this task, the stimuli correspond to a large letter (global shape) composed of smaller letters (local shape). The congruency between the global and the local letters is manipulated. Participants are instructed to name the letter at a specific level of visual treatment, either at the global or local level.

The recognition of fragmented objects/shapes constitutes another way to evaluate global-to-local visual processing. The most common used in studies on NF1 is the *Visual closure* subtest (i.e., *DTVP*). While Mazzocco (2001) didn't find any difference between NF1 and TD children (as for *Figure-ground* and *Form constancy* subtests), the majority of the studies using this task showed poorer performance in the NF1 group (Barquero et al., 2015; Clements-Stephens et al., 2008; Cutting & Levine, 2010). Similarly, Van Eylen et al. (2017) pointed out that NF1 children need more contour information to recognize an object than TD children. However, this effect did not remain significant when executive functions were included as covariable. Note that the experimental task of Van Eylen et al. (2017) study, unlike the *Visual Closure* subtest, involves semantic knowledge of objects and requires access to them.

The implication of global-to-local visual processing in reading was not, to our knowledge, directly investigated in children with NF1. However, two studies demonstrated that NF1 children with a reading deficit performed poorly than TD children and non-NF1 children with a reading deficit on the *Visual closure* subtest (Barquero et al., 2015; Cutting & Levine, 2010). Note that NF1 children without a reading deficit performed halfway between the NF1 children with a reading deficit and the two control groups with no significant difference in performance with these groups. Finally, a significant correlation was also shown between single-word reading and *Visual closure* subtest outcomes but only in NF1 with a reading deficit (Cutting & Levine, 2010).

3.1.3. Visual pathways involvement

The functioning of the visual processing pathways was first explored through the study of evoked potentials (VEPs). Iannaccone et al. (2002) showed that nearly 62.5 % of children with NF1 displayed abnormal VEP responses and specifically, that 44 % of the children presented an absence or a delay in the P2 component of the VEP in a visual flash stimulation, thus suggesting that NF1 children frequently demonstrated a primary abnormality of visual processing. In addition, Ribeiro et al. (2014) demonstrated that children with NF1 exhibited a lower amplitude of the negative potential occurring at 300 ms after chromatic visual stimulation. Note that this type of stimulation preferentially activates the parvocellular visual processing pathway.

Consistent with the findings from the VEP methodology, some studies suggest a delay in the maturation of the two main low-level visual pathways. Ribeiro et al. (2012) showed significant alterations of visual magnocellular and parvocellular systems with contrast sensitivity deficits for the achromatic higher spatial frequency, the achromatic low spatial high temporal frequency, and the chromatic red-green contrast sensitivity. Violante et al. (2012) corroborated these results in IRMf showing an impaired activation of low-level visual cortex in NF1 children, for the two kinds of stimuli activating respectively the magnocellular and parvocellular pathways. Contrary to these studies, Van Eylen et al. (2017) did not find a significant difference between individuals with NF1 and TD children in a coherent motion task which engages the activation of the magnocellular pathway. In the same vein, it is important to highlight that Ribeiro et al. (2012) failed to find correlations between the contrast sensitivity deficit found in NF1 and the neuropsychological measures, including notably the visuo-spatial perception abilities assessed by the JLO test.

3.2. Perceptivo-motor processes[19]

3.2.1. Visual-motor and visual-constructive skills

The visual-motor processes did not reach a consensus regarding their preservation or impairment in NF1. Using the *Beery–Buktenica Developmental Test of Visual-Motor Integration (Beery VMI)*, which is the most common used in research on NF1, some studies demonstrated lower performance in NF1 children compared to controls (Dilts et al., 1996; Gilboa et al., 2010; Gilboa, Josman, et al., 2014; Krab et al., 2008, 2011; Lorenzo et al., 2013)[20], while in some others no significant difference emerged between groups (Eldridge et al., 1989; Mazzocco, 2001; Moore et al., 2000; Sangster et al., 2011). Similarly, no agreement was reached with other tests. Using the *Bender visual-motor Gestalt* test, Erdogan-Bakar et al. (2009) did not find differences between individuals with NF1 and those with TD. Conversely, Casnar et al. (2014) showed significantly lower performance of NF1 children than the normative data and the control group on *Copying (DAS-II)* and *Visuo-motor precision (NEPSY-II)* subtests, with large (d = 1.33) and medium (d = 0.66) effect size respectively. The effect size for VMI corroborated the findings of Sangster et al. (2011) in preschoolers, even after controlling for IQ and maternal educational level no significant difference between groups remained. Several studies also assessed visual-constructive abilities through the *ROCF* test and all of them demonstrated poorer performance on figure copying in NF1 children compared to controls (Bulgheroni et al., 2019; Gilboa, Josman, et al., 2014; Hofman et al., 1994; Mazzocco et al., 1995).

The previous results provided evidence that differences in visual-motor and visual-constructive abilities of NF1 and TD children were not consensual across studies and tests. Even though there is no formal agreement, these processes have been frequently reported to be impaired in NF1.Indeed, between 23 % and 65 % of the NF1 children exhibited difficulties in the copying process (i.e., scores 1 SD below the mean; Casnar et al., 2014; Descheemaeker et al., 2005; Dilts et al., 1996; Hyman et al., 2005; Vaucheret Paz et al., 2019). It should be noted that despite the great variability of the prevalence between studies, it remained consistently high.

As with visuo-spatial perception processes, a point of divergence concerns the involvement of other cognitive processes in the tasks which could partly explain the failure to complete them. Indeed, Van Eylen et al. (2017) highlighted differences between NF1 and TD in the *ROCF* copy, which were no longer significant when executive functions with *flanker task* were included as a covariable. On the other hand, Hyman et al. (2005) noted that spatial planning did not contribute significantly to the variance in the *ROCF* outcomes in NF1, whereas the *JLO* test predicted 26.3 % of this variance.

Some researches tried to link visual-motor skills with reading abilities, but did not find significant correlations (Mazzocco, 2001; Watt et al., 2008). More generally, regarding school learning, Krab et al. (2008) identified differences between NF1 children with general learning disabilities and those

[19] In this section, a distinction was made between visual-motor and saccadic processes since these terms refer to two distinct literatures. The term visual-motor is specifically used in the context of grapho-motor tasks involving eye-hand coordination such as figure copying and line tracing between contours tasks.

[20] Note that the results provided by Gilboa et al. (2010) and Gilboa et al. (2014) used the same cohort and the same results in the two studies but comparing NF1 children with control subjects in one study and with normative data in the other. The same approach was performed in Krab et al. (2008) and Krab et al. (2011).

with specific or no learning disabilities. The first group exhibited poorer *ROCF* and *VMI* scores than the two others. However, we could not define what was part of the reading deficit or other learning deficits since they were not dissociated in this study.

3.2.2. Saccadic system[21]

In children with NF1, only two eye-tracking studies were conducted to investigate the saccadic system in this population and no consensus emerged from the results. While Lasker et al. (2003) found a disruption in the saccadic system, Krab et al. (2011) didn't find any difference between children with NF1 and TD.

More precisely, Lasker et al. (2003) used four different paradigms to study respectively elicit reflexive saccades, suppression of reflexive saccades, memory function and elicit volitional predictive saccades, in NF1 children aged from 6 to 11 years. For the visually guided saccade paradigm, they found an increase in latency for 20° and 30° target eccentricities and a decrease in accuracy for the 30° target eccentricity. NF1 children made also more errors than TD children in the antisaccade paradigm and exhibited more difficulties and greater latency in the predictive saccade paradigm for the 0.5 Hz frequency stimulus. Finally, for the memory-guided saccade paradigm, NF1 children demonstrated a longer time to make a saccade for each of the remembered targets and a higher number of premature responses than controls. There are two main limitations in this study: the small size of the sample (i.e., 10 NF1 children) and the participants' inclusion criteria (e.g., 5 out of 10 children satisfied the diagnostic criteria for ADHD).

In comparison, Krab et al. (2011) evaluated the saccade adaptation of 53 children with NF1 with a classical backward saccade adaptation paradigm. During 3 sessions (i.e., baseline, adaptation, and extinction trials), children were asked to look at a single dot that moved from the left to the right visual field relative to the centre of the screen. The results revealed no significant differences between the NF1 group and the comparison group in terms of the baseline saccadic performance (i.e., number of correct primary saccades, baseline saccadic gains and variability) and the saccadic adaptation (i.e., size of the adapted gains and adapted saccade variability).

Given these divergent results, it is important to note that even if they assessed the saccadic system in NF1 children, they (1) did not use the same paradigms and (2) did not deal with reading and the relevance of its relationship to eye-movement control.

3.3. Visuo-attentional processes.

Visual attention in NF1 was not directly studied regarding reading processes. However, several research used visual search tasks to investigate selective visual attention skills. The most common task

[21] The term saccadic system here does not include what is related to eye-movement control in reading since no studies to our knowledge were conducted in this field.

used to this end was the *Sky search* subtest (*TEA-Ch*). With this task, Payne et al. (2011)[22] showed significantly lower selective visual attention outcomes for the NF1 group compared to unaffected siblings. Contrarily, Arnold et al. (2020), Hyman et al. (2005), Isenberg et al. (2013) and Pride et al. (2018) didn't find significant differences between groups. This last result was corroborated in an experimental visual search task (Van Eylen et al., 2017) and the *Visual attention* subtest of the *NEPSY* with pre-schoolers (Lorenzo et al., 2013). Moreover, Vaucheret Paz et al. (2019) showed that 33.3 % of the NF1 children performed poorer in this last subtest (i.e., the *Visual attention* subtest of the *NEPSY*), but the sample performing this test was very limited (i.e., only 6 children). Regarding reading, Watt et al. (2008) reported no significant correlation between selective visual attention and reading subtests in NF1 children.

Visual selective attention was also studied through the *Stroop Color-Word Test (SCWT)* and the observed results were less controversial than visual search tasks. While Descheemaeker et al. (2005) showed that children with NF1 displayed average scores (i.e., mean score of -0.53 SD; see Krab et al., 2008 for a similar result), near half of these children (i.e., 53 %, 9 children out of 17) obtained results below -1 SD in this task. Remigereau et al. (2018) found a significant difference between the NF1 children and the control group for the interference time, with a moderate effect size. Finally, the only study on academic achievement using this test showed that children with NF1 and general learning disabilities performed worse on the *SCWT* than those with NF1 and a specific learning disability (Krab et al., 2008). However, the study didn't provide the results according to the academic domain impaired. So, we cannot define specifically the link between difficulties in this task and reading deficits.

Finally, Michael et al. (2014) investigated elementary visuo-attentional components in children with NF1 in a visual reactivity task with and without distractors occurring at varying time intervals. This task allowed them to assess three attentional processes (i.e., alerting, distraction, and interruption). Although no significant differences were found for the alerting and distraction indices, this study revealed differences between the NF1 and control groups for the interruption index. The higher reaction times in NF1 children for this index could reflect a lower resistance to visual interference and thus a disturbance in the ability to focus visual attention on a specific target. This result is in line with the disruption of the alpha modulation found in EEG studies on tasks involving the overt and covert deployment of visual attention. Ribeiro et al. (2014) reported an increase in alpha oscillations amplitude in the parieto-occipital regions of the NF1 children compared to the control subjects both at rest and before poor performances in an overt attention task in which the target was centrally presented. Silva et al. (2016) also showed abnormal alpha modulations in children with NF1 when the attention was covertly allocated to a target outside of the central visual field. Specifically, in a target offset detection task, NF1 children achieved similar response accuracy as the control group but associated with a significantly higher desynchronization of the alpha oscillations in NF1 children. This high desynchronization was interpreted by the authors as a compensatory mechanism necessary

[22] Note that the 81 NF1 children of the study by Hyman et al. (2005) were also included in the 199 NF1 children of the study by Payne et al. (2011). Thus the divergent results of these two studies could be attributed to differences in the sample sizes: it is possible that the significant effect founded in the Payne et al. (2011) study may be more representative of the NF1 population due to the large sample size of this study.

to obtain comparable performance to the control group and to compensate for a dysfunction of the visual attentional control processes.

4. Discussion

This systematic review aimed at examining the literature on visuo-perceptual (with and without a motor implication) and visuo-attentional processes in NF1 children, and to clarify their possible impact on the reading deficits frequently experienced by these children. The results revealed that NF1 children displayed very frequently impaired visual-processing skills (see Table 4 for a summary of the results). However, it is important to emphasize that contradictory results are frequently observed in studies. This limits the synthesis of results and thus the emergence of a clear conclusion regarding the effectiveness of these visual processes in children with NF1. The idea of this discussion is therefore to summarize the main results and to highlight the relationship that these visual processes may have with NF1 children's reading skills.

It is currently known that many cognitive functions can be impaired in NF1 children (for reviews, see Crow et al., 2022; Lehtonen et al., 2013) and that several of them can affect reading (e.g., linguistic skills; Arnold et al., 2018, 2020). In this framework, the issue of the visual processes' involvement in NF1 children's reading deficits has emerged through the study of visuo-spatial perception (Cutting et al, 2000a; Cutting & Levine, 2010). In most of the selected studies, NF1 children exhibited poorer performance than controls and a high frequency of deficits in this visual skill. The results also indicated that NF1 children with a reading deficit performed poorer on visuo-spatial perception tasks than TD or RD children (Barquero et al., 2015; Cutting & Levine, 2010). A significant association between visuo-spatial processes and reading was also reported especially in NF1 patients with a reading deficit (Cutting & Levine, 2010). However, it is important to point out that as mentioned in the *Introduction* section, visuo-spatial perception processing was rarely directly studied to address the issue of reading acquisition in children with DD or TD. The majority of studies on the relationship between reading and visuo-spatial abilities dealt with the spatial deployment of attentional resources (e.g., Facoetti et al., 2010; Franceschini et al., 2012). For this reason, we will discuss the other visual processes (i.e., global-to-local level of analysis, perceptual-motor and visuo-attentional processes) in more detail.

The results on visuo-spatial attention in NF1 children highlighted lower resistance to visual interference and thus, difficulties to focus visual attention on a specific target (Michael et al., 2014). In other words, children with NF1 would demonstrate difficulties in focusing attention on relevant information and inhibiting irrelevant information in covert attention, as already demonstrated in children with DD (White et al., 2019). This result is in line with the reported difference in alpha-band oscillations between children with NF1 and TD ones in a covert attention task (G. Silva et al., 2016). This kind of attention is central since it is implied in the parafoveal pre-attentive processing. It facilitates the recognition of the currently fixed word but also influences saccadic computation towards the next fixation (for a review, see Schotter et al., 2012). Attentional focusing difficulties in NF1 children are consistent with those observed in DD children with a more diffuse distribution of attention (Facoetti et al., 2000, 2006). DD children displayed a default of attentional inhibition for targets at the

uncued location in the right visual field (Facoetti et al., 2006). This abnormally important allocation of attentional resources (Facoetti et al., 2006; Facoetti & Turatto, 2000) is related to a greater vulnerability to the crowding effect (Bellocchi, 2013; Martelli et al., 2009) and consequently, to a reduced parafoveal preview benefit in individuals with dyslexia compared to expert readers (S. Silva et al., 2016). Thus, in NF1 children, the attentional focus defect may lead to the same pattern of interference in parafoveal processing, with increased sensitivity to the visual crowding effect and reduced parafoveal pre-processing. This could finally affect the efficiency of the reading process.

A selective attention defect was also shown in the visual information processing at the foveal level. Poorer performance on the Stroop task was observed in children with NF1 compared to typically developing children with an increased interference effect (Descheemaeker et al., 2005; Remigereau et al., 2018). This finding is often interpreted as a defect in inhibitory control but may also be associated with a specific developmental trajectory in reading acquisition. In this sense, a higher interference effect is classically reported in children with dyslexia and beginning readers (e.g., Everatt et al., 1997; Faccioli et al., 2008). This high sensitivity to incongruency may be related to the strong interference observed in the first year of learning to read, which then decreases (Comalli et al., 1962; Roy et al., 2018). Note that a reverse developmental trajectory, with an increase in interference effect from first to fifth grade, was also observed in typically developing readers, when controlling for the difference in response speed between children (Ferrand et al., 2020). Thus, it would be interesting to clarify the involvement of visual attention implied in reading skills and the inhibition processes in the level of Stroop interference observed in children with NF1.

Contrary to the previous results on selective visual attention, the shift in the foveal allocation of attention assessed through a visual search task did not lead to a consensus. While Payne et al. (2011)[22] revealed poorer visual search outcomes in NF1 children compared to unaffected siblings, other studies didn’t find any significant difference between groups (Arnold et al., 2020; Hyman et al., 2005; Isenberg et al., 2013; Pride et al., 2018). Interestingly, in non-NF1 children, a relationship between reading achievement and visual target search has been demonstrated (Franceschini et al., 2012; Guilbert & Guiraud-Vinatea, 2022). The more a child automates reading, the more precise he/she will be in his visual search with (1) less return to areas already explored, (2) more regular movements towards the nearest target and (3) a preferential exploration by following lines. However, the tools used in NF1, such as the Sky search subtest (TEA-Ch), don’t directly measure the accuracy of the visual search organization. It would be useful to rely on more precise measures of visual exploration as suggested by Guilbert and Guiraud-Vinatea (2022). The idea is to get more ecological measures regarding reading conditions. Nevertheless, the poorer visual search performance shown in the large cohort of the Payne et al. (2011) study may reflect a defect in automatic orienting of visual attention, as already demonstrated in DD children (Facoetti et al., 2003; Franceschini et al., 2012). This could result in poor left/right scanning and thus limits reading speed and accuracy. In addition, this result could be explained by a reduction in the visual attention span, limiting the parallel processing of information as in DD children (Bosse et al., 2007; Prado et al., 2007). If this assumption is confirmed, it could account for the low reading speed and the irregular word reading difficulties frequently experienced by children with NF1 (e.g., Arnold et al., 2020; Biotteau et al., 2019).

This idea is consistent with global-to-local visual processing often affected in NF1 children (Barquero et al., 2015; Bulgheroni et al., 2019; Clements-Stephens et al., 2008; Cutting & Levine, 2010; Payne et al., 2017). When a TD child becomes an expert reader, he/she will progressively shift from a grapho-phonological decoding mode (local perceptual analysis) to a lexical processing at the word level (Coltheart et al., 2001), with a precedence of the global level analysis (Krakowski et al., 2016; Poirel et al., 2008). Results from the present literature review suggested that like children with DD (Franceschini et al., 2017), NF1 children did not exhibit the global precedence bias over local processing. This perceptual analysis specificity could impact the orthographic processing strategy implemented by NF1 children. It may result in difficulties in the transition from grapho-phonological decoding of sub-lexical information to global word processing. Thus, the inability to prioritize a global processing strategy and to extend visual attention deployment in the foveal area appears to be closely related to the reading automation failure of some NF1 children.

Reported difficulties in parafoveal pre-processing and perceptual analysis level strategies may result in inefficient eye-movement control. In DD children, these deficits explained partly the inefficient eye-movement patterns observed in saccade targeting, fixation times, saccade amplitude, and the probability of word skipping and refixation (e.g., De Luca et al., 2002; Franzen et al., 2021; Hawelka et al., 2010; Lefton et al., 1979). To our knowledge, only two eye-tracking studies were already conducted on children with NF1 (Krab et al., 2011; Lasker et al., 2003). These two studies focused on the saccadic system and differed in their results. While Lasker et al. (2003) found evidence of saccadic computation differences between NF1 and TD children, Krab et al. (2011) did not observe any difference between groups. As noted in the *Results* section, they did not examine the same processes and the study of Lasker et al. (2003) contained many limitations regarding the sample size and the inclusion criteria. Furthermore, despite the high prevalence of reading deficits and the relationship between reading and eye-movement control, the lack of differences between the two groups is not surprising. Consistent with Blythe et al. (2018) and Rayner (1985), the disruption of eye-movement behaviour, in the vast majority of cases, results from the lexical difficulties specifically experienced in reading tasks by children with reading deficits, independently of their ability to move the eyes (see also, Vagge et al., 2015; Vikesdal et al., 2021). However, the two eye-tracking studies in NF1 children did not consider the children's reading level, nor study saccade computation during reading or reading-like tasks. To better understand the involvement of eye-movement control in the reading deficits experienced by NF1 children, further investigations are needed including reading tasks in eye tracking studies

Among the motor functions involved in reading, visual-motor integration was often found to be poorer in children with NF1 compared to TD ones. However, the few studies that have attempted to link this process to reading failed to find a significant correlation between them in the sample of NF1 children (Mazzocco, 2001; Watt et al., 2008). This result is quite surprising since studies on non-NF1 children demonstrated a strong relationship between reading deficits and visual-motor difficulties, allowing to differentiate TD from DD children (Bellocchi et al., 2017; Iversen et al., 2005; Kooistra et al., 2005) and to predict the reading level of children as early as in kindergarten (Bellocchi et al., 2017). This indicates that visual-motor integration plays a critical role in the early stages of learning to read. Multimodal integration of orthographic codes, including visual and motor modalities, would facilitate their encoding and thus their subsequent recognition (Longcamp et al., 2005). Hence, it

would be interesting to clarify the involvement of visual-motor processes in preschool children and during the early stages of explicit reading instruction in children with NF1.

In this context, studies with preschool-aged children make it possible to determine the prerequisites for reading acquisition and then, to early identify NF1 children at risk to present reading deficits. Many research on NF1 preschool-aged children were already conducted to study the cognitive functions and adaptative behaviour in kindergarten (Arnold et al., 2018; Beaussart, Barbarot, Bucaille, et al., 2018; Brei et al., 2014; Klein-Tasman et al., 2013; Sangster et al., 2011; Soucy et al., 2012; Thompson et al., 2010), but none to our knowledge has explored the role of early visual skills in the learning-to-read process. The design of longitudinal research protocols would therefore be the appropriate way to study the prerequisites specifically involved in reading difficulties in NF1 by following children from kindergarten to explicit reading acquisition. From a clinical point of view, specifying the role of visual skills in learning to read at an early age would make it possible to develop and implement remediation with clinical tools adapted to the reading profile of NF1 children and to put it in place before the reading delay becomes too important.

Finally, alterations of the magnocellular-dorsal system were reported in children with NF1 (Ribeiro et al., 2012; Violante et al., 2012). The disruption in this visual pathway is consistent with all the previous findings since it was already identified by some researchers as a factor that could result in difficulties (1) to reach a global precedence level of perceptive analysis, (2) to deploy efficient spatial attention and (3) to develop usual eye-movement control strategies, as would be done by expert readers (Stein, 2019, 2022). However, Ribeiro et al. (2012) failed to find a significant correlation between the magnocellular-dorsal system functioning and the visuo-spatial perception assessed by the JLO. Additionally, Van Eylen et al. (2017) did not find a significant difference between individuals with NF1 and TD children in a coherent motion task which engages the activation of the magnocellular pathway. In light of these conflicting results, two important points of discussion need to be stressed. First, the magnocellular hypothesis in dyslexia only addresses children with reading deficits. However, in all the studies with NF1 children, the children's reading proficiency was not considered. Secondly, as mentioned in the introduction, the causal hypothesis of a magnocellular deficit associated with visual-processing difficulties and reading deficits is highly controversial (Blythe et al., 2018; Hutzler et al., 2006). Although, as in dyslexia, some children with NF1 exhibit magnocellular dysfunction, interpretation of its relationship to the reading deficits encountered by children with NF1 must be cautious.

This hypothesis raises an important limitation in studies assessing visual processes in children with NF1. If, as we suggest, deficient visual processes are related to reading deficits, it is not surprising that several studies did not find any significant differences in visual skills between NF1 and TD children. This is probably because they did not consider the frequent comorbidity with reading deficits in the NF1 group (Descheemaeker et al., 2005; Hyman et al., 2006; Orraca-Castillo et al., 2014). Further studies considering this factor and dissociating NF1 children with and without a reading deficit would help to clarify this area of research. Given the great heterogeneity of cognitive profiles in NF1, it seems also important to specify the visual-processing characteristics according to the nature of the reading difficulties. Indeed, in DD, many studies report distinct visuo-perceptual and visuo-attentional difficulties regarding the affected reading procedure (i.e., graphophonological decoding of sub-lexical

units or lexical processing; Bosse et al., 2007; Facoetti et al., 2006; Goldstein-Marcusohn et al., 2020). All these elements will allow a better understanding of whether the clinical profiles associated with reading difficulties in NF1 are specific to this disease or whether they are transposable to those observed in DD.

Studying the efficiency of visuo-perceptual and visuo-attentional processes in NF1 children according to the presence of reading deficit comorbidity requires the use of tools directly related to the visual processes of interest. The results from this literature review revealed the involvement of a range of confounding cognitive skills in many of the tools used. For instance, Van Eylen et al. (2017) identified that the differences observed in the *ROCF* copy did not remain significant after controlling for inhibitory control. In the same vein, the *JLO* test involves visual processes associated with posterior regions cortical activations (including parietal and occipital areas) but also executive abilities associated with additional activations within frontal regions (Clements-Stephens et al., 2008). Worse performance in the *SCWT* may be also interpreted as both visual selective attention and inhibitory control deficits. It is therefore difficult to isolate the attentional component of a poor performance from the other skills involved in this task such as executive dysfunction (Van Eylen et al., 2017). Although it is hard to focus on a specific cognitive process in neuropsychological assessment from psychometric tests, there is a real challenge in assessing visual-processing skills specifically involved in reading. For instance, it would be interesting to evaluate left/right visual scanning, visual attention span, preferred level of perceptual analysis, or even eye-movement control and saccade targeting strategies using psychometric tests or experimental tools that have previously demonstrated their relevance to reading (e.g., Bellocchi et al., 2017, 2021; Bellocchi & Ducrot, 2021; Bosse et al., 2007; Ducrot et al., 2013; Facchin, 2021; Krakowski et al., 2016). Assessment tools for the visual-attentional processes specifically involved in reading difficulties could then be included in the recommendations for the assessment of attentional difficulties in NF1 children (Klein-Tasman et al., 2021; Pardej et al., 2022).

A better understanding of the visual processes involved in reading difficulties will allow us to provide clinical remediation tools adapted to the NF1 child's profiles. As already studied for phonological skills (Arnold et al., 2016; Barquero et al., 2015), specific remediations focused on visual processes need to be developed. To date, several computerised tools based on visuo-attentional processes were proposed to improve reading skills in DD (e.g., Pasqualotto et al., 2022; see also Franceschini et al., 2015, for a review on action video games). For instance, visual attention span training can specifically improve the lexical reading process, by facilitating the parallel processing of the word’s letters (Valdois, Peyrin, et al., 2014; Zoubrinetzky et al., 2019). Similarly, an increase inter-letter and inter-word spacing and a reduced number of words per line limit the effect of perceptual crowding, which is more pronounced in DD children (e.g., Perea et al., 2012; Schneps et al., 2013; Zorzi et al., 2012). Eye-movement control strategies and especially saccade targeting efficiency could also be improved with real-time feedback on the fixation position (Lehtimäki & Reilly, 2005). All these clinical tools could be useful for the management of reading deficits in children with NF1.

To conclude, this literature review highlights weaknesses in the different components of the visual processes implied in reading in children with NF1. More specifically, an attentional focusing dysfunction, a precedence of the local perceptual analysis strategy, a visual-motor integration deficit

and an alteration of the visual magnocellular system have been demonstrated in children with NF1. While there are divergent results in the literature, these specificities could partly explain or reflect the highly frequent comorbid reading deficits in this disease. The results raise the importance of directly studying the visuo-perceptual, visuo-attentional processes and eye-movement control involved in the learning-to-read process in NF1. This discussion provides new directions for research, both for a better understanding of the cognitive mechanisms involved in this disease and also for the screening and care of learning disorders associated with NF1 to reduce school failures and their strong lifelong negative impact.

Acknowledgements. The authors are very thankful to the Recklinghaüsen and the Neurofibromatosis Association (France) and the "Fondation de France" for their support and financial contributions to this project. We are also grateful to N. Sghaier for her valuable information and advice.

Funding. This work was promoted by a PhD Fellowship from the "Fondation de France" and the "Association Neurofibromatoses et Recklinghausen" to the first author (VISALECT_NF1_00099576).

SYNTHÈSE DU CHAPITRE 3

Cette revue de littérature a permis de révéler que les difficultés perceptives et visuo-attentionnelles, connues pour leurs implications dans l'apprentissage de la lecture, étaient très fréquemment rapportées comme étant déficitaires chez les enfants atteints de NF1. Plus spécifiquement, nous avons pu noter un déficit de focalisation attentionnelle, un biais en faveur de la stratégie d'analyse perceptive locale, un déficit d'intégration visuo-motrice et un dysfonctionnement de la voie visuelle magnocellulaire. Bien que les résultats de ces études ne fassent pas consensus, ces spécificités pourraient en partie expliquer ou refléter les déficits de lecture comorbides, très fréquents dans cette maladie. Les résultats soulignent donc l'importance d'étudier directement l'implication des processus perceptifs, visuo-attentionnels ainsi que le contrôle des mouvements oculaires dans la genèse des difficultés de lecture chez les enfants atteints de NF1.

Problématique

1. Problématique du travail de thèse

Les troubles des apprentissages, très fréquemment observés chez les enfants atteints de NF1, constituent un enjeu majeur pour le parcours académique de ces enfants et plus largement pour leur qualité de vie (Coudé et al., 2006; Krab et al., 2008). Près de la moitié des enfants atteints de NF1 manifestent des difficultés de lecture (Chaix et al., 2017; Hyman et al., 2005; Orraca-Castillo et al., 2014; Watt et al., 2008), qui constitue pourtant un apprentissage indispensable à l'acquisition d'autres connaissances dans la suite du parcours scolaire. Il est donc important au vu de la forte prévalence de cette atteinte et de ses répercussions, de comprendre les profils cognitifs associés à ces difficultés afin de pouvoir les dépister et les prendre en charge précocement.

Malgré la grande hétérogénéité des profils cognitifs chez les enfants atteints de cette maladie, la littérature s'accorde sur l'implication des compétences linguistiques dans les difficultés de lecture fréquemment rapportées (i.e., conscience phonologique, dénomination rapide ou encore mémoire de travail verbale; Arnold et al., 2018; Cutting & Levine, 2010). Bien que ces processus soient indispensables au développement efficient des compétences de lecture (e.g., Carroll et al., 2003; Melby-Lervåg et al., 2012; Piquard-Kipffer & Sprenger-Charolles, 2013), le traitement des informations orthographiques implique également des processus visuo-perceptifs, visuo-attentionnels ainsi que le contrôle oculaire (pour des revues, voir Leibnitz et al., 2015a, 2017). Dans la dyslexie développementale, des difficultés dans le développement et le contrôle de ces processus ont été mises en lien avec les difficultés de lecture (pour des revues, voir Bellocchi et al., 2013; Facoetti et al., 2019). Pourtant, chez les enfants atteints de NF1 avec un déficit en lecture, peu d'études se sont intéressées à l'implication des processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels.

Dans la NF1, les processus visuels ont principalement été étudiés au travers de la perception visuo-spatiale et les difficultés dans ce domaine ont longtemps été considérées comme un trait cognitif caractéristique de la maladie (Eldridge et al., 1989; Eliason, 1986). Mais en plus des déficits visuo-spatiaux, plusieurs études ont suggéré la mise en place de stratégies d'analyse perceptive inadaptées avec une primauté du niveau de traitement local (Bulgheroni et al., 2019; Payne et al., 2017), des anomalies dans la programmation saccadique (Lasker et al., 2003 ; pour des résultats contradictoires, voir Krab et al., 2011), ainsi que des difficultés visuo-attentionnelles à la fois dans la focalisation attentionnelle et dans l'exploration visuelle (Michael et al., 2014; Payne et al., 2011). Au niveau cérébral, l'hypothèse a été faite d'un retard de maturation des processus visuels en lien avec un dysfonctionnement des voies visuelles (Iannaccone et al., 2002; Ribeiro et al., 2012; Violante et al.,

2012). Il est important de noter que l'ensemble de ces spécificités dans les processus visuels ont déjà été montrées comme étant associées aux troubles de la lecture dans la dyslexie développementale (e.g., Bellocchi et al., 2017; De Luca et al., 2002; Facoetti et al., 2006; Franceschini et al., 2017; White et al., 2019).

Ces résultats ne font toutefois pas consensus et sont largement débattus dans la littérature sur la NF1. Une des limites concerne le fait qu'en neuropsychologie, il est difficile d'isoler un processus cognitif lors de l'évaluation à partir de tests psychométriques. Ainsi plusieurs études soulignent que les fonctions exécutives expliquent en partie les déficits retrouvés dans les tâches évaluant les processus de perception visuo-spatiale (Clements-Stephens et al., 2008; Roy et al., 2010; Van Eylen et al., 2017). D'autres facteurs tels que les compétences de lecture et notamment la présence d'un déficit en lecture comorbide pourraient également expliquer la manifestation de difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles. Cette idée est cohérente avec l'hypothèse de difficultés visuelles spécifiques à l'activité de lecture, comme cela est suggéré dans la dyslexie développementale (Blythe et al., 2018; Muneaux & Ducrot, 2014a). Celles-ci ne seraient donc pas caractéristiques de la maladie, mais associées à des difficultés de lecture fréquemment observées dans la NF1. Malheureusement, la plupart des études portant sur l'évaluation des processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels dans la NF1 ne prennent pas en compte la fréquente comorbidité des difficultés de lecture, pouvant expliquer la divergence de résultats entre elles. Cutting et Levine (2010) ont été les premiers, à notre connaissance, à s'intéresser au lien entre le niveau de lecture des enfants et l'efficience des processus visuo-perceptifs. Leurs résultats corroborent cette idée puisqu'ils ont mis en évidence des difficultés perceptives spécifiques aux enfants ayant une NF1 associée à des difficultés de lecture. Cette étude reste toutefois l'une des rares à s'être intéressée au lien entre les processus visuels et la lecture, et se limite aux processus perceptifs et notamment, visuo-spatiaux. Par conséquent, l'évaluation de l'ensemble des processus visuels impliqués dans la lecture (perceptifs, moteurs et attentionnels), à l'aide de tests psychométriques ou d'outils expérimentaux ayant montré leur pertinence pour la lecture (e.g., Bellocchi et al., 2017; Bosse et al., 2007; Ducrot et al., 2013; Facchin, 2021; Krakowski et al., 2016), constitue un réel enjeu dans la NF1.

En résumé, en plus de l'importance bien documentée des compétences phonologiques dans l'acquisition de la lecture et dans les troubles neurodéveloppementaux, les processus visuels apparaissent également fortement impliqués dans cet apprentissage. Pourtant, malgré (1) la forte fréquence des difficultés de lecture chez les enfants atteints de NF1, (2) les données montrant des altérations des processus visuels, et (3) leur impact majeur sur le parcours scolaire des enfants, très peu d'études se sont intéressées à la contribution des déficits visuo-perceptifs, visuo-attentionnels et oculomoteurs dans les difficultés de lecture de ces enfants. Ainsi ce travail de thèse s'inscrit dans une nécessité de clarifier l'implication de ces processus dans la genèse des difficultés de lecture fréquemment rencontrées par les enfants présentant une NF1.

2. Questions de recherche

Le travail réalisé dans cette thèse nous a permis de répondre à 3 questions principales de recherche qui sont à l'origine de 3 chapitres expérimentaux.

CHAPITRE 4. Quelle est la prévalence des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles chez les enfants atteints de NF1 (avec et sans déficit en lecture) ?

Comme cela a été précédemment évoqué, la littérature sur le fonctionnement cognitif des personnes atteintes de NF1 met en évidence des difficultés fréquentes dans les processus de perception visuo-spatiale et d'intégration visuo-motrice chez les enfants d'âge scolaire (e.g., Hyman et al., 2005; Krab et al., 2008; Watt et al., 2008). Malgré tout, ces résultats ne font pas consensus et restent débattus. L'efficience des processus visuo-attentionnels chez les enfants ayant une NF1 témoigne également de résultats très divergents entre les études (voir Table 4 du chapitre 3 pour une vision générale des résultats dans la littérature). Il apparaît ainsi essentiel de clarifier la question de la fréquence des difficultés visuo-perceptives (avec ou sans implication motrice) et visuo-attentionnelles manifestées par les enfants atteints de NF1. Deux études transversales, nous ont permis d'y répondre à l'aide de différents tests psychométriques et de deux cohortes d'âges distincts. Nous faisons l'hypothèse que des déficits devraient être fréquemment observés dans ces processus visuels et ce, de manière plus importante que chez les enfants qui ne sont pas porteurs de la NF1.

Vu la prévalence des difficultés de lecture dans la NF1 et l'implication des processus visuels dans la lecture, un second objectif consistait à déterminer l'implication des processus visuels, en plus de celle des processus linguistiques, dans les difficultés de lecture observées chez les enfants atteints de NF1. Nous faisons l'hypothèse d'un lien significatif entre le niveau de lecture des enfants et leurs compétences visuo-perceptives, visuo-motrices et visuo-attentionnelles, tout comme chez les enfants sans maladie génétique associée. Nous postulons également que les déficits dans ces processus visuels seront plus fréquemment observés chez les enfants NF1 avec un déficit en lecture comorbide que chez ceux qui ne présentent pas de difficultés dans cet apprentissage.

Ainsi, le chapitre 4 aura pour objectif d'une part de clarifier la prévalence des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles, et d'autre part de déterminer leur implication dans la forte prévalence des déficits en lecture chez les enfants présentant une NF1.

CHAPITRE 5. Quelles sont les spécificités des stratégies de contrôle oculaire et des processus de contrôle inhibiteur des enfants atteints de NF1 (avec ou sans déficit en lecture) ?

Au travers de cette question, nous souhaitions savoir si des spécificités dans le développement du contrôle oculaire et du contrôle attentionnel sont observées chez les enfants présentant une NF1 avec des difficultés de lecture associées (par rapport à ceux ayant une NF1 isolée), et si celles-ci sont spécifiques à la maladie ou généralisables aux troubles de la lecture, comme la dyslexie développementale par exemple. Cette question fondamentale est abordée au travers de deux sections dans le chapitre 5.

Une première étude en oculométrie utilisant la tâche de bissection oculaire élaborée par Ducrot et Pynte (2002) a permis d'appréhender la question des stratégies de programmation saccadique mises en place par les enfants atteints de NF1. Dans la littérature, les résultats montrent que la programmation saccadique chez le lecteur ayant automatisé la lecture est guidée par des éléments perceptifs de bas niveau prétraités en parafovéa, telle que la présence d'espaces inter-caractères notamment (Ducrot & Pynte, 2002). En revanche, les lecteurs débutants ainsi que les enfants

présentant une dyslexie seraient plutôt influencés par la nature linguistique des stimuli situés en parafovéa pour la programmation saccadique vers la PVL (Bellocchi et al., 2019), notamment dans le CVG où les procédures de programmation des saccades sont moins automatisées.

La première partie de ce chapitre visait donc à examiner les stratégies de programmation saccadique chez les enfants atteints de NF1 avec et sans déficit en lecture. Nous faisons l'hypothèse que les stratégies de programmation saccadique (et la détermination des ILPs dans les mots) chez les enfants atteints de NF1 seraient dépendantes de leur niveau de lecture. Ainsi les enfants présentant un déficit en lecture seraient davantage influencés par la nature linguistique des stimuli pour atterrir à la PVL (tout comme les dyslexiques ou les lecteurs débutants), alors que ceux ayant des performances de lecture dans la moyenne seraient guidés par la présence d'espace entre les caractères (tout comme les lecteurs experts sans NF1).

Une tâche de Stroop informatisée a dans un second temps permis d'étudier la question de l'implication des fonctions exécutives et notamment la question du développement du contrôle inhibiteur dans la NF1. Le contrôle inhibiteur a été très fréquemment rapporté comme étant déficitaire chez les enfants présentant une NF1 (Descheemaeker et al., 2005; Plasschaert et al., 2016; Remigereau et al., 2018; Roy, 2007). L'augmentation de l'effet d'interférence dans la tâche de Stroop chez ces enfants a même été identifiée (de manière tendancielle) dès la maternelle (Beaussart-Corbat et al., 2021). La littérature a, par ailleurs, mis en évidence que les enfants sans maladie génétique présentant un trouble de la lecture (i.e., une dyslexie développementale) manifestaient des effets d'interférences plus importants dans cette tâche que les enfants au développement typique (e.g., Everatt et al., 1997; Faccioli et al., 2008; Protopapas et al., 2007). Mais, la plupart de ces études reposaient sur une mesure des temps de réaction (TRs) et il a été montré que cette augmentation de l'interférence disparaissait lorsque la lenteur de dénomination des enfants dyslexiques était prise en compte (Di Filippo & Zoccolotti, 2011).

L'une des questions centrales de ce chapitre était donc d'une part de vérifier si les déficits d'inhibition classiquement associés au phénotype cognitif de la NF1 étaient observés au sein de notre cohorte après contrôle de la rapidité de réponse et d'autre part si l'interférence observée était dépendante du niveau de lecture des enfants. Nous faisons l'hypothèse que les enfants présentant une NF1 seraient plus affectés par l'effet d'interférence Stroop que les enfants au développement typique, en raison de difficultés du contrôle inhibiteur associées au phénotype cognitif de la NF1. Toutefois, nous faisons l'hypothèse que les enfants NF1 ayant un déficit en lecture comorbide pourraient présenter un niveau d'interférence réduit (voir nul) en raison du faible niveau d'automatisation de la lecture.

CHAPITRE 6. Peut-on identifier précocement les enfants atteints de NF1 à risque de présenter des difficultés de lecture et proposer des outils cliniques basés sur les spécificités des processus visuels observés dans la NF1 ?

Cette dernière question fait le lien entre les résultats fondamentaux obtenus dans cette thèse et leurs applications cliniques. De nombreuses études ont déjà montré que chez les enfants (sans maladie génétique), les processus perceptifs et visuo-attentionnels prédisent, en partie et dès la maternelle, le

niveau de lecture des enfants plus tard au cours de son apprentissage explicite (Bellocchi et al., 2017; Franceschini et al., 2012; Valdois et al., 2019; Vernet et al., 2022a). Face à la forte prévalence des difficultés de lecture dans la NF1, l'identification précoce des enfants manifestant des déficits dans les prérequis à la lecture constitue un enjeu majeur pour la poursuite de leur scolarité. C'est pourquoi le premier objectif de ce chapitre consistait à déterminer s'il était possible d'identifier dès la maternelle les enfants à risque de présenter des difficultés de lecture ultérieures. Dans ce cadre, une étude longitudinale a été menée afin d'apporter des éléments de réponse à cette question grâce au suivi d'enfants présentant une NF1 de la maternelle jusqu'à la fin du CP. Nous faisons l'hypothèse que chez les enfants NF1 scolarisés en maternelle, les processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels constitueraient des prédicteurs de leur futur niveau de lecture.

De nombreux outils d'entraînements des processus visuo-attentionnels ont démontré leur pertinence dans l'amélioration des compétences de lecture (e.g., Ebrahimi et al., 2022; Franceschini et al., 2015; Pasqualotto et al., 2022; Peters et al., 2019; Zoubrinetzky et al., 2019), mais à notre connaissance aucun outil clinique n'a été développé pour améliorer la précision de la programmation saccadique, pourtant déterminante dans l'efficience des compétences de lecture. Ainsi, ce dernier chapitre visait parallèlement à étudier l'intérêt d'un outil clinique d'aide à la lecture dont l'objectif était « d'entraîner » les yeux à fixer une position optimale pour lire, afin de favoriser l'utilisation de la voie directe en lecture, et ainsi, permettre de gagner en efficacité et rapidité. Cet outil se basait sur la manipulation de la saillance visuelle en parafovéa (par une mise en couleur ou en surbrillance), afin d'optimiser la programmation saccadique en attirant le regard vers la lettre située à la PVL. Nous nous sommes inspirés du travail de Lehtimäki et Reilly (2005) qui ont montré que les apprenti-lecteurs pouvaient améliorer leur contrôle oculaire et plus spécifiquement, la précision de leurs ILPs à la PVL par le biais d'un entraînement fournissant un feed-back en temps réel sur la position de leurs fixations. Des études ont par ailleurs montré que l'augmentation de la saillance visuelle du stimulus en parafovéa pouvait faciliter la programmation saccadique et réduire les erreurs de guidage oculaire (Marx et al., 2015; Slattery & Vasilev, 2019; Van Zoest & Donk, 2005), bien que chez le lecteur expert aucun effet de l'augmentation de la saillance n'ait été montré dans la mesure où les sujets atterrissaient déjà à la PVL (Hohenstein et al., 2010). Nous faisons donc l'hypothèse d'un bénéfice sélectif de notre outil en fonction du niveau de lecture des enfants et de la présence ou non de déficits perceptifs et/ou visuo-attentionnels associés.

L'objectif sous-tendant l'ensemble de la partie expérimentale de cette thèse était donc d'une part, de clarifier la fréquence et la nature des déficits perceptifs et visuo-attentionnels (contrôle oculaire et attentionnel) dans les profils cognitifs des enfants présentant une NF1 et d'autre part, d'apporter un éclairage à la fois fondamental et clinique sur l'implication de ces processus dans les difficultés de lecture fréquemment observées chez ces enfants.

3. Études expérimentales de la thèse

Pour répondre à ces trois questions de recherche, deux études principales ont été menées : l'étude Help Reading NF1 et l'ANR DYSTAC MAP.

3.1. Étude Help Reading NF1

L'étude intitulée *Help Reading NF1* a été menée de 2019 à 2022 de manière multicentrique incluant les centres hospitaliers de Toulouse (Centre d'évaluation des troubles du langage et des difficultés d'apprentissage chez l'enfant, CRTLA) et de Marseille (CHU de la Timone et Centre de Référence des Troubles d'Apprentissage, CERTA). Cette étude a été financée par un fond régional APEX, une bourse doctorale de la Fondation de France et une subvention de l'Association Neurofibromatoses et Recklinghausen. Elle a été menée conformément à la Déclaration d'Helsinki (World Health Organisation, 2008) et a été approuvée par le Comité de Protection des Personnes (2017-A02907-46). Cette recherche inclut deux protocoles expérimentaux distincts qui sont résumés dans le Tableau 5.

Tableau 5. Tableau récapitulatif des deux protocoles inclus dans l'étude Help Reading NF1.

	Protocole transversal	**Protocole longitudinal**
Centres d'inclusion	CHU de Toulouse	CHU de Toulouse et APHM (CHU de la Timone et CERTA de Marseille)
Période d'inclusion	Janvier 2019 - Septembre 2021	Mars 2020 - Juillet 2021
Nombre de participants inclus	16 enfants atteints de NF1	9 enfants atteints de NF1
Âge et niveau scolaire à l'inclusion	• 7 ans (± 3 mois) à 9 ans (± 3 mois) • Scolarisés en CP, CE1 ou CE2	• De 4 ans à 6 ans • Scolarisés en GSM
Critères d'exclusion	• Pathologie neurologique associée • Diagnostic de déficience intellectuelle, de trouble du spectre de l'autisme ou de trouble déficit de l'attention avec ou sans hyperactivité • Contexte social défavorable • Prise de traitements médicamenteux psychotropes	
Procédure	Trois séances prévues au cours d'une journée : • Une consultation neuropédiatrique pour vérifier les critères d'inclusions • Deux séances de bilan neuropsychologique pour la vérification des critères d'inclusions et la passation des tests psychométriques	Suivi longitudinal durant 1 an avec une première évaluation en GSM puis une réévaluation en fin de CP Trois séances prévues : • Une consultation neuropédiatrique pour vérifier les critères d'inclusions *(uniquement en GSM)* • Deux bilans neuropsychologiques pour la vérification des critères d'inclusions et la passation des tests psychométriques *(en GSM et au CP)*
Matériels et tâches utilisés	(1) Ensemble de tests psychométriques évaluant les compétences visuelles, phonologiques et le niveau de lecture. (2) Tâche expérimentale de décision lexicale informatisée avec manipulation de la saillance de la lettre située à la PVL. (3) Tâche expérimentale évaluant l'impact du niveau de lecture sur le développement des capacités d'inhibition (Stroop).	Ensemble de tests psychométriques évaluant les compétences visuelles, phonologiques et le niveau de lecture, adaptés à l'âge et au niveau scolaire des participants.

3.2. Étude DYSTAC MAP

La seconde recherche intitulée DYSTAC-MAP[23] a été menée de 2014 à 2018 de manière multicentrique incluant les centres hospitaliers de Toulouse (CHU Purpan), de Marseille (CHU de la Timone) et d'Aix-en-Provence. Cette étude a été financée par l'Agence nationale de la recherche (Investigateur principal : Pr Yves CHAIX ; ANR-13-APPR-0010-01). Elle a été menée conformément à la Déclaration d'Helsinki (World Health Organisation, 2008) et a été approuvée par le Comité de Protection des Personnes (2014-A01239-38 et 2014-A01960-47). Au total, 182 enfants ont été inclus à l'étude dont 42 enfants présentant une NF1 et 42 enfants au développement typique. Ces enfants ont réalisé une batterie de tests psychométriques ainsi que différentes tâches expérimentales orientées autour de la question de l'apprentissage procédural. Dans le cadre de mon travail de thèse, je me suis intéressée aux données issues des évaluations des processus visuo-perceptifs et en lien avec le contrôle oculaire. Le protocole expérimental spécifique à la question d'intérêt est synthétisé dans le Tableau 6.

Tableau 6. Tableau récapitulatif du protocole inclus dans le projet ANR DYSTAC-MAP.

Centres d'inclusion	CHU de Toulouse, CHU de la Timone de Marseille et CH d'Aix-en-Provence
Période d'inclusion	2014 – 2018
Nombre de participants inclus	• 42 enfants atteints de NF1 • 42 enfants au développement typique
Âge et niveau scolaire à l'inclusion	Âgés de 8 ans à 12 ans et scolarisés du CE1 à la 6ème
Critères d'exclusion	• Pathologie neurologique associée • Diagnostic de déficience intellectuelle, de trouble du spectre de l'autisme ou de trouble déficit de l'attention avec ou sans hyperactivité • Contexte social défavorable • Prise de traitements médicamenteux psychotropes
Procédure	La passation des tests psychométriques et de la tâche expérimentale s'est déroulée en deux temps avec : • La vérification des critères d'inclusion et la passation des tests psychométriques à l'hôpital • La passation de la tâche expérimentale de bissection oculaire au Laboratoire Parole et Langage pour les enfants inclus sur les sites d'Aix-en-Provence et de Marseille (20 enfants)
Matériels et tâches utilisés	(1) Ensemble de tests psychométriques évaluant les compétences visuelles, phonologiques et le niveau de lecture (2) Tâche expérimentale de bissection oculaire évaluant les stratégies de programmation saccadique mises en place par les enfants en fonction de leur niveau de lecture

À noter que les résultats expérimentaux d'une même étude pourront être divisés et inclus dans différents chapitres, en fonction des éléments de réponse qu'ils apportent.

[23] L'ANR DYSTAC-MAP visait à explorer l'apprentissage et la mémoire procédurale chez les enfants avec des troubles des apprentissages dans un contexte primaire (i.e., dyslexie développementale, trouble développemental de la coordination et comorbidité entre eux) ou secondaire (i.e., NF1).

Partie expérimentale

Chapitre 4

Prévalence des troubles visuo-perceptifs et visuo-attentionnels : quel lien avec la lecture ?

PUBLICATIONS ASSOCIÉES

Vernet, M., Jover, M., Bellocchi, S., Maziero, S., Jucla, M., Tallet, J., Danna, J., Chaix, Y., & Ducrot, S. (2022). Visual-processing deficits in children with neurofibromatosis type 1: A clinical marker of reading difficulties. *European Journal of Paediatric Neurology*, *38*, 25–32. https://doi.org/10.1016/j.ejpn.2022.03.009

La majorité des études s'intéressant à l'efficience des processus visuels dans la NF1 suggèrent des difficultés fréquentes dans les différentes composantes des processus visuels impliquées dans la lecture. Plus spécifiquement, des difficultés de perception visuo-spatiale (e.g., Hyman et al., 2005; Krab et al., 2008; Schrimsher et al., 2003), un biais en faveur de la stratégie d'analyse perceptive locale (Bulgheroni et al., 2019; Payne et al., 2017), un déficit d'intégration visuo-motrice (Casnar et al., 2014; Gilboa et al., 2010; Krab et al., 2011), des difficultés visuo-attentionnelles (Michael et al., 2014; Payne et al., 2011; G. Silva et al., 2016) ainsi qu'un dysfonctionnement des voies visuelles de traitement (Castricum et al., 2022; Iannaccone et al., 2002; Ribeiro et al., 2012; Violante et al., 2012) ont été identifiés chez les enfants atteints de NF1. L'ensemble de ces processus a déjà été montré comme étant impliqué à la fois dans l'apprentissage typique de la lecture mais aussi dans les troubles de la lecture comme la dyslexie développementale (e.g., Bellocchi et al., 2017; Bosse & Valdois, 2009; Facoetti et al., 2019; Franceschini et al., 2017, 2021; Giovagnoli et al., 2016; Gori et al., 2016). Ainsi, en plus des difficultés linguistiques déjà montrées (Arnold et al., 2018; Chaix et al., 2017), les spécificités visuelles identifiées dans la NF1 pourraient en partie expliquer ou refléter les difficultés de lecture très fréquemment rapportées dans cette maladie (Hyman et al., 2005; Orraca-Castillo et al., 2014; Watt et al., 2008). Très peu d'études se sont questionnées sur le lien entre les difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles et la forte prévalence des déficits en lecture observée dans la NF1.

Au travers de deux études transversales, nous avons examiné la fréquence de ces difficultés chez les enfants atteints de NF1 et étudié le lien avec le niveau de lecture de ces derniers. Nous nous sommes ainsi demandé si les déficits dans ces processus visuels pouvaient, au-delà des processus linguistiques, expliquer une part significative des difficultés de lecture fréquemment observées chez ces enfants.

Dans une perspective clinique, nous avons testé l'efficacité d'un outil psychométrique classiquement utilisé par les orthoptistes : le DEM-test (Garzia et al., 1990). Celui-ci fournit une mesure indirecte de l'efficience des processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels (Ayton et al., 2009; Facchin et al., 2014; Hopkins et al., 2019; Larter et al., 2004; Moiroud et al., 2018; Portnoy & Gilaie-Dotan, 2020; Raghuram et al., 2018; Tanke et al., 2021), dans une tâche mimant une situation de lecture (tâche de dénomination de chiffres en disposition horizontale). Ce test a largement démontré son intérêt dans l'évaluation des compétences de lecture, tant chez les enfants d'âge scolaire et préscolaire (Ayton et al., 2009; Larter et al., 2004; Vernet et al., 2022a) que chez les enfants présentant des difficultés d'apprentissage (Bellocchi et al., 2021; Moiroud et al., 2018; Raghuram et al., 2018). Un dernier objectif visait donc à déterminer la pertinence du DEM-test en tant qu'outil de dépistage des déficits des processus visuels impliqués dans l'échec d'apprentissage de la lecture chez les enfants atteints de NF1.

1. Étude 1 : Prévalence des difficultés perceptives, visuo-motrices et visuo-attentionnelles dans une cohorte d'enfants atteints de NF1 âgés de 6-8 ans

Cette première étude a permis d'étudier la question de la fréquence des difficultés visuo-perceptives, visuo-motrices et visuo-attentionnelles entre 6 et 8 ans, pendant la période critique d'automatisation de la lecture, et d'examiner le lien qu'elles entretiennent avec les compétences de lecture de ces enfants.

1.1. Méthode

1.1.1. Participants

Au total 16 enfants atteints de NF1 ont été inclus à l'étude transversale du projet Help Reading NF1, tous scolarisés au CP, CE1 ou CE2, âgés entre 6 ans 9 mois et 9 ans 3 mois. Parmi eux, 9 (soit 56 %) présentaient une forme familiale de la maladie et 7 (soit 44 %) une forme sporadique. Trois enfants étaient scolarisés en CP, 8 en CE1 et 5 en CE2. Les caractéristiques démographiques des enfants sont résumées dans le Tableau 7.

Tableau 7. Caractéristiques démographiques et performances aux tests psychométriques des enfants présentant une NF1 (avec ou sans difficultés de lecture).

	NF1		NF1+DL		NF1nonDL		NF1+DL vs. NF1nonDL	
Variables	M	ET	M	ET	M	ET	p	d
Démographiques								
n [a]	16	-	9	-	7	-	0.804	-
Age *(mois)*	93.37	7.82	92.71	7.48	93.89	8.49	0.777	-0.146
Sexe *(F/G)* [a]	7/9	-	2/5	-	5/4	-	0.280	-
NSE moyen *(années)*	13.37	3.47	11.86	1.49	14.56	4.16	0.127	-0.819
Test de l'Alouette								
CM *(score-Z)*	-1.04	1.70	-2.60	1.09	0.17	0.87	**< .001**	-2.861
CTL *(score-Z)*	-0.40	1.20	-1.30	0.51	0.29	1.12	**0.004**	-1.748
Module 1 Diaglect								
VT *(score-Z)*	-0.008	0.811	-0.17	1.02	0.12	0.64	0.497	-0.352
HTaj *(score-Z)*	-0.519	1.475	-1.72	1.50	0.42	0.35	**< .001**	-2.101
HE *(score-Z)*	-0.213	0.931	-0.69	1.00	0.16	0.72	0.069	-0.994
DTVP-3								
VMI *(NC)*	97	18	84	12	107	15	**0.006**	-1.624
MVP *(NC)*	100	9	93	5	105	8	**0.006**	-1.616
GVP *(NC)*	99	12	89	8	106	9	**0.002**	-1.916
Exalang								
CsPho *(score-Z)*	-0.93	1.01	-1.14	0.97	-0.78	1.07	0.496	-0.352
FlSem *(score-Z)*	-0.03	1.39	-0.79	1.48	0.56	1.03	**0.048**	-1.092

Notes. Le tableau présente les données de la totalité de la cohorte (NF1) et de chaque groupe défini par le niveau de lecture (NF1+DL et NF1nonDL). Les deux dernières colonnes présentent les résultats des t-tests réalisés pour comparer les performances des groupes NF1+DL et NF1nonDL. F : Fille ; G : Garçon ; NSE : Niveau socio-éducatif moyen des parents ; CM : précision de lecture ; CTL : vitesse de lecture ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales ; VMI : indice d'intégration visuo-motrice ; MVP : indice de perception visuelle avec implication motrice réduite ; GVP : indice de perception visuelle générale ; NC : note composite ; CsPho : conscience phonologique ; FlSem : fluences sémantiques ; Les effets significatifs apparaissent en caractères gras. [a] Des analyses de Chi-2 ont été effectuées pour les variables catégorielles.

La participation à cette étude a été proposée à tous les enfants suivis au Centre de Compétence pour la NF1 du CHU de Toulouse, répondant aux critères diagnostiques de la NF1 conformément à la déclaration de la Conférence sur la neurofibromatose (National Institutes of Health, 1988)[24] et aux critères d'inclusion et d'exclusion définis. Ils étaient tous droitiers, de langue maternelle française et présentaient une vue normale ou corrigée. Les enfants présentant une pathologie neurologique associée (e.g., épilepsie ou tumeur cérébrale), un diagnostic de déficience intellectuelle (i.e., QI total au WISC-IV inférieur à 70 et/ou note standard inférieur à 7 aux subtests Similitudes et/ou Identification de concepts), de trouble du spectre de l'autisme, de trouble déficit de l'attention avec ou sans hyperactivité[25] (i.e., présence d'au moins 6 symptômes d'hyperactivité et/ou d'inattention selon

[24] À noter que les critères diagnostiques de la NF1 se basaient sur la version définie par la déclaration de la Conférence sur la neurofibromatose (National Institutes of Health, 1988) au démarrage des différentes études, expliquant le fait que les critères récemment révisés par Legius et al. (2021) ne soient pas mentionnés dans les différentes sections présentant les critères d'inclusion des études.

[25] Il est important de noter que bien que le diagnostic de TDAH soit très fréquent chez les enfants atteints de NF1 (Hyman et al., 2005; Mautner et al., 2002; Payne et al., 2011; Roy et al., 2010), l'idée était de s'assurer que les difficultés que nous pouvions observer soient réellement dues à un déficit dans les fonctions cognitives d'intérêt et non la conséquence d'un trouble comorbide de l'attention interférant avec les tâches.

les critères de diagnostic du DSM-5), un contexte social défavorable ou prenant des traitements médicamenteux psychotropes ont été exclus de l'étude. Les consentements écrits des parents et des enfants ont été recueillis pour chaque participant inclus à l'étude.

1.1.2. Matériel

Le matériel est composé d'un ensemble de tests psychométriques évaluant respectivement les processus visuo-perceptifs, visuo-moteurs, visuo-attentionnels, de conscience phonologique, les fluences sémantiques et enfin, les compétences de lecture. Les différents tests utilisés sont décrits ci-dessous.

Niveau de lecture. Les compétences de lecture des enfants ont été évaluées à partir du test de l'Alouette (Lefavrais, 1967, 2005). Il s'agit d'un texte composé de 265 mots inclus dans des phrases syntaxiquement correctes mais sémantiquement faibles. Les enfants doivent lire à voix haute le texte aussi vite et aussi précisément que possible et sont arrêtés au bout de 3 minutes s'ils n'ont pas terminé. Ce texte contient également 12 dessins dont la représentation orthographique du mot correspondant est similaire à certains mots du texte (e.g. écueil à côté d'une image représentant un écureuil). Ceux-ci peuvent donc induire une lecture erronée des mots orthographiquement proches chez certains lecteurs qui s'appuieraient sur le contexte visuel pour faciliter la lecture. Trois mesures principales sont prises en compte dans la cotation du test : le nombre de mots lus, le temps de lecture et le nombre d'erreurs. Celles-ci permettent le calcul de 3 indices : l'âge de lecture (Lefavrais, 1967), l'indice de précision de lecture et l'indice de vitesse de lecture (Lefavrais, 2005), que nous utiliserons dans ce travail.

Processus visuo-attentionnels et de guidage oculaire. Les processus visuo-attentionnels et de guidage oculaire ont été évalués à partir du module 1 du logiciel Diaglect[26] dans sa version destinée aux enfants scolarisés en élémentaire (i.e., 7-11 ans). Il s'agit d'un module informatisé inspiré du DEM-test (Garzia et al., 1990; Richman, 2009) qui se compose de tâches de dénomination de chiffres en suivi de colonnes et de lignes. Un prétest permettant de vérifier la connaissance des chiffres est d'abord administré aux participants. Une interface permet ensuite de sélectionner les tâches à réaliser. Une première tâche consiste à dénommer deux colonnes de chiffres disposées l'une à côté de l'autre le plus rapidement et le plus précisément possible, sans suivi du doigt. Cette tâche est réalisée à deux reprises avec des chiffres variant d'un essai à l'autre. La seconde tâche consiste à dénommer des chiffres, cette fois-ci, en suivi de ligne avec des espacements inter-chiffres variables, mimant ainsi une situation de lecture. Le module permet d'obtenir trois indices principaux : (1) VT qui correspond à la somme des temps en millisecondes mis aux deux essais pour nommer les chiffres organisés verticalement ; (2) HTaj qui correspond au temps en millisecondes passé à nommer les chiffres organisés horizontalement, ajusté en fonction du nombre d'erreurs d'omission et d'addition commises[27] ; et enfin (3) HE qui correspond au nombre total d'erreurs commises en dénomination

[26] Diaglect est un logiciel visant au dépistage des difficultés de lecture sur la base d'une évaluation des processus visuels. Ce logiciel comprend deux modules : un module de première intention qui est détaillée dans cette section et un second module qui vise à caractériser la nature des troubles à partir d'une tâche basée le paradigme OVP.

[27] HTaj = temps horizontal x [80 / (80 - nombre d'erreurs d'omission + nombre d'erreurs d'addition)]

horizontale comprenant les 5 types d'erreurs possibles : erreurs d'addition, d'omission, de substitution, de transposition et de guidage oculaire.

Processus visuo-perceptifs et visuo-moteurs. Les compétences visuo-perceptives et visuo-motrices ont été évaluées à partir du DTVP-3 (i.e., *Developmental Test of Visual Perception - 3rd edition* ; Hammill et al., 2014). Cette batterie de test est composée de 5 subtests (illustrés en Annexe 1) qui permettent le calcul de 3 indices : un indice de perception visuelle générale. (i.e., *General visual perception*, GVP) et deux indices plus spécifiques : l'indice de perception visuelle avec une implication motrice réduite (i.e., *Motor-reduced visual perception*, MVP) et un indice d'intégration visuo-motrice (i.e., *Visual-motor integration*, VMI). L'indice MVP est calculé à partir des performances à 3 subtests : (1) l'épreuve de discrimination figure-fond (i.e., identifier et reconnaître des figures placées dans un fond confondu), (2) l'épreuve de complétion visuelle (i.e., associer une forme à une forme identique incomplète) et (3) l'épreuve de constance de forme (i.e., reconnaître une forme lorsque celle-ci a subi une modification de couleur, d'orientation et de taille). L'indice VMI est quant à lui basé sur deux subtests : (1) l'épreuve de coordination visuo-motrice (i.e., tracer une ligne continue entre deux contours) et (2) l'épreuve de copie (i.e., reproduire des figures selon un modèle). Pour chacun des subtests, la difficulté augmente au cours des essais et l'épreuve est arrêtée dès lors que l'enfant commet 3 erreurs consécutives. Les trois indices principaux, exprimés en notes composites, ont été utilisés pour les analyses.

Compétences de conscience phonologique. L'évaluation des processus de conscience phonologique a été réalisée à partir des versions 5-8 ans et 8-11 ans de la batterie informatisée EXALANG (Thibault et al., 2010, 2012). Deux épreuves ont été sélectionnées en fonction du niveau scolaire des enfants pour être en accord avec les normes disponibles. Les enfants scolarisés en CE1 ont passé le subtest d'inversion phonémique de la version 5-8 ans du logiciel qui consiste à inverser l'ordre de deux phonèmes constituant une syllabe. Les enfants scolarisés en CE2 ont, quant à eux, passé l'épreuve de métaphonologie de la version 8-11 ans du logiciel comprenant différentes tâches : 3 items d'appariements de phonème final (i.e., identifier l'objet parmi 3 proposés dont le nom se termine par le même phonème qu'un mot d'exemple), 3 items de suppression de phonèmes (i.e., supprimer un phonème donné par l'examinateur au sein d'un mot), 1 item de comptage de phonèmes (i.e., compter le nombre de phonèmes composant un mot), 2 items de remplacement de phonèmes (i.e., remplacer le phonème initial d'un mot par un phonème donné par l'examinateur) et 2 items d'inversion de phonèmes (i.e., inverser les deux phonèmes initiaux d'un mot). Le nombre d'items corrects a été comptabilisé quelle que soit la version du logiciel.

Accès aux connaissances lexicales. L'évaluation des connaissances lexicales et de l'accès à celles-ci a été menée à partir des épreuves de fluences sémantiques des versions 5-8 ans et 8-11 ans de la batterie informatisée EXALANG (Thibault et al., 2010, 2012). Tout comme pour la conscience phonologique, les enfants scolarisés en CP et CE1 ont passé la version 5-8 ans du subtest dans laquelle ils devaient nommer un maximum de mots appartenant à la catégorie sémantique aliment et boisson durant 1 minute. Les enfants scolarisés en CE2 ont fait la même tâche avec la version 8-11 ans mais cette-fois ci avec deux catégories sémantiques différentes (i.e., 2 fois 1 minute) : la catégorie des animaux et celle des métiers. Le nombre de mots correctement évoqués dans le temps imparti a été mesuré quelle que soit la version du logiciel.

1.1.3. Procédure

Les participants ont été recrutés au sein du centre hospitalier universitaire Purpan de Toulouse. Chaque enfant a été vu individuellement au Centre d'évaluation des troubles du langage et des difficultés d'apprentissage chez l'enfant (*CRTLA*) au cours d'une journée. Dans le cadre du protocole, les enfants bénéficiaient d'un examen médical pour la vérification des critères d'inclusions. La journée était, si possible, organisée en fonction de la consultation neuropédiatrique annuelle de suivi des enfants. Un premier bilan neuropsychologique d'environ une heure et demie était ensuite réalisé afin de vérifier les autres critères d'inclusion comprenant un entretien avec la famille, deux questionnaires (i.e., inventaire des symptômes du TDAH CADDRA et inventaire de latéralité manuelle d'Edinburgh), deux épreuves de raisonnement verbal et perceptif (i.e., subtests *Identification de concepts* et *Similitudes* de la WISC-IV). Les premiers tests psychométriques, notamment EXALANG et le DTVP-3, ont également été réalisés lors de ce premier bilan. Après une longue pause, un second bilan neuropsychologique d'environ une heure était réalisé afin d'administrer les autres tests psychométriques (module 1 de Diaglect et test de l'Alouette). Les enfants ont effectué les bilans dans une pièce calme et dont la luminosité a été adaptée en fonction du support des différentes tâches (i.e., papier ou numérique). À la suite de leur participation, un compte-rendu des bilans neuropsychologiques a été envoyé aux familles pour le suivi des enfants.

1.1.4. Analyses statistiques

Les analyses statistiques ont été réalisées à l'aide des logiciels JASP et GraphPad. Des tests de normalité (test de Shapiro-Wilk) et d'homogénéité des variances (test de Levene) ont montré, pour l'ensemble des variables, le respect de ces deux conditions[28] permettant l'utilisation de tests paramétriques. Les analyses ont été effectuées à partir des scores standardisés (i.e., scores-Z ou notes composites) calculés sur la base des normes d'âges ou de niveaux scolaires disponibles pour chaque test. À noter que les scores-Z des variables de temps et d'erreurs ont été modifiés de sorte qu'une valeur négative représente toujours une plus faible performance qu'un score positif. Des corrélations de Pearson ont été conduites pour étudier le lien que les performances visuo-perceptives et visuo-attentionnelles entretiennent avec les compétences de lecture. Des analyses de régression linéaire multiple pas à pas ont ensuite été effectuées, prenant en compte les variables indépendantes qui entretiennent une corrélation significative avec le niveau de lecture, afin d'identifier le modèle qui explique le mieux sa variabilité. L'effectif a ensuite été réparti en deux groupes afin de dissocier les enfants NF1 présentant des difficultés de lecture des lecteurs typiques. Des t-tests ont été réalisés pour comparer les performances entre les groupes aux différents tests et des analyses de Chi-2 ont permis d'étudier les différences dans la fréquence des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles en fonction du groupe. Pour toutes les analyses relatives à la fréquence des difficultés, deux seuils ont été étudiés : il a été considéré qu'un score pouvait refléter un déficit dans la compétence évaluée lorsqu'il était inférieur à -1.5 DS et qu'il pouvait refléter une fragilité lorsqu'il était inférieur à -1 DS. Pour l'ensemble des tests statistiques réalisés, le seuil de significativité a été fixé à $p = .05$.

[28] Plus précisément, les hypothèses de normalité des distributions et d'homogénéité des variances n'ont pas pu être exclus (toutes les valeurs de $p > .05$).

1.2. Résultats

1.2.1. Fréquence des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles dans notre cohorte d'enfants NF1 (6-8 ans)

Parmi les 16 enfants recrutés dans l'étude, 3 (18.75 %) présentent au moins un score inférieur à -1.5 DS et 8 (50 %) obtiennent au moins un score inférieur à -1 DS aux épreuves évaluant les processus visuo-perceptifs, visuo-moteurs et visuo-attentionnels. Le nombre d'enfants présentant des performances dans la moyenne ou inférieures au niveau attendu est détaillé dans le Tableau 8 pour chaque indice. À noter que les profils de performances sont variables entre les enfants.

Tableau 8. Répartition des performances perceptives et visuo-attentionnelles chez les enfants avec une NF1.

Variables	≥ -1 DS n (%)	< -1 DS n (%)	< -1.5 DS n (%)
VMI [a]	10 (62.50)	6 (37.50)	2 (12.50)
MVP [a]	16 (100.00)	0 (0.00)	0 (0.00)
GVP [a]	13 (84.25)	3 (18.75)	0 (0.00)
VT	15 (93.75)	1 (6.25)	1 (6.25)
HTaj	10 (62.50)	6 (37.50)	2 (12.50)
HE	14 (87.50)	2 (12.50)	1 (6.25)

Notes. VMI : indice d'intégration visuo-motrice ; MVP : indice de perception visuelle avec implication motrice réduite ; GVP : indice de perception visuelle générale ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales. [a] seuils calculés à partir des notes composites avec pour moyenne 100 et écart-type 15.

1.2.2. Lien entre les compétences en lecture et les processus visuels et linguistiques

Analyses de corrélations. La précision et la vitesse de lecture ainsi que les variables linguistiques ont été inclues aux analyses de corrélation. Celles-ci révèlent que la précision de lecture est significativement corrélée aux indices VMI [$r(14) = .82$, $p = .005$], MVP [$r(14) = .84$, $p < .001$], GVP [$r(14) = .91$, $p < .001$], HTaj [$r(14) = .58$, $p = .019$] et de fluences sémantiques [$r(14) = .66$, $p = .005$]. Ainsi, moins un enfant est précis en lecture, moins bonnes sont ses performances en intégration visuo-motrice, en perception visuelle, en suivi de lignes et en fluences sémantiques. Concernant la vitesse de lecture, des résultats similaires sont observés. L'indice CTL est significativement corrélé aux indices VMI [$r(14) = .67$, $p = .005$], MVP [$r(14) = .73$, $p = .001$], GVP [$r(14) = .76$, $p < .001$], HE [$r(14) = .57$, $p = .021$] et de fluences sémantiques [$r(14) = .74$, $p < .001$]. Une corrélation tendancielle est également obtenue entre la vitesse de lecture et l'indice HTaj du module 1 de Diaglect [$r(14) = .47$, $p = .069$]. Les indices VT et de conscience phonologique ne sont pas significativement corrélés à la vitesse de lecture (tous les $p > .10$) Les résultats montrent donc que moins un enfant est rapide en lecture, moins il manifeste de bonnes compétences dans les processus d'intégration visuo-motrice, de perception visuelle, de suivi de lignes et de fluences sémantiques. Notez que les variable GVP et HTaj entretiennent également un lien significatif [$r(14) = .37$, $p = .005$].

Analyses de régressions linéaires multiples. Les analyses de régression linéaire prennent en compte les variables indépendantes qui entretiennent une corrélation significative avec la vitesse et la

précision de lecture. En raison des très fortes corrélations entretenues entre les 3 indices du DTVP-3[29], parmi eux seul l'indice général GVP a été sélectionné pour les analyses.

Les analyses montrent que le modèle qui explique le mieux la variabilité de la précision de lecture prend en compte les variables GVP (ß = .11, p < .001) et de fluences sémantiques (ß = .31, p < .05). Ce modèle explique 87.5 % de la variabilité de la précision de lecture de l'échantillon [(R^2 = .87) ; F(2,15) = 45.48, p < .001]. Les analyses attestent que la multi-colinéarité entre les variables ne constitue pas une limite pour les analyses effectuées (GVP, tolérance = 0.72, VIF = 1.39 ; Fluences sémantiques, tolérance = 0.72, VIF = 1.39).

Concernant la vitesse de lecture, le modèle qui explique le mieux la variance prend en compte les mêmes variables : GVP (ß = .05, p < .01) et fluences sémantiques (ß = .41, p < .05). Ce modèle explique 74.5 % de la variabilité du la vitesse de lecture de l'échantillon [(R^2 = .74) ; F(2,15) = 18.94, p < .001]. Les analyses de multi-colinéarité sont identiques à celles précédemment présentées et révèlent que la colinéarité entre les variables ne constitue pas une limite pour les analyses effectuées (GVP, tolérance = 0.72, VIF = 1.39 ; Fluences sémantiques, tolérance = 0.72, VIF = 1.39).

1.2.3. Impact d'un déficit en lecture sur les processus visuels et linguistiques

Pour les analyses suivantes, l'échantillon de participants a été divisé en deux groupes afin de dissocier les enfants NF1 présentant des difficultés de lecture (i.e., NF1+DL) et ceux présentant des performances de lecture dans la moyenne (i.e., NF1nonDL). L'idée était de déterminer si les difficultés observées dans les processus visuels sont spécifiques aux enfants NF1 présentant des difficultés de lecture. Si au moins un des deux indices de lecture (i.e., CM ou CTL) est inférieur au seuil -1.5 DS, alors l'enfant est inclus dans le groupe NF1+DL.

Les performances des enfants des deux groupes sont détaillées dans le Tableau 7. Le groupe NF1+DL est composé de 7 enfants (43.75 % des enfants). Les analyses ne révèlent pas de différences significatives entre les groupes que ce soit en termes d'âge, de sexe ou de niveau socio-éducatif.

Les résultats des t-tests montrent que les enfants présentant une NF1 associée à des difficultés de lecture obtiennent des performances significativement plus faibles en intégration visuo-motrice et en perception visuelle (i.e., VMI, MVP et GVP) que les bons lecteurs. De même, le temps de dénomination en suivi de lignes (HTaj) est plus important chez ceux qui manifestent des difficultés de lecture par rapport aux lecteurs typiques. En revanche, les indices VT et HE ne diffèrent pas significativement entre les groupes. Sur le plan linguistique, le groupe NF1+DL évoque un nombre plus réduit de mots que le groupe NF1nonDL à l'épreuve des fluences sémantiques. En revanche, aucune différence significative n'est mise en évidence à l'épreuve de conscience phonologique.

Sur l'ensemble de l'échantillon, 19 % des enfants présentaient à la fois un déficit en lecture et des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles. La répartition des performances par groupe pour chaque indice d'intérêt est présentée dans la Figure 7. Les analyses de Chi-2 révèlent que la répartition des performances est différente entre les groupes pour les indices VMI [$\chi 2$ = 6.45, p = .040], GVP [$\chi 2$ = 4.75, p = .029] et HTaj [$\chi 2$ = 12.34, p = .002], témoignant d'un plus grand nombre d'enfants en

[29] Corrélations entre GVP et MVP [r(14) = .88, p < .001], GVP et VMI [r(14) = .93, p < .001], et MVP et VMI [r(14) = .66, p = .005].

difficulté dans le groupe NF1+DL que NF1nonDL. En revanche, la répartition des performances pour les autres indices impliquant les processus visuels (MVP, VT et HE) ainsi que pour les indices impliquant les processus linguistiques (conscience phonologique et fluences sémantiques) n'est pas significativement différente entre les groupes (toutes les valeurs de $p > .05$).

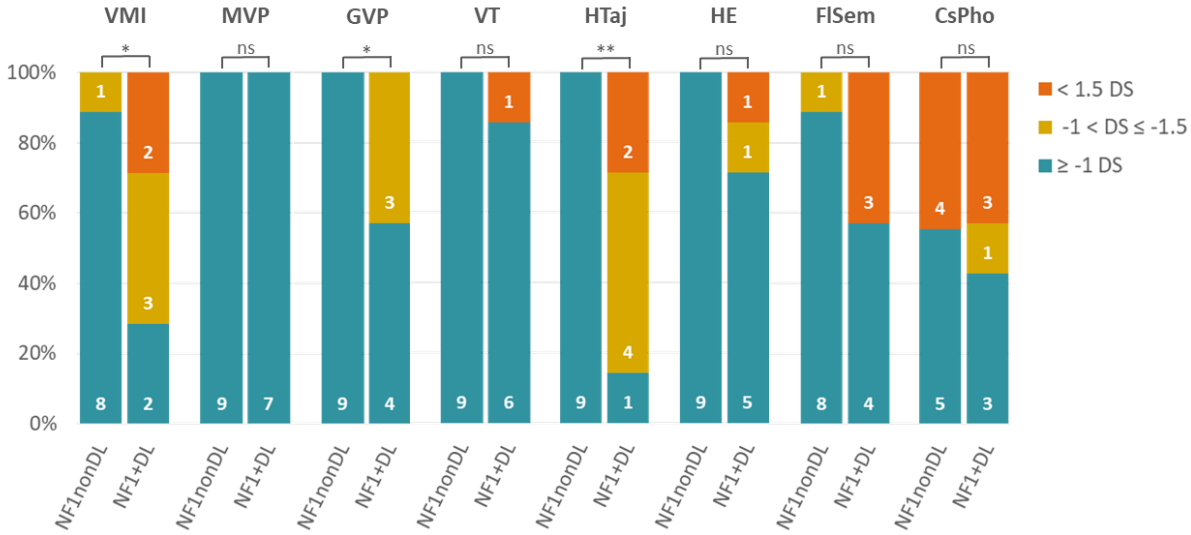


Figure 7. Fréquence des difficultés dans les processus visuels et linguistiques évalués en fonction de la présence ou non de difficultés de lecture.

Notes. NF1nonDL : enfants présentant une NF1 sans déficit en lecture ; NF1+DL : enfants présentant une NF1 avec un déficit en lecture ; VMI : indice d'intégration visuo-motrice ; MVP : indice de perception visuelle avec implication motrice réduite ; GVP : indice de perception visuelle générale ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales ; FlSem : fluences sémantiques ; CsPho : conscience phonologique. ns p>.05 ; * p<.05 ; ** p<.01 ; *** p<.001.

1.3. Synthèse des résultats et discussion intermédiaire

Les résultats cette première étude ont permis de montrer que près de 1 enfant sur 5 dans notre cohorte d'enfants atteints de NF1, âgés de 6 à 8 ans, présentaient au moins un score déficitaire dans un des processus visuels évalués. Bien que cette fréquence ne soit pas très élevée, près de la moitié des enfants ont tout de même obtenu au moins un score dans la moyenne faible. Les difficultés les plus fréquemment observées concernaient les processus d'intégration visuo-motrice (voir également Casnar et al., 2014; Descheemaeker et al., 2005; Dilts et al., 1996; Hyman et al., 2005; Vaucheret Paz et al., 2019, pour des résultats allant dans le même sens) et de balayage attentionnel en suivi de lignes (particulièrement impliqué en lecture).

Nous avons également montré que 44 % des enfants de l'échantillon présentaient un déficit en lecture, proportion cohérente avec celle rapportée dans la littérature (environ 50 % ; Chaix et al., 2017; Orraca-Castillo et al., 2014; Watt et al., 2008). Lorsque l'on s'intéresse à l'efficience des processus visuels entre les lecteurs typiques et ceux présentant un déficit, la fréquence des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles (notamment aux indices VMI, GVP et HTaj) est apparue significativement plus élevée chez les enfants qui présentaient un déficit en lecture. Ce résultat est à

mettre en lien avec les corrélations significatives retrouvées entre ces processus visuels et le niveau de lecture des enfants atteints de NF1.

La mise en évidence d'un lien entre les processus visuels et les compétences de lecture est confirmée par les analyses de régression linéaire, dans lesquelles les indices de perception visuelle générale et de fluences sémantiques constituaient les facteurs expliquant le mieux le niveau de lecture des enfants, que ce soit pour la vitesse ou la précision de lecture. Malgré la forte corrélation entre HTaj et le niveau de lecture, cette variable n'était pas incluse dans le modèle. Cela peut en partie s'expliquer par le lien significatif qu'elle entretient avec la variable GVP et ainsi, la potentielle colinéarité entre elles. Par ailleurs, l'implication des compétences d'évocation lexicale est particulièrement intéressante, dans la mesure où cela suggère que, malgré les résultats de la littérature ne révélant aucune différence significative entre les enfants NF1 et ceux au développement typique (Hyman et al., 2005; Mazzocco et al., 1995; Remigereau et al., 2018; Roy et al., 2014; Watt et al., 2008), des différences sont apparues au sein du groupe NF1 lorsque le niveau de lecture a été pris en compte. Ce résultat est en accord avec ceux observés chez les enfants présentant une dyslexie développementale (e.g., Memisevic et al., 2019; Reiter et al., 2005; Shareef et al., 2019; Varvara et al., 2014; pour des résultats contradictoires, voir Frith et al., 1995; Landerl et al., 2009). En revanche, il est très surprenant que les processus de conscience phonologique connus pour être impliqués dans la lecture (e.g., Carroll et al., 2003; Piquard-Kipffer & Sprenger-Charolles, 2013) ne soient ni corrélés au niveau de lecture des enfants, ni différents entre les enfants NF1 avec et sans déficit en lecture. Il est fort probable que l'outil d'évaluation choisi ne soit pas suffisamment sensible pour voir apparaître des résultats significatifs. En effet, les épreuves ne sont pas les mêmes pour les CP/CE1 (i.e., inversion de phonèmes) et les CE2 (i.e., plusieurs épreuves de conscience phonémique). Or comme le montrent Chaix et al. (2017), la sensibilité n'est pas nécessairement la même en fonction du type d'évaluation phonologique.

Finalement, cette première étude a permis de mettre en évidence la relation existante entre les processus visuo-perceptifs, visuo-moteurs et visuo-attentionnels et les compétences de lecture chez les jeunes enfants NF1, lors de la phase critique d'automatisation de la lecture.

2. Étude 2 : Prévalence des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles dans une cohorte d'enfants atteints de NF1 âgés de 8-12 ans

Cette seconde étude a permis d'examiner la question de la fréquence des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles auprès d'une large cohorte d'enfants atteints de NF1, âgés de 8 à 12 ans, en comparaison à un groupe d'enfants contrôles au développement typique de même âge chronologique. Les processifs perceptifs et visuo-attentionnels ont été évalués par le biais du DEM-test, du JLO (évaluant les processus de perception visuo-spatiale) et d'EVADYS (mesurant la taille de l'empan visuo-attentionnel). À la lumière des résultats de la section précédente, nous avons également examiné le lien entre l'efficience de ces processus visuels et les compétences en lecture

chez les enfants présentant une NF1 et cherché à confirmer l'efficacité du DEM-test en tant qu'outil clinique de dépistage.

2.1. Méthode

2.1.1. Participants

Au total 42 enfants atteints de NF1 ont été inclus dans la cohorte DYSTAC-MAP. La participation à cette recherche a été proposée à tous les enfants répondant aux critères cliniques du diagnostic de la NF1 conformément à la déclaration de la Conférence sur la neurofibromatose (National Institutes of Health, 1988) et aux critères d'inclusion et d'exclusion définis pour l'étude. Les enfants présentant une NF1 ont été comparés à 42 enfants au développement typique (DT). Les caractéristiques démographiques des deux groupes sont résumées dans le Tableau 9. Les enfants étaient tous âgés de 8 à 12 ans et scolarisés du CE1 à la 6ème. Ils étaient droitiers, de langue maternelle française et présentaient une vue normale ou corrigée. À noter qu'aucune différence significative n'a été observée entre les groupes que ce soit pour âge ou le sexe. Les enfants présentant (1) une pathologie neurologique associée (e.g., épilepsie ou tumeur cérébrale), (2) un diagnostic de déficience intellectuelle (i.e., QI total au WISC-IV ou WISC-V inférieur à 70 et/ou score standard inférieur à 7 aux subtests Similitudes et/ou Identification de concepts), (3) un diagnostic de trouble déficit de l'attention avec ou sans hyperactivité (i.e., présence d'au moins 6 symptômes d'hyperactivité et/ou d'inattention selon les critères de diagnostic du DSM-5)[25], (4) un diagnostic de trouble du spectre de l'autisme, (5) un contexte social défavorable ou (6) prenant des traitements médicamenteux psychotropes ont été exclus de l'étude. Les consentements écrits des parents et des enfants ont été recueillis pour chaque participant inclus à l'étude.

Pour le groupe contrôle, le niveau de lecture a été contrôlé afin de n'inclure que des enfants ayant un développement de lecture typique (i.e., scores au moins supérieurs à -0,5 DS au test de l'Alouette (Lefavrais, 2005) et au test ODEDYS-2 ("Outil de dépistage des dyslexies" ; Jacquier-Roux et al., 2005).

2.1.2. Matériel

Le matériel est composé d'un ensemble de tests psychométriques évaluant respectivement les processus visuo-spatiaux, visuo-attentionnels, de guidage oculaire, de conscience phonologique et enfin, les compétences de lecture. Les différents tests utilisés sont décrits ci-dessous.

Niveau de lecture. Les compétences de lecture ont été évaluées à partir du test de l'Alouette (voir section 1.1.2 Matériel de ce chapitre).

Processus visuo-spatiaux. Les processus de perception visuo-spatiale ont été évalués à partir du test de Jugement d'Orientation de Lignes (JLO ; Benton, 1978). Dans cette tâche, l'enfant doit faire correspondre l'orientation de deux lignes parmi un ensemble de 11 lignes d'orientation différentes (disposées à 18° d'intervalle selon un éventail allant de 0° à 180° ; voir Annexe 2 pour des items d'exemples). Le test comprend 5 essais d'entraînement et 30 essais tests. La disposition et l'orientation entre les deux lignes cibles sont différentes pour chaque essai. Dans cette tâche, le nombre d'essais

corrects est mesuré. À noter qu'une réponse est considérée comme correcte à condition que l'orientation des deux lignes cibles soit correctement identifiée.

Processus visuo-attentionnels.

La taille de l'empan visuo-attentionnel a été est évaluée à partir du logiciel EVADYS (Valdois, Guinet, et al., 2014) permettant de mesurer l'empan visuo-attentionnel par le biais de 2 épreuves principales[30] : le report global de lettres et le report partiel de lettres. Avant chaque épreuve une phase d'entraînement est administrée. Dans la *tâche de report global*, le sujet doit nommer un maximum de lettres vues parmi une séquence de 5 lettres présentées sur la ligne centrale durant 200 ms. Au total, 20 essais de 5 lettres sont présentés de sorte que chaque lettre soit présentée 2 fois à chaque position et qu'une série ne contienne pas deux fois la même lettre. Le nombre de lettres correctement identifiées pour chaque position est mesuré. La tâche de *report partiel de lettres* consiste à dénommer une lettre indicée parmi une séquence de 5 lettres présentée sur la ligne centrale durant 200 ms. L'indice visuel indiquant la position de la lettre à dénommer apparait ensuite durant 50 ms. Au total, 50 essais de 5 lettres sont présentés de sorte que chaque lettre soit présentée 5 fois à chaque position. Le nombre de lettres correctement identifiées en fonction des positions indicées est mesuré. Trois mesures sont prises en compte à ce test, la taille de l'empan visuo-attentionnel global (EVAglobal), partiel (EVApartiel) et composite (EVAcomposite) qui correspond à la moyenne des scores du report global et du report partiel.

Les processus visuo-attentionnels et de « guidage oculaire » ont été évalués à partir du DEM- test (*Developmental Eye Movement test* ; Garzia et al., 1990; Richman, 2009) qui se compose de tâches de dénomination de chiffres en suivi de colonnes et de lignes, imprimées sur quatre planches différentes : (1) une planche de pré-test (ligne horizontale de dix chiffres) pour s'assurer que l'enfant a bien les prérequis en terme de connaissance des chiffres nécessaires pour les tâches suivantes, (2) deux planches de tests de suivi de colonnes (chacune avec de deux colonnes verticales de vingt chiffres), et (3) une planche de test de suivi de lignes qui simule une situation de lecture (seize lignes de cinq chiffres irrégulièrement espacés). Des illustrations des planches de test sont proposées en Annexe 3. Les enfants devaient dénommer les chiffres, aussi rapidement et précisément que possible. Le DEM-test fournit quatre indices principaux : (1) le temps vertical en secondes (VT); (2) le temps horizontal ajusté en secondes (HTaj)[31] ; (3) le nombre total d'erreurs (HE) commises en dénomination horizontale (somme des 4 types d'erreurs possibles : addition, omission, substitution et transposition) ; et enfin (4) le rapport entre les indices VT et HTaj (Ratio) calculé à partir de la formule suivante : R = HT/VT. Notez que la validité du ratio a été fortement remise en cause dans la littérature (Ayton et al., 2009; Webber et al., 2011), nous avons donc choisi d'exclure cet indice de nos analyses. Par ailleurs, conformément au manuel du test, le nombre total d'erreurs aux deux planches de tests verticaux n'a pas été utilisé, étant quasi nul.

Compétences de conscience phonologique. L'évaluation des processus de conscience phonologique a été réalisée à partir de la batterie de test ODEDYS-2 (Jacquier-Roux et al., 2005).

[30] Une tâche de contrôle de seuil d'identification de lettres est également administrée afin d'exclure les difficultés d'identification de lettres isolées.

[31] HTaj = temps horizontal x [80 / (80 - nombre d'erreurs d'omission + nombre d'erreurs d'addition)]

Trois subtests de cette batterie ont été administrés : le subtest suppression du phonème initial, le subtest fusion de phonèmes et le subtest répétition de logatomes. L'épreuve de *suppression du phonème initial*, composée de 10 essais, consiste à énoncer le mot produit après suppression du premier phonème du mot donné par l'examinateur. L'épreuve de *fusion de phonèmes* également, composée de 10 essais, consiste quant à elle à énoncer la syllabe produite à partir des phonèmes initiaux de deux mots énoncés par l'examinateur). Enfin, l'épreuve de *répétition de logatomes* (ou pseudo-mots), composée de 20 essais, consiste à répéter à l'identique des pseudo-mots énoncés un à un par l'examinateur. Le nombre de bonnes réponses est comptabilisé pour chacun des subtests.

2.1.3. Procédure

Les participants ont été recrutés dans les centres hospitaliers de la Timone à Marseille, d'Aix-en-Provence et de Toulouse. Chaque enfant a été vu individuellement à l'hôpital et dans les laboratoires de recherches associés au projet (i.e., Laboratoire Parole et Langage d'Aix-en-Provence et Toulouse NeuroImaging Center). Dans le cadre du protocole, un examen médical ainsi qu'un bilan neuropsychologique d'une durée d'environ 1h30 ont été réalisés à l'hôpital pour vérifier le respect des critères d'inclusion. L'évaluation du niveau de lecture a été menée durant le bilan d'inclusion puisqu'il constituait l'un des critères d'inclusion du groupe contrôle. Un second bilan neuropsychologique, d'environ 1h30 également, a ensuite été réalisé afin d'administrer les tests psychométriques incluant l'évaluation des processus visuels et des compétences de conscience phonologique. Les enfants ont effectué les bilans dans une pièce calme et dont la luminosité a été adaptée en fonction du support des différentes tâches (i.e., papier ou numérique).

2.1.4. Analyses statistiques

Les analyses statistiques ont été réalisées à l'aide des logiciels JASP, R et GraphPad. Des tests non-paramétriques ont été utilisés en raison du non-respect des règles d'application des tests paramétriques, c'est-à-dire une distribution des données suivant une loi normale (évaluée à partir du test de Shapiro-Wilk) et une homogénéité des variances (évaluée à partir du test de Levene). Pour les analyses, les scores-Z des variables de temps et d'erreurs ont été modifiés de sorte qu'une valeur négative représente toujours une plus faible performance qu'un score positif. Des tests de Chi-2 ont permis d'étudier les différences dans la répartition des performances et notamment, de la fréquence des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles en fonction du groupe. Des tests de Mann-Whitney U ont également permis d'évaluer les différences de performances moyennes entre les groupes. Ces analyses (i.e., Chi-2 et test de Mann-Whitney U) ont toutes deux étés effectuées dans un premier temps pour comparer les groupes NF1 et DT puis les groupes NF1 avec et sans déficit en lecture (i.e., NF1+DL et NF1nonDL). Pour la comparaison des groupes NF1 et DT, malgré la non-normalité des données, nous avons réalisé des ANCOVAs afin de vérifier le potentiel effet du niveau socio-éducatif et du raisonnement verbal (évalué par le subtest similitudes) qui se sont révélés significativement différents entre ces groupes. Des corrélations de Spearman ont aussi été menées pour étudier le lien que les performances visuo-perceptives et visuo-attentionnelles entretiennent avec les compétences de lecture. Enfin des analyses complémentaires de courbes ROC portant sur le DEM-test ont été réalisées afin d'étudier son intérêt clinique. Pour toutes les analyses relatives à la proportion d'enfants présentant des difficultés, deux seuils ont été étudiés : il a été considéré qu'un score pouvait

refléter un déficit dans la compétence évaluée lorsqu'il était inférieur à -1.5 DS et qu'il pouvait refléter une fragilité lorsqu'il était inférieur à -1 DS. Pour l'ensemble des tests statistiques réalisés, le seuil de significativité a été fixé à p = .05.

2.2. Résultats

2.2.1. Performances des enfants NF1 et DT aux tâches évaluant les processus visuels

Les scores moyens aux tests psychométriques pour les deux groupes d'enfants sont présentés dans le Tableau 9. Les enfants atteints de NF1 présentent des performances significativement plus faibles que les enfants au développement typique pour les indices HTaj, HE, EVAglobal, EVApartiel et EVAcomposite, avec des tailles d'effet modérées. Le groupe d'enfants NF1 manifeste donc des performances plus faibles en dénomination en suivi de lignes et un empan visuo-attentionnel plus réduit que le groupe contrôle. En revanche, aucune différence significative n'a été observée pour l'indice VT.

Les ANCOVAs ont révélé que l'ensemble des différences observées dans les processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels restent significatives après l'inclusion des deux covariables (niveau socio-éducatif et raisonnement verbal) dans le modèle (toutes les valeurs de $p < .05$). Ces résultats sont précisés dans le Tableau 9.

2.2.2. Fréquence des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles dans nos cohortes d'enfants NF1 et DT âgés de 8-12 ans

La fréquence des difficultés dans les processus visuels chez les enfants atteints de NF1 est détaillée dans le Tableau 9. Les résultats montrent que 31 enfants avec une NF1 (73.81 %) obtiennent au moins un score inférieur à -1.5 DS aux épreuves évaluant les processus visuels alors que cela ne concerne que 16 enfants au développement typique (38.10 %). Même si ce résultat est à nuancer au regard du nombre important de variables prises en compte (7 variables), cette différence est apparue significative entre les groupes [$\chi2 = 10.87$, $p < .001$]. Plus précisément, la fréquence des difficultés au JLO concerne 11 enfants atteints de NF1 (26.19 %) alors qu'aucun enfant au développement typique ne manifeste de difficultés à cette épreuve. Cette différence est également significative [$\chi2 = 12.66$, $p < .001$]. Les déficits d'empan visuo-attentionnel (EVA composite) concernent 9 enfants atteints de NF1 (21.43 %) et 3 enfants contrôles (7.14 %) mais la différence entre les groupes est seulement tendancielle [$\chi2 = 3.50$, $p = .061$]. Plus précisément, aucune différence significative entre les groupes n'est mise en évidence pour l'EVA global ($p > .10$) contrairement à l'EVA partiel pour lequel aucun enfant contrôle ne manifeste de difficultés [$\chi2 = 6.462$, $p = .011$]. Finalement, les résultats au DEM-test révèlent que 28 enfants présentant une NF1 (66.66 %) avaient au moins un score inférieur à -1.5 DS par rapport au groupe contrôle avec 13 enfants (30.95 %). Dix enfants du groupe NF1 et 7 enfants du groupe contrôle avaient un score inférieur à -1.5 DS à l'indice VT, 20 enfants du groupe NF1 et 3 enfants du groupe contrôle à l'indice HTaj, et enfin, 13 enfants du groupe NF1 et 6 enfants du groupe contrôle sur l'indice HE. La différence entre les groupes dans la proportion d'enfants

présentant un déficit est significative pour l'indice HTaj [$\chi 2 = 17.3$, $p < .001$] mais pas pour les indices VT et HE (toutes les valeurs de $p > .05$).

Tableau 9. Caractéristiques démographiques et performances aux tests psychométriques des enfants présentant une NF1 en comparaison aux enfants au développement typique.

	NF1	DT			NF1	
Variables	M (ET)	M (ET)	p	Taille d'effet *(rb)*	< -1 DS *n (%)*	< -1.5 DS *n (%)*
Démographiques						
n [a]	42	42	1.000	-	-	-
Age *(mois)*	117.02 (17.95)	119.95 (13.70)	0.354	0.118	-	-
Sexe *(F/G)* [a]	20/22	26/16	0.188	-	-	-
NSE moyen *(années)*	13.19 (2.22)	15.31 (2.85)	**< .001**	0.443	-	-
WISC-IV						
SIM *(NS)*	11.79 (3.15)	14.52 (3.14)	**< .001**	0.464	-	-
IdC *(NS)*	10.36 (2.63)	10.48 (1.98)	0.623	0.062	-	-
DEM-test						
VT *(score-Z)*	-0.85 (1.42)	-0.31 (1.15)	0.108	0.204	19 (45.24)	10 (23.81)
HTaj *(score-Z)*	-2.09 (2.62)	-0.43 (1.15)	**< .001** [b, c]	0.447	25 (59.52)	20 (47.62)
HE *(score-Z)*	-1.27 (2.00)	-0.08 (1.00)	**0.003** [b, c]	0.373	18 (42.86)	13 (30.95)
JLO	-0.74 (1.00)	0.59 (0.69)	**< .001** [b, c]	0.71	17 (40.47)	11 (26.19)
EVADYS						
EVAglobal	3.67 (0.67)	4.34 (0.65)	**< .001** [b, c]	0.523	14 (33.33)	9 (21.43)
EVApartiel	3.97 (0.87)	4.61 (0.35)	**< .001** [b, c]	0.531	10 (23.81)	6 (14.29)
EVAcomposite	3.82 (0.69)	4.48 (0.42)	**< .001** [b, c]	0.596	13 (30.95)	9 (21.43)
ODEDYS-2						
SupPho *(score-Z)*	-0.28 (1.14)	0.36 (0.90)	**0.006** [b]	0.345	14 (33.33)	9 (21.43)
FusPho *(score-Z)*	-0.53 (1.26)	0.31 (0.95)	**< .001** [b, c]	0.456	12 (28.57)	9 (21.43)
RepLog *(score-Z)*	0.03 (0.97)	0.36 (0.57)	0.051	0.244	5 (11.90)	2 (4.76)

Notes. NF1 : enfants présentant une neurofibromatose de type 1 ; DT : enfants au développement typique ; F : Fille ; G : Garçon ; NSE : Niveau socio-éducatif moyen des parents ; SIM : subtest similitudes ; IdC : subtest identification de concepts ; NS : note standard ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales ; JLO : jugement d'orientation de lignes ; EVA : empan visuo-attentionnel ; SupPho : suppression de phonèmes ; FusPho : fusion de phonèmes ; RepLog : répétition de logatomes ; Les effets significatifs apparaissent en caractères gras ; [a] Des analyses de Chi-2 ont été effectuées pour les variables catégorielles ; [b] Les différences restent significatives avec le NSE comme covariable ; [c] Les différences restent significatives avec les performances du subtest similitude comme covariable.

2.2.3. Lien entre les compétences en lecture et les processus visuels et linguistiques dans notre cohorte d'enfants NF1 âgés de 8-12 ans

La précision et la vitesse de lecture ainsi que les variables linguistiques ont été incluses aux analyses de corrélation, afin de comprendre le lien qu'elles entretiennent avec le niveau de lecture des enfants.

Précision de lecture. Les analyses de corrélation révèlent que la précision de lecture est significativement corrélée aux performances obtenues au JLO [$r_s(40) = .33$, $p = .030$], à l'EVA global [$r_s(40) = .38$, $p = .012$], à l'EVA composite [$r_s\ (40) = .34$, $p = .030$], à l'indice HTaj [$r_s(40) = .37$,

p = .016], à l'indice HE [$r_s(40) = .37$, p = .016]. Ainsi, de faibles performances en suivi de lignes, en perception d'orientation spatiale ainsi qu'un empan visuo-attentionnel réduit sont associés à une faible précision de lecture. Les compétences phonologiques sont également significativement associées à la précision en lecture notamment l'indice de suppression de phonèmes [$r_s(40) = .46$, p = .002] et de répétition de logatomes [$r_s(40) = .37$, p = .015]. À noter, les indices VT, EVApartiel et l'indice de fusion de phonèmes ne sont pas corrélés significativement à la précision de lecture (p > .05).

Vitesse de lecture. Les analyses montrent que la vitesse de lecture est significativement corrélée aux performances obtenues aux indices HTaj [$r_s(40) = .58$, p < .001] et HE [$r_s(40) = .32$, p = .041] du DEM-test. Ainsi, moins un enfant est rapide et précis en dénomination de chiffres en suivi de lignes, moins sa lecture est fluente. Une corrélation tendancielle est également observée entre la vitesse de lecture et la taille de l'empan visuo-attentionnel global [$r_s(40) = .30$, p = .055]. Les corrélations avec indices VT, EVApartiel, EVAcomposite et les performances au JLO n'atteignent pas le seuil de significativité (toutes les valeurs de $p > .05$). Sur le plan langagier, seul l'indice de suppression de phonèmes est corrélé avec la vitesse de lecture [$r_s(40) = .37$, p = .017]. Les performances en fusion de phonèmes et en répétition de logatomes ne sont pas significativement corrélées à la vitesse de lecture (p > .05).

2.2.4. Performances des enfants NF1 de notre cohorte en fonction de la présence ou non d'un déficit en lecture associé

Pour les analyses suivantes, le groupe d'enfants ayant une NF1 a été divisé en deux sous-groupes afin de dissocier les enfants présentant des difficultés de lecture (i.e., NF1+DL) de ceux présentant des performances de lecture dans la moyenne (i.e., NF1nonDL). L'idée est de déterminer si les difficultés observées dans les processus visuels sont spécifiques aux enfants NF1 présentant des difficultés de lecture. Si au moins un des deux indices de lecture (i.e., CM ou CTL) est inférieur au seuil -1.5 DS, alors l'enfant est inclus dans le groupe NF1+DL.

Les performances des enfants des deux groupes aux tests psychométriques sont détaillées dans le Tableau 10. Le groupe NF1+DL est composé de 17 enfants (40.5 % des enfants). Les analyses ne révèlent pas de différences significatives entre les groupes que ce soit en termes d'âge [t(40) = 0.010, p = .992], de sexe [$\chi 2 = 0.115$, p = .735] ou de niveau socio-éducatif parental [t(40) = -0.384, p = .703].

Les résultats des analyses de Mann-Whitney U montrent que les enfants présentant une NF1 associée à des difficultés de lecture obtiennent des temps de dénomination en suivi de lignes (i.e., HTaj) significativement plus longs et des performances en jugement d'orientation de lignes (i.e., JLO) significativement plus faibles que les bons lecteurs. En revanche, les indices VT, HE et la taille de leur empan visuo-attentionnel ne diffèrent pas significativement entre les groupes (toutes les valeurs de $p > .10$). Sur le plan linguistique, le groupe NF1+DL présentent de moins bons résultats en suppression de phonèmes que le groupe NF1nonDL. En revanche, aucune différence significative n'est mise en évidence aux épreuves de fusion de phonèmes et de répétition de logatomes (toutes les valeurs de $p > .10$).

Sur l'ensemble du groupe NF1, 33 % des enfants présentaient à la fois un déficit en lecture et des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles. La répartition des performances par groupe pour chaque indice d'intérêt est illustrée dans le Figure 8. Les analyses de Chi-2 révèlent que la répartition

des performances est différente entre les groupes pour les indices JLO [$\chi2 = 7.79$, $p = .020$] et HTaj [$\chi2 = 9.54$, $p = .008$], témoignant d'un plus grand nombre d'enfants en difficulté dans le groupe NF1+DL que dans le groupe NF1nonDL. De même, sur le plan linguistique un plus grand nombre d'enfants se retrouvent en difficultés à l'épreuve de fusion de phonèmes dans le groupe ayant un déficit en lecture par rapport au groupe qui n'en présente pas [$\chi2 = 6.63$, $p = .036$]. En revanche, la répartition des performances pour les autres indices impliquant les processus visuels (VT, HE, EVAglobal, EVApartiel et EVAcomposite) ainsi que pour les deux autres indices impliquant les processus linguistiques (suppression de phonèmes et répétition de logatomes) n'est pas significativement différente entre les groupes (toutes les valeurs de $p > .10$).

Tableau 10. Résultats des enfants présentant une NF1 avec ou sans déficit en lecture aux tests psychométriques.

	NF1+DL		NF1nonDL		Mann-Whitney U	
Variables	M	ET	M	ET	p	Taille d'effet (rb)
Test de l'Alouette						
CM *(score-Z)*	-3.47	2.07	-0.31	0.66	< **.001**	-0.892
CTL *(score-Z)*	-1.52	0.56	-0.16	0.90	< **.001**	-0.866
DEM-test						
VT *(score-Z)*	-1.25	1.62	-0.58	1.24	.228	-0.224
HTaj *(score-Z)*	-3.13	2.64	-1.39	2.42	**.007**	-0.501
HE *(score-Z)*	-1.95	2.32	-0.81	1.65	.159	-0.261
JLO	-1.55	1.11	-0.45	0.83	**.020**	-0.428
EVADYS						
EVAglobal	3.47	0.66	3.81	0.65	0.191	-0.242
EVApartiel	3.79	0.89	4.10	0.85	0.228	-0.224
EVAcomposite	3.63	0.68	3.96	0.68	0.228	-0.219
ODEDYS-2						
SupPho *(score-Z)*	-0.63	0.94	-0.05	1.21	**0.033**	-0.393
FusPho *(score-Z)*	-0.96	1.58	-0.24	0.91	0.228	-0.224
RepLog *(score-Z)*	-0.25	1.24	0.23	0.69	0.159	-0.259

Notes. NF1+DL : enfants présentant une NF1 avec un déficit en lecture ; NF1nonDL : enfants présentant une NF1 sans déficit en lecture ; CM : précision de lecture ; CTL : Vitesse de lecture ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales ; JLO : jugement d'orientation de lignes ; EVA : empan visuo-attentionnel ; SupPho : suppression de phonèmes ; FusPho : fusion de phonèmes ; RepLog : répétition de logatomes ; Les effets significatifs apparaissent en caractères gras.

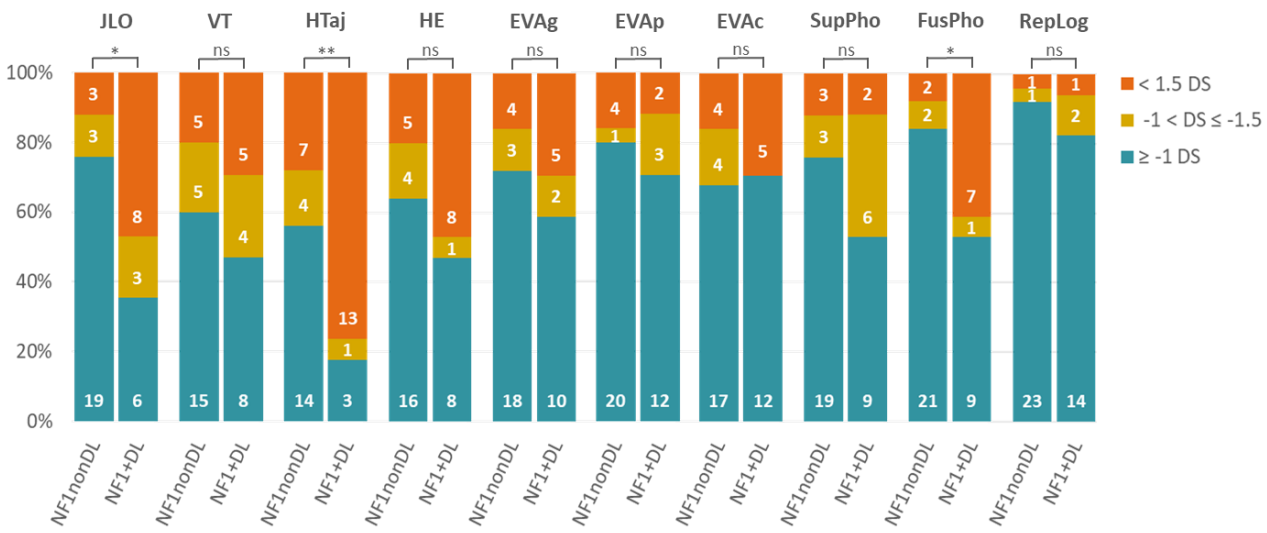


Figure 8. Fréquence des difficultés des processus visuels et linguistiques en fonction du groupe de lecture.

Notes. NF1nonDL : enfants présentant une NF1 sans déficit en lecture ; NF1+DL : enfants présentant une NF1 avec un déficit en lecture ; JLO : jugement d'orientation de lignes ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales ; EVAg : empan visuo-attentionnel global ; EVAp : empan visuo-attentionnel partiel ; EVAc : empan visuo-attentionnel composite ; SupPho : suppression de phonèmes ; FusPho : fusion de phonèmes ; RepLog : répétition de logatomes. ns p>.05 ; * p<.05 ; ** p<.01 ; *** p<.001.

2.2.5. Intérêt de l'utilisation du DEM-test dans la pratique clinique

Le DEM-test est un outil facile d'utilisation, administré en seulement 3 minutes, qui permet aux cliniciens d'avoir un premier retour sur l'efficience des processus visuels engagés dans la lecture. Cet outil fait l'objet d'un regard particulier dans cette thèse puisqu'il comporte un enjeu clinique dans le dépistage des difficultés de lecture et des difficultés visuelles qui y sont associées. Cette dernière section de résultat questionne donc son intérêt chez les enfants atteints de NF1.

Profil de difficultés au DEM-test en fonction du niveau de lecture. Les distributions de données des indices HTaj et HE ont confirmé l'amplitude des difficultés rencontrées par les enfants du groupe NF1+DL à cette tâche. À l'exception de l'indice VT, les distributions des indices du DEM-test, présentées dans la Figure 9, sont réparties différemment entre les enfants du groupe NF1+DL et NF1nonDL, avec un pic de densité témoignant des plus faibles performances des enfants NF1+DL. Plus précisément, le pic de densité est plus étendu et décalé vers les valeurs négatives dans le groupe NF1+DL (HTaj : kurtosis = 1.30 ; HE : kurtosis = -0.95) en comparaison au groupe NF1nonDL (HTaj : kurtosis = 10.55 ; HE : kurtosis = 6.00). Cette observation est en accord avec les résultats précédemment décrits concernant la différence significative entre les deux groupes présentant une NF1 à l'indice HTaj [$U(40) = 106.00$, $p < .01$], différence qui n'est en revanche pas significative pour les indices HE et VT ($p > .05$).

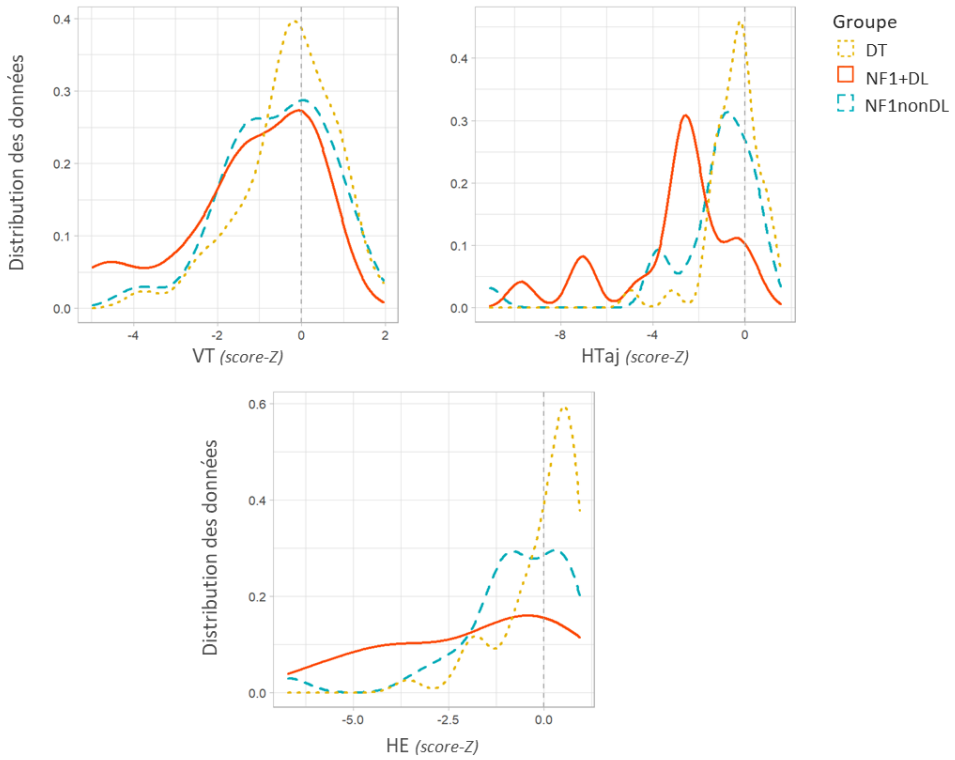


Figure 9. Distribution des données pour tous les indices du DEM-test chez les enfants atteints de NF1 avec ou sans déficit en lecture et les enfants au développement typique.

Notes. NF1+DL : enfants présentant une NF1 avec un déficit en lecture ; NF1nonDL : enfants présentant une NF1 sans déficit en lecture ; DT : enfants au développement typique ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales.

Sensibilité et spécificité du DEM-test chez les enfants présentant une NF1. Dans cette section, des analyses de courbes ROC (i.e., *Receiver Operating Characteristic*) ont été effectuées sur les indices du DEM-test afin de déterminer si cet outil est capable de dissocier les enfants NF1 avec et sans déficit en lecture. Les analyses de courbes ROC, présentées dans la Figure 10, ont montré que l'indice HTaj était la seule variable du DEM-test qui dissociait significativement les enfants NF1 avec et sans déficits en lecture [AUC[32] = .7506 ± .0803 ($p < .01$), 95% CI [0.5933 – 0.9079]]. L'aire sous la courbe (*Area Under the Curve*, AUC) obtenue pour HTaj est très similaire à celles observées dans les études de Hopkins et al. (2019) et Larter et al. (2004), avec des AUCs respectives de .72 et .83. Les AUCs pour les indices VT et HE ne se sont pas révélées statistiquement significatives ($p > .10$).

De manière intéressante, l'indice HTaj est significativement corrélé à la taille de l'empan visuo-attentionnel global [$r_s(40) = .52$, $p < .001$] de même qu'à l'empan visuo-attentionnel composite [$r_s(40) = .48$, $p = .001$].

[32] Les AUCs > 0.9 sont considérées excellents, entre 0.8 – 0.9 sont très bonnes, entre 0.7 – 0.8 sont bonnes, entre 0.6 – 0.7 sont moyennes et enfin, une AUC < 0.6 est faible (B. C. K. Choi, 1998).

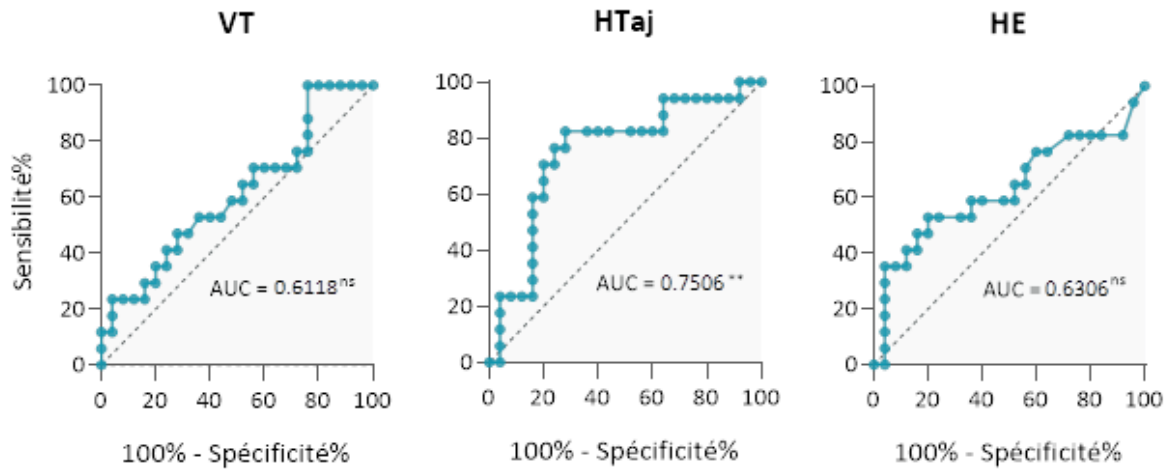


Figure 10. Analyses de courbes ROC pour chaque indice DEM-test entre les enfants présentant une NF1 avec et sans déficit en lecture.

Notes. AUC : aire sous la courbe ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales. ns p>.05 ; * p<.05 ; ** p<.01 ; *** p<.001.

2.3. Synthèse des résultats

Cette seconde étude nous a permis de mettre en évidence des différences significatives entre les enfants NF1 et DT, avec un empan visuo-attentionnel réduit et des performances plus faibles dans le jugement visuo-spatial d'orientation de lignes et le balayage visuel gauche-droite en suivi de lignes chez les enfants présentant une NF1. De la même manière, la fréquence des déficits visuo-perceptifs et visuo-attentionnels est apparue significativement plus importante chez les enfants atteints de NF1, étayant les résultats de précédentes études portant sur la NF1 (Casnar et al., 2014; Dilts et al., 1996; Eldridge et al., 1989; Hyman et al., 2005). À noter que notre étude est la première à notre connaissance à montrer une réduction de la taille de l'empan visuo-attentionnel chez les enfants atteints de NF1 par rapport aux enfants au DT : près de 21 % des enfants avec une NF1 présentaient un déficit de l'empan visuo-attentionnel alors que cela concernait seulement 7 % des enfants du groupe contrôle. Les résultats ont également révélé que 40.5 % de la cohorte d'enfants atteints de NF1 présentaient des difficultés de lecture ainsi qu'un lien significatif entre le niveau de lecture et ces processus visuels, en accord avec les résultats de l'étude 1. Plus spécifiquement, une faible précision en lecture est associée à un empan visuo-attentionnel réduit, un jugement d'orientation spatiale moins efficient et un balayage visuel gauche-droite en suivi de lignes moins rapide et moins précis par rapport aux lecteurs sans difficulté. En revanche, seules les compétences de balayage visuel gauche-droite ont été associées à la vitesse de lecture. Enfin, la fréquence des difficultés de perception visuo-spatiale et de balayage visuel gauche-droite s'est avérée être plus élevée chez les enfants NF1+DL que les enfants NF1nonDL.

En plus du lien entre les processus visuels et les habiletés en lecture, les compétences linguistiques de conscience phonologique et de mémoire de travail auditivo-verbale se sont révélées être également associées au niveau de lecture et à la présence ou non d'un déficit en lecture chez les

enfants atteints de NF1 (voir Arnold et al., 2018; Chaix et al., 2017; Cutting et al., 2000a; Cutting & Levine, 2010; Watt et al., 2008, pour des résultats comparables).

Enfin, nous avons pu montrer que le DEM-test et plus spécifiquement, l'indice HTaj constitue un indicateur pertinent pour le dépistage des difficultés visuo-attentionnelles impliquées dans la lecture. En effet, cette étude nous a permis de mettre en évidence des performances plus faibles et une fréquence de difficultés plus importante à cet indice chez les enfants NF1+DL par rapport aux enfants NF1nonDL, en accord avec de précédentes études comparant les enfants avec et sans difficultés de lecture (Bellocchi et al., 2021; Larter et al., 2004; Moiroud et al., 2018; Raghuram et al., 2018). De plus, le fait que les performances à HTaj soient corrélées à la taille de l'empan visuo-attentionnel étaye la nature des processus évalués au travers de cette tâche (i.e., processus visuo-attentionnels). Finalement, les courbes ROC nous ont permis de confirmer l'intérêt clinique de l'indice HTaj pour dissocier les enfants ayant une NF1 avec et sans déficit en lecture.

3. Discussion générale du chapitre 4

3.1. Fréquence des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles chez les enfants atteints de NF1

Notre premier objectif consistait à examiner la fréquence des difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles chez les enfants atteints de NF1. Ces 2 études nous ont permis de couvrir une période large entre 6 et 12 ans, afin d'être en mesure de voir si l'impact de ces processus diffère en fonction du développement de l'enfant et de l'exposition à l'écrit. Bien que nous ayons observé une fréquence de difficultés variables entre les deux études, probablement en raison des outils utilisés, de la taille des échantillons et des différents groupes d'âge, les résultats montrent que la fréquence des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles est plus élevé dans la NF1 que chez les enfants au DT. Cette différence inclut la perception visuo-spatiale, la taille de l'empan visuo-attentionnel et les processus attentionnels impliqués dans le balayage visuel en suivi de lignes.

Lorsqu'on s'intéresse plus précisément aux indices étudiées, l'évaluation des **processus visuo-perceptifs** montrent deux choses. Premièrement, les processus de perception visuelle étudiés au travers de l'indice MVP du DTVP-3 apparaissent sans difficultés. À l'échelle du groupe, les enfants atteints de NF1 présentaient des performances dans la zone moyenne par rapport à leur groupe d'âge et aucun enfant ne présentait de difficultés à cet indice. Ces résultats corroborent ceux de l'étude de Mazzocco (2001) mais ne vont pas dans le sens de plusieurs autres études qui ont pris en compte le niveau de lecture des enfants dans leurs analyse (Barquero et al., 2015; Clements-Stephens et al., 2008; Cutting & Levine, 2010). Sur le plan visuo-spatial, nos résultats au JLO confirment ceux classiquement trouvés dans la littérature avec des performances plus faibles et une fréquence de difficultés plus élevée chez les enfants présentant une NF1 que chez les enfants au développement typique, et ce même après la prise en compte du niveau socio-éducatif parental et les compétences de raisonnement verbal (e.g., Arnold et al., 2020; Barquero et al., 2015; Chaix et al., 2017; Clements-Stephens et al., 2008; Cutting & Levine, 2010; Dilts et al., 1996; Hyman et al., 2005; Lehtonen et al.,

2015). Les processus d'intégration visuo-motrice apparaissent, quant à eux, dans la moyenne à l'échelle du groupe. Toutefois, près de 12.5 % des enfants manifestent une difficulté dans ces tâches et 37.5 % une fragilité, corroborant ainsi les résultats déjà montrés dans la littérature avec près de 23 % à 65 % des enfants avec une NF1 présentant une fragilité dans le processus de copie (Casnar et al., 2014; Descheemaeker et al., 2005; Dilts et al., 1996; Hyman et al., 2005; Vaucheret Paz et al., 2019). L'ensemble de ces résultats vont dans le sens de ceux de la littérature montrant que les processus de perception visuo-spatiale et d'intégration visuo-motrice sont fréquemment affectés dans la NF1. Il faut toutefois garder à l'esprit que certaines covariables non contrôlées dans notre étude pourraient également affecter ces performances, comme par exemple des difficultés dans les fonctions exécutives (e.g., planification, mémoire de travail et inhibition cognitive). Il serait intéressant à terme d'étudier leur implication dans les difficultés perceptives observées au sein de nos études.

Sur le plan **visuo-attentionnel**, nos résultats ont permis de révéler une réduction de la taille de l'empan visuo-attentionnel chez les enfants atteints de NF1 par rapport aux enfants au DT. Ce résultat suggère qu'au niveau du traitement fovéal, le nombre d'informations visuelles et plus précisément, le nombre d'informations orthographiques pouvant être identifiées simultanément en une fixation au sein d'une séquence de caractères est réduit chez les enfants NF1 d'âge scolaire. Cela pourrait expliquer en partie les performances plus faibles de ces enfants dans la dénomination de chiffres en suivi de lignes par rapport aux enfants au développement typique. A noter, la dénomination de chiffres en vertical n'était pas différente entre les enfants NF1 avec et sans difficultés de lecture. Une explication possible est que les processus de RAN, spécifiquement impliqués dans l'indice VT (Larter et al., 2004), ne soient pas altérés de manière plus importante chez les enfants atteints NF1 que chez les enfants au développement typique, comme l'ont déjà montré Arnold et al. (2018).

3.2. Impact de la présence d'un trouble de lecture comorbide dans les difficultés visuelles observées

Avant toute chose, nos résultats ont permis de confirmer le lien entre les aptitudes de lecture et les compétences linguistiques de conscience phonologique et de mémoire de travail auditivo-verbale. Même si l'étude 1 n'a pas permis d'établir de différence entre les enfants NF1 avec et sans difficultés de lecture, l'étude 2 avec un échantillon d'enfants plus important confirme les résultats classiques de la littérature sur le développement typique et la dyslexie (e.g., Carroll et al., 2003; Piquard-Kipffer & Sprenger-Charolles, 2013; Saksida et al., 2016) de même que sur la NF1 (Arnold et al., 2018; Chaix et al., 2017; Cutting & Levine, 2010; Watt et al., 2008).

Nos études sont également les premières, à notre connaissance, qui ont pu confirmer que les compétences visuo-attentionnelles et perceptivo-motrices étaient également impliquées dans l'automatisation et les difficultés de lecture chez les enfants atteints de NF1. Dans nos deux études, 19 % à 33 % des enfants présentaient à la fois un déficit en lecture et des difficultés visuo-perceptives et/ou visuo-attentionnelles. Une proportion plus importante d'enfants du groupe NF1+DL par rapport au groupe NF1nonDL présentaient des difficultés perceptives avec et sans implication motrice (au JLO et au DTVP-3 incluant les indices GVP et VMI), ainsi que des difficultés dans le balayage visuo-attentionnel gauche-droite. Ces résultats corroborent ceux précédemment montrés concernant le lien

entre le niveau de lecture des enfants et l'efficience de ces processus visuels. Toutefois, il est intéressant de souligner que sur le plan visuo-perceptif, il est difficile de comprendre précisément les mécanismes sous-jacents qui permettent la dissociation entre les enfants NF1 avec et sans difficultés de lecture. Une piste intéressante renvoie à la nécessité dans certaines des épreuves utilisées de mettre en place des stratégies d'analyses perceptives globale et locale. Or comme évoqué précédemment, un déficit du traitement global dans la NF1 a été montré, de même qu'un lien entre ce processus et la lecture chez les enfants au développement typique ou présentant une dyslexie (Bulgheroni et al., 2019; Franceschini et al., 2017, 2021; Payne et al., 2017). Il serait donc intéressant d'étudier directement l'implication des stratégies d'analyses perceptives dans l'efficience des habiletés de lecture chez les enfants atteints de NF1.

L'étude de l'empan visuo-attentionnel nous a également fourni des éléments de réponse. En effet, la tâche en suivi de lignes mime une situation de lecture nécessitant la mise en place d'un balayage attentionnel gauche-droite impliquant le traitement des informations en fovéa ainsi que le prétraitement de celles situées en parafovéa dans le CVD pour la programmation saccadique. On peut imaginer qu'une réduction de la taille de l'empan visuo-attentionnel puisse impacter le suivi gauche-droite des lignes dans la NF1 et être en partie responsable des difficultés de lecture fréquemment rapportée dans cette maladie (comme en témoigne la corrélation significative entre l'indice HTaj du DEM-test et la taille de l'empan visuo-attentionnel des enfants). Une réduction de l'empan visuo-attentionnel pourrait par exemple induire un comportement oculaire inefficace, avec un nombre de fixations plus important que chez les lecteurs typiques, en raison du nombre limité de caractères pouvant être traités simultanément (Prado et al., 2007). A noter néanmoins que même si les enfants NF1+DL ont obtenu une taille d'empan visuo-attentionnel plus faible que ceux du groupe NF1nonDL, cette différence n'est pas significative. Cette réduction de l'empan ne peut donc pas constituer un facteur suffisant pour différencier les bons des mauvais lecteurs dans la NF1.

Il n'en reste pas moins que les résultats observés dans le balayage visuel en suivi de lignes (Module 1 de Diaglect/DEM-test) témoignent d'une distribution atypique des performances chez les enfants NF1+DL, contrairement aux enfants NF1nonDL qui eux présentent une distribution très proche de celle des enfants au DT. Les différences entre les deux groupes à l'indice HTaj sont cohérentes avec les études précédentes réalisées auprès d'enfants présentant des troubles d'apprentissage (Bellocchi et al., 2021; Larter et al., 2004; Moiroud et al., 2018; Raghuram et al., 2018). Les indices VT et HE en revanche n'étaient pas différents entre les groupes (voir Vernet et al., 2022a pour des résultats différents avec les pré-lecteurs). Le rôle des mécanismes visuo-attentionnels mis en jeu dans les subtests horizontaux et verticaux change au cours du développement de la lecture. Selon la théorie de l'apprentissage perceptif, l'entraînement visuel associé à la régularité des mouvements oculaires dans la lecture améliore la reconnaissance des mots dans une région horizontale restreinte proche de la fovéa, et principalement dans les régions de la rétine qui se situent dans le sens de la direction de lecture (Dehaene et al., 2005). Il est donc probable que l'indice HTaj devienne plus fortement associé à la performance de lecture au fur et à mesure que les enfants apprennent à lire et prennent en compte la directionnalité gauche-droite du balayage visuel (Vernet et al., 2022a). Nous soutenons que la plus grande prévalence d'échec à l'indice HTaj dans le groupe NF1+DL serait liée à un déficit des processus d'attention visuelle spécifiquement impliqués dans la lecture et plus précisément à la directionnalité du balayage visuel.

Ainsi, ces études ont permis de montrer qu'en plus des processus linguistiques, les processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels étaient associés aux fréquentes difficultés de lecture rencontrées par les enfants atteints de NF1. Nos données ont permis de montrer que certains de ces déficits visuo-perceptifs et visuo-attentionnels, tout comme les déficits phonologiques (Chaix et al., 2017) émergent comme un marqueur clinique des déficits de la lecture.

3.3. Utilité du DEM-test comme outil clinique de dépistage

Compte tenu de la prévalence élevée des difficultés de lecture dans la NF1 et des répercussions qu'elles peuvent avoir sur la scolarité des enfants, il apparaît crucial de pouvoir intervenir le plus tôt possible dans la trajectoire développementale des enfants. Malgré la forte prévalence des déficits visuo-perceptifs et visuo-attentionnels chez les enfants présentant une NF1 (isolée ou avec un déficit de lecture comorbide), ces derniers ne sont actuellement pas systématiquement explorés dans les bilans réalisés auprès de ces enfants. Dans ce cadre, nous avons évalué l'efficacité du DEM-test, test qui a largement démontré son intérêt dans l'évaluation des compétences perceptives et visuo-attentionnelles (Ayton et al., 2009; Facchin et al., 2014; Hopkins et al., 2019; Larter et al., 2004; Moiroud et al., 2018; Portnoy & Gilaie-Dotan, 2020; Raghuram et al., 2018; Tanke et al., 2021; Vernet et al., 2022a). Nos résultats ont permis de montrer que l'indice HTaj était capable de dissocier les enfants NF1 avec et sans déficit en lecture associé, faisant de lui être un indicateur fiable en pratique clinique pour le dépistage des troubles de la lecture chez les enfants NF1. Il est important de noter que même si le DEM-test n'évalue pas les composantes de base du contrôle oculaire, les études s'accordent toutes pour dire que les processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels jouent un rôle majeur dans cette tâche (Ayton et al., 2009; Facchin, 2021; Hopkins et al., 2019; Moiroud et al., 2018; Raghuram et al., 2018; Tanke et al., 2021). Il convient néanmoins d'attirer l'attention sur le fait que le DEM-test n'est pas destiné à être utilisé à des fins diagnostiques (Facchin, 2021), mais plutôt considéré comme un outil de première intention facile d'utilisation et n'impliquant que 5 minutes de passation. Pour les cliniciens, cet outil pourrait améliorer l'évaluation clinique afin de mieux comprendre les difficultés observées dans la NF1 et ainsi d'améliorer la prise en charge des enfants. De plus, ce test s'est avéré efficace chez des enfants de maternelle sans maladie génétique spécifique pour l'identification précoce d'enfants à risque de déficits de lecture plus tard dans leur scolarité (Vernet et al., 2022a), suggérant ainsi qu'il peut aussi être utile à un moment où les tests impliquant directement la lecture ne peuvent pas être utilisés.

À noter, le module 1 du logiciel Diaglect inspiré du DEM-test montre des résultats similaires à ceux observés dans le DEM-test avec une efficacité de l'indice HTaj pour dissocier les lecteurs avec ou sans difficultés de lecture. Trois études ont permis d'étudier son intérêt à la fois chez les enfants d'âge scolaire, d'âge préscolaire et chez des enfants présentant une dyslexie développementale (Vernet et al., 2020; Vernet et al., 2022b). Cet outil dont la passation est informatisée pourrait permettre de fournir aux cliniciens des indices automatisés de repérage des enfants à risque. De plus, l'utilisation d'une interface numérique pourrait être une bonne alternative pour limiter les biais liés à l'examinateur dans la présentation des consignes et le chronométrage des épreuves, mais aussi pour le traitement des résultats avec la génération automatique des scores bruts et standardisés.

SYNTHÈSE DU CHAPITRE 4

Ce chapitre met en évidence la fréquence élevée des difficultés de visuo-perceptives et visuo-attentionnelles observées chez tous les enfants atteints de NF1, incluant notamment les compétences de perception visuo-spatiale, d'intégration visuo-motrice, de balayage visuel en suivi de lignes et la taille de l'empan visuo-attentionnel. Les résultats témoignent également du lien entre ces difficultés dans les processus visuels et la prévalence des déficits en lecture rencontrées chez près de la moitié des enfants atteints de NF1. Nous avons pu montrer l'utilité du DEM-test, un outil clinique rapide et facile d'utilisation, qui pourrait être passé en complément des tests classiques évaluant les processus linguistiques, afin de compléter les bilans cliniques traditionnellement réalisés dans la NF1.

La mise en évidence de difficultés visuo-perceptives et visuo-attentionnelles fréquemment associées aux déficits en lecture dans le profil cognitif des enfants atteints de NF1, questionne sur les mécanismes sous-jacents à ces difficultés. Le prochain chapitre vise donc à mieux comprendre la nature des difficultés visuo-attentionnelles et de contrôle oculaire et à déterminer si celles-ci sont spécifiques à la NF1 ou dépendantes de la présence de difficultés de lecture comorbides.

Chapitre 5

Spécificités du contrôle oculaire et du contrôle inhibiteur chez les enfants atteints de NF1 avec et sans déficit en lecture

PUBLICATIONS ASSOCIÉES

Un article portant sur les résultats de la partie 1 de ce chapitre, portant sur les stratégies de programmation saccadique en fonction du niveau de lecture des enfants est accepté avec des révisions mineurs dans le journal *Vision Research* :

Vernet, M., Bellocchi, S, Danna, J, Massendari, D., Jover, M, Chaix, Y., & Ducrot, S. (2022). The determinants of saccade targeting strategy in neurodevelopmental disorders: the influence of suboptimal reading experience. [Manuscript accepted with minor revisions in *Vision Reasearch*]

Dans les troubles de la lecture et notamment dans la dyslexie développementale, de nombreuses études ont rapporté une immaturité des processus visuo-attentionnels et du contrôle oculaire chez ces enfants (voir Chapitre 2 pour une présentation détaillée ; pour des revues, voir aussi Bellocchi, 2013; Facoetti et al., 2019; Perry & Long, 2022). Dans ce cadre, un bénéfice réduit du prétraitement parafovéal a été observé (Kirkby et al., 2022; S. Silva et al., 2016) pouvant entraîner des répercussions dans les stratégies de programmation saccadique et plus précisément, sur le positionnement du regard dans les mots. Or, la position initiale d'atterrissage du regard dans les mots est véritablement déterminante pour l'optimisation du traitement des mots écrits.

Chez le lecteur expert, il a été montré que l'atterrissage à la PVL (i.e., à mi-chemin entre le début et le milieu du mot) est essentiellement guidé par des facteurs perceptifs de bas niveau tel que la présence d'espaces entre les caractères dans l'item situé en parafovéa (Danna et al., 2018; Ducrot & Pynte, 2002). Selon ce point de vue, les stimuli de type linguistique (i.e., avec des espaces entre les caractères) encourageraient une stratégie de programmation saccadique prenant en compte de la

directionnalité de l'exploration visuelle. Ainsi l'œil atterrirait au centre-gauche de l'item cible en vue d'un balayage attentionnel gauche-droite ultérieur (pour les langues lues de gauche à droite). À noter que cette stratégie de guidage oculaire est modulée par le champ visuel dans lequel l'item est affiché, entraînant une asymétrie gauche-droite dans la taille des saccades, avec une amplitude de saccade plus importante dans le CVG que dans le CVD de façon à atteindre la PVL. Dans le même ordre d'idées, Bellocchi et al. (2019) ont constaté que les ILPs moyennes des enfants au développement typique scolarisés au CM2 se situaient également au centre-gauche pour les stimuli ayant des espaces entre leurs caractères (i.e., mots et séquences de dièses) dans le CVG et le CVD. En revanche, les lecteurs débutants et les enfants atteints de dyslexie développementale (DD) semblaient être uniquement influencés par la nature linguistique des stimuli, de sorte que leurs ILPs se situaient à la PVL, uniquement lorsque le stimulus était un mot. Ces résultats questionnent l'impact du niveau de lecture dans les stratégies de programmation saccadique mises en place et notamment, dans la position d'atterrissage du regard dans les mots.

Dans la NF1, bien que les difficultés de lecture concernent près de la moitié des enfants atteints de cette maladie, aucune étude ne s'est intéressée à ce jour aux stratégies de programmation saccadique mises en place en lecture. Deux études ont déjà questionné l'efficience du système saccadique de bas niveau (Krab et al., 2011; Lasker et al., 2003), mais aucune d'elles n'a étudié le comportement oculaire en lecture. Ainsi, l'objectif de la première partie de ce chapitre visait à examiner les stratégies de programmation saccadique chez les enfants atteints de NF1 avec et sans déficit en lecture. Nous souhaitions déterminer si ces stratégies sont spécifiques à la maladie et si elles sont dépendantes du niveau de lecture des enfants. Pour ce faire, nous avons utilisé la tâche de bissection oculaire développée par Ducrot et Pynte (2002) auprès de différents groupes d'enfants avec (DD et NF1+DL) et sans (DT et NF1nonDL) déficit en lecture.

1. Partie 1 : Stratégies de programmation saccadique

La première partie de ce chapitre a permis d'étudier les stratégies de programmation saccadique chez les enfants atteints de NF1 au travers de 3 sous-analyses. Une étape préliminaire visait à mieux comprendre l'impact d'un déficit de lecture dans les stratégies de programmation saccadique en comparant les résultats d'enfants DT et DD. Ces analyses préliminaires nous ont ensuite permis de questionner la spécificité des stratégies de programmation saccadique mises en place par les enfants atteints de NF1 avec et sans déficit en lecture. Enfin, une troisième analyse incluant tous les enfants a été réalisée, afin de déterminer si, indépendamment du diagnostic clinique, les capacités de lecture pouvaient être un meilleur facteur explicatif des différentes stratégies de programmation saccadique observées.

1.1. Méthode

1.1.1. Participants

Vingt enfants au développement typique (DT ; dont 10 filles), 21 enfants présentant une dyslexie développementale (DD ; dont 8 filles) et 20 enfants atteints de NF1 (dont 13 filles) ont été inclus à l'étude. Les participants de ces trois groupes constituaient une partie de la cohorte DYSTAC-MAP incluse sur les sites d'Aix-en-Provence et de Marseille.

Tous les enfants avaient entre 8 et 12 ans et étaient scolarisés du CE1 à la 6ème. Ils étaient tous de langue maternelle française, droitiers et présentaient une vue normale ou corrigée. L'âge chronologique ne différait pas significativement entre les groupes (âge moyen du groupe DT = 118.30 ± 11.48 mois ; DD = 120.90 ± 14.18 mois ; NF1 = 121.57 ± 18.68 mois). Tous les enfants ont réalisé un examen médical et neuropsychologique complet. Les enfants étaient exclus de l'étude s'ils présentaient (1) une pathologie neurologique associée (e.g., épilepsie ou tumeur cérébrale), (2) un diagnostic de déficience intellectuelle (i.e., QI total au WISC-IV ou WISC-V inférieur à 70 et/ou score standard inférieur à 7 aux subtests Similitudes et/ou Identification de concepts), (3) un diagnostic de trouble déficit de l'attention avec ou sans hyperactivité (i.e., présence d'au moins 6 symptômes d'hyperactivité et/ou d'inattention selon les critères de diagnostic du DSM-5), (4) un diagnostic de trouble du spectre de l'autisme, (5) un contexte social défavorable ou (6) s'ils prenaient des traitements médicamenteux psychotropes.

Pour les enfants du groupe DD, le niveau de lecture a été contrôlé afin de s'assurer que les enfants présentaient bien un trouble de la lecture (i.e., au moins un score inférieur à -1 DS aux indices de vitesse et de précision de lecture du test de l'Alouette (Lefavrais, 2005) et au moins un score inférieur à -1.5 DS en lecture de mots et pseudo-mots au test ODEDYS-2 (Jacquier-Roux et al., 2002)). Le niveau de lecture a également été évalué dans le groupe DT pour vérifier qu'aucun d'entre eux ne présentaient de difficultés de lecture (i.e., scores supérieurs à -0.5 DS aux indices de lecture du test de l'Alouette (Lefavrais, 2005) et aux subtests d'ODEDYS-2 (Jacquier-Roux et al., 2002)). Comme attendu, les analyses statistiques ont révélé que le groupe DD présentait des performances significativement plus faibles que le groupe DT pour les trois indices de lecture du test de l'Alouette avec des tailles d'effet importantes [AL : $t(39) = -10.022$, $p < .001$, $d = -3.131$; CM : $t(39) = -5.703$, $p < .001$, $d = -1.782$; CTL : $t(39) = -11.277$, $p < .001$, $d = -3.523$].

Pour les enfants atteints de NF1, seuls les enfants de l'ANR DYSTAC MAP inclus sur le site d'Aix-Marseille ont réalisé la tâche en oculométrie. Le niveau de lecture a été systématiquement évalué mais n'a pas été utilisé comme critère d'inclusion.

1.1.2. Matériel

Tâche de bissection oculaire latéralisée. Le matériel se compose de 3 listes de stimuli : lignes, suites de dièses et mots. Chaque liste est composée de 20 items de 5 ou 6 caractères. Les mots ont été sélectionnés dans la base de données lexicales pour le CP de Manulex (Lété et al., 2004). La moitié des mots étaient de basse fréquence (i.e., fréquence d'usage estimée en moyenne de 16 occurrences par million) et l'autre moitié de haute fréquence (i.e., fréquence d'usage estimée en moyenne de 419

occurrences par million). Les stimuli étaient affichés dans le CVG ou dans le CVD par rapport au point de fixation central. La distance entre l'item et la croix centrale était fixée à 1.25° de la fin du stimulus lorsqu'il était affiché dans le CVG ou du début du stimulus lorsqu'il était présenté dans le CVD. La liste des stimuli est détaillée dans l'Annexe 4. Deux variables ont été manipulées : (1) le type de stimulus avec 3 modalités (i.e., mots, suites de dièses et lignes) et (2) le champ visuel d'apparition avec 2 modalités (i.e., CVG et CVD).

Évaluation des compétences en lecture. L'âge de lecture des enfants (AL) a été mesuré à partir du test de l'Alouette présenté dans la section 1.1.2. Matériel du chapitre 4.

1.1.3. Dispositif d'oculométrie et procédure

Les participants ont été recrutés à l'hôpital universitaire de la Timone à Marseille et à l'hôpital d'Aix-en-Provence. Les enfants ont été vus individuellement au cours de deux sessions d'environ 1 heure et demie chacune. La première a été réalisée directement à l'hôpital et avait pour but de vérifier les critères d'inclusion. Cette session comprenait également un bilan neuropsychologique avec l'évaluation du niveau de lecture. La deuxième session a été réalisée au Laboratoire Parole et Langage d'Aix-en-Provence et incluait la passation de la tâche de bissection oculaire. Tous les enfants ont été vus individuellement dans une pièce calme dont la luminosité était contrôlée en fonction du support des différentes tâches (i.e., papier ou numérique).

Pour la tâche de bissection oculaire, les mouvements des yeux ont été enregistrés par un eye tracker mobile infrarouge monté sur un casque (Eyelink 2, SR Research Ltd., Canada). L'enregistrement était basé sur la réflexion de la lumière infrarouge sur la pupille et la cornée de l'œil droit à un taux d'échantillonnage de 250 Hz et une résolution spatiale de moins de 0.04°. Une têtière et une mentonnière étaient utilisées pour minimiser les mouvements de la tête.

Préalablement à l'expérience, une étape de calibrage de l'eye-tracker était réalisée selon une grille de 9 points étendue à l'ensemble de l'écran de l'ordinateur. L'eye-tracker était connecté à une station d'accueil Dell de type D et à un ordinateur portable Dell Latitude D600 pour l'enregistrement des données et l'envoi des stimuli. Les stimuli étaient affichés en lettres minuscules blanches sur fond noir, dans une police Courier New de 22 points, sur un écran couleur de 14 pouces, à une résolution de 1400×1050 pixels. Les participants étaient assis en face de l'écran à un intervalle d'environ 60 cm. À cette distance, une lettre correspond à un angle visuel de 0.38° et 1° est égal à 0.95 cm. L'espace entre les lettres était de 1 mm ce qui correspond à 2.8 pt ou 0.09°.

Au cours de l'expérience, chaque essai se déroulait selon la séquence d'événements présentée dans la Figure 11. Les enfants devaient d'abord regarder la croix de fixation affichée au milieu de l'écran sans bouger leurs yeux. L'expérimentateur précisait à l'enfant à plusieurs reprises au cours des essais de bien garder les yeux fixés sur ce point. Après 500 ms, la croix de fixation disparaissait et les stimuli apparaissaient soit dans le CVG, soit dans le CVD par rapport au point de fixation. À ce moment-là, la tâche de l'enfant consistait à déplacer les yeux, le plus vite et le plus précisément possible, vers la position qu'il considérait être le milieu du stimulus et confirmer cette position en appuyant sur un bouton. Après la réponse, l'écran redevenait noir et un nouvel essai commençait 500 ms plus tard. Une phase d'entraînement de 12 essais était administrée préalablement à la phase de test.

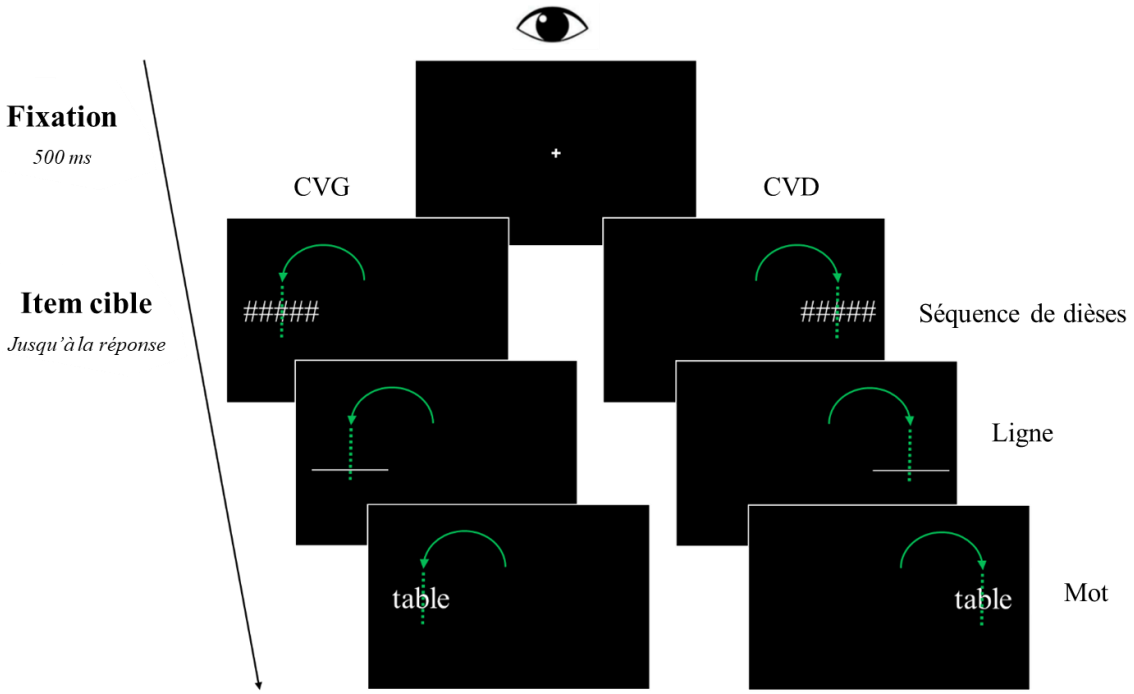


Figure 11. Description de la procédure utilisée dans la tâche de bissection oculaire latéralisée.

Notes. Les différentes conditions d'affichage des stimuli sont représentées dans cette figure avec les 3 types d'items (mot, séquence de dièses et ligne) et les 2 champs visuels de présentation (CVG et CVD). Lorsque l'élément cible apparaissait, les participants devaient déplacer leurs yeux pour regarder ce qu'ils considéraient être le milieu de l'item (cette procédure est représentée par les flèches et les lignes verticales pointillées vertes).

1.1.4. Traitement des données et analyses statistiques

Les données obtenues en oculométrie ont été analysées à l'aide de programmes informatiques spécifiques codés en C++ (Emaa software package ; Ducrot et al., 2006). Les essais ont été exclus de l'analyse lorsqu'une erreur de mesure de l'eye-tracker ou un clignement des yeux s'est produit pendant la présentation du stimulus. Nous avons également exclu les essais pour lesquels la latence de la saccade était inférieure à 80 ms ou supérieure à 800 ms (4.3 % des essais), la position moyenne des yeux avant le début de la saccade s'écartait de la croix de fixation de plus de ± 0.5 caractère (2.9 %) ou lorsque le participant mettait plus de 5 000 ms avant d'appuyer sur le bouton de réponse (6.8 %).

Afin d'étudier les stratégies de programmation saccadique, la taille de la saccade initiale a été prise en compte pour les analyses. Des moyennes ont été calculées pour chaque participant dans chaque condition. Pour étudier les effets PVL, nous avons également calculé la position initiale d'atterrissage sur le stimulus. Ce paramètre a été utilisé pour déterminer la fréquence d'atterrissage à chaque position de l'item. La taille des saccades et la position initiale d'atterrissage étaient exprimées en nombre de caractères.

Les analyses statistiques ont été réalisées en 3 étapes. Premièrement, des analyses de variance préliminaires ont été effectuées pour comprendre les stratégies de programmation saccadique des enfants avec et sans difficultés de lecture (sans NF1) en suivant un modèle 2 Champ visuel (CVG vs. CVD) × 3 Type de stimulus (mots vs. séquences de dièses vs. lignes) × 2 Groupe d'enfants (DD vs. DT). À l'exception du groupe d'enfants, les facteurs étaient tous des variables intra-sujets. Des

comparaisons planifiées suivant les hypothèses définies a priori ont ensuite été effectuées dans chaque groupe indépendamment. Les mêmes analyses ont été réalisées dans le groupe NF1 afin de comprendre les facteurs qui déterminent les stratégies de programmation saccadique mises en place par ces enfants. Pour ce faire, nous avons dissocié les enfants NF1 qui présentaient un déficit en lecture (i.e., NF1+DL ; retard de l'âge de lecture d'au moins 12 mois au test de l'Alouette par rapport à l'âge chronologique) et les enfants NF1 sans difficulté de la lecture (i.e., NF1nonDL). Onze enfants ont été inclus dans le groupe NF1+DL et 9 dans le groupe NF1nonDL. Comme attendu, les deux groupes différaient significativement en termes d'âge de lecture [$t(18) = -4.435$, $p < .001$], de précision de lecture [$t(18) = -4.144$, $p < .001$] et de vitesse de lecture [$t(18) = -5.218$, $p < .001$].

Enfin, une analyse complémentaire, incluant tous les enfants, a été réalisée afin d'étudier plus spécifiquement la relation entre les compétences de lecture et les ILPs. La fréquence des ILPs a été calculée pour tous les enfants spécifiquement pour les mots dans le CVD et des corrélations ont été réalisées avec leurs âges de lecture. Enfin, des analyses en clusters ont été effectuées avec une segmentation en 3 groupes à partir de la méthode des *K-means* afin d'étudier les différentes stratégies de programmation saccadique préférentiellement mises en place.

1.2. Résultats

1.2.1. Analyses préliminaires : taille de saccade chez les enfants DT et DD

L'amplitude moyenne des saccades vers le CVD chez les enfants DT était de 3.46 caractères et celle des enfants DD était de 3.49 caractères. Pour les saccades vers le CVG, l'amplitude moyenne était de 4.08 chez les enfants DT tandis qu'elle était de 3.77 chez les enfants DD. L'analyse de la taille des saccades a donné lieu à une interaction significative Type de stimulus × Champ visuel de présentation [$F(2,76) = 12.505$, $p < .001$] et à une triple interaction Groupe × Type de stimulus × Champ visuel de présentation [$F(2, 76) = 3.423$, $p = .038$]. Des analyses séparées pour les enfants DT et DD ont indiqué que l'interaction entre le type de stimulus et le champ visuel de présentation était significative dans les deux groupes [[$F(2,38) = 7.128$, $p = .002$ and $F(2,38) = 8.509$, $p < .001$, pour les enfants DT et DD respectivement].

Comme le montre le Tableau 11, pour les enfants DT, la taille de la saccade initiale était similaire pour les mots et les séquences de dièses (les yeux atterrissant à la PVL), mais différente pour les segments et ce, quel que soit le champ visuel d'apparition. Des analyses de comparaisons planifiées ont été utilisées pour étudier cette interaction plus finement. Elles ont révélé que la différence entre les mots et les séquences de dièses n'était pas significative [$F(1,38) = 1.089$, $p > .05$] et que l'interaction entre le type de stimulus et le champ visuel de présentation pouvait être entièrement expliquée par la forte opposition entre les stimuli discrets (mots et séquences de dièses) et les stimuli continus (lignes) [$F(1,38) = 8.413$, $p < .01$], confirmant ainsi l'importance du caractère discret ou continu du stimulus dans la programmation saccadique.

Pour les enfants DD, les analyses de comparaisons planifiées ont révélé que l'interaction Type de stimulus × Champ visuel de présentation pouvait être entièrement expliquée par la différence entre les stimuli linguistiques (mots) et les stimuli non linguistiques (séquences de dièses et lignes)

[F(1,38) = 10.208, p <.01], et l'absence de différence entre les séquences de dièses et les lignes [F < 1]. Comme l'indique le Tableau 11, la position moyenne d'atterrissage dans les mots était proche du milieu du stimulus pour les présentations en parafovéa gauche et à la PVL lorsque la saccade était dirigée vers la droite (i.e., saccades habituellement réalisées en lecture). En revanche, les positions d'atterrissage dans les CVG et CVD étaient approximativement symétriques (et situées autour du centre) pour les stimuli non linguistiques.

Ces premières analyses nous ont permis de montrer l'intérêt d'utiliser une tâche de bissection oculaire qui génère des patrons de réponse typiques en lecture (e.g., PVL et supériorité du CVD) sans action consciente de la part des sujets. Elles ont également révélé chez les enfants présentant une dyslexie, une immaturité dans les stratégies de programmation saccadique en vision parafovéale, notamment dans le CVG. Alors que les enfants DT ont été influencés par la présence d'espaces inter-caractères dans leur programmation saccadique, les enfants DD se sont principalement basés sur la nature linguistique des stimuli. Face à ce constat, nous nous sommes demandé si ces résultats étaient généralisables à tous les enfants présentant un déficit de lecture ou s'ils étaient spécifiques de la DD. Pour répondre à cette question, nous avons examiné les stratégies de programmation saccadique des enfants atteints de NF1 (isolée ou associée à un trouble lecture comorbide).

Tableau 11. Moyenne de la taille de la saccade initiale (en caractères) en fonction de la nature du stimulus, du champ visuel d'apparition et du groupe d'enfants.

	Taille de saccade M (ET)			
	Résultats préliminaires		Résultats des enfants atteints de NF1	
	DT	DD	NF1nonDL	NF1+DL
CVG				
Mots	4.33 (0.74)	3.95 (1.30)	4.46 (0.71)	4.22 (0.52)
Suites de dièses	4.34 (0.93)	3.72 (0.64)	4.43 (0.26)	3.55 (0.55)
Lignes	3.59 (0.84)	3.64 (0.99)	3.67 (0.96)	3.64 (1.22)
CVD				
Mots	3.40 (0.78)	3.27 (0.87)	3.43 (0.57)	3.34 (0.63)
Suites de dièses	3.49 (0.54)	3.63 (0.56)	3.50 (0.90)	3.53 (0.70)
Lignes	3.54 (0.59)	3.60 (0.57)	3.67 (1.18)	3.52 (0.65)

Notes. La taille de la saccade initiale a été mesurée par rapport au point de fixation central. DT : enfants au développement typique ; DD : enfants atteints de dyslexie développementale ; CVG : Champ visuel gauche ; CVD : Champ visuel droit.

1.2.2. Taille de saccade chez les enfants atteints de NF1

Lorsqu'on s'intéresse aux distributions des ILPs dans la NF1 (voir Figure 12), des patrons différents entre les enfants NF1+DL et NF1nonDL sont clairement observables. Une corrélation significative entre l'âge de lecture des enfants atteints de NF1 et la fréquence de leurs ILPs à P2 a été montrée [r(18) = .47, p <.05]. Alors qu'une PVL a été clairement observée chez les enfants NF1nonDL à mi-chemin entre le début et le milieu du mot (i.e., P2), aucune PVL n'est apparue chez les enfants NF1+DL [t(39) = -3.241, p <.01].

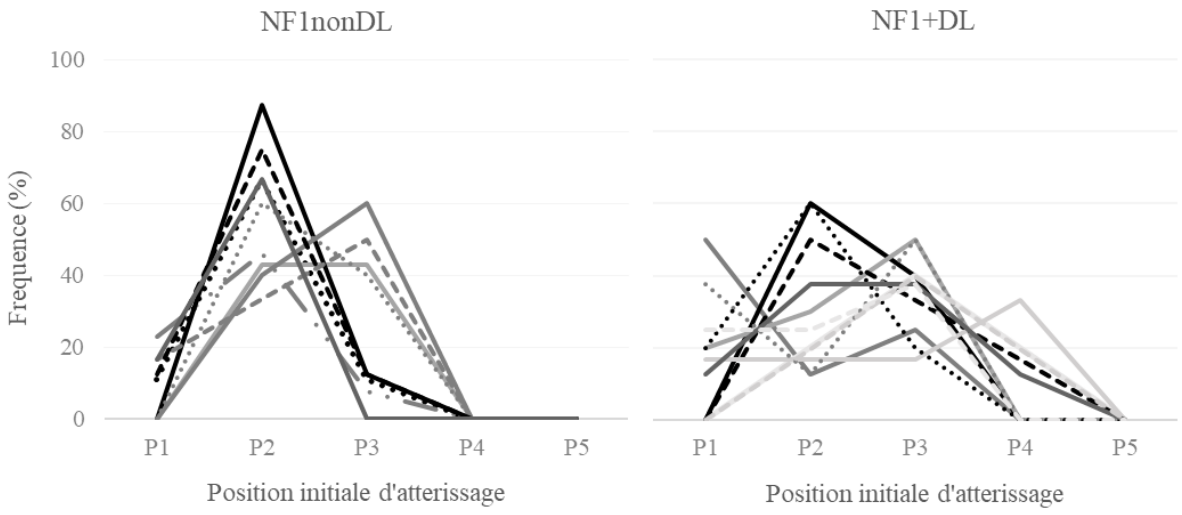


Figure 12. Distributions individuelles des ILPs dans les mots présentés dans le CVD chez les enfants NF1nonDL (i.e., partie gauche de la figure) et NF1+DL (i.e., partie droite de la figure).

Concernant la question de l'amplitude des saccades, une interaction a été montrée entre le type de stimulus et le champ visuel de présentation [$F(2,20) = 7.236$, $p = .004$ et $F(2,16) = 3.593$, $p = .05$, pour les groupes NF1+DL et NF1nonDL respectivement]. Pour le groupe NF1+DL, les analyses de comparaisons planifiées ont révélé que l'interaction pouvait être entièrement expliquée par la différence entre les stimuli linguistiques (mots) et non linguistiques (séquences de dièses et lignes) [$F(1,20) = 14.323$, $p < .005$], et l'absence de différence entre les séquences de dièses et les lignes [$F < 1$]. Pour le groupe NF1nonDL, la taille de la saccade initiale était similaire pour les mots et les séquences de dièses, mais différente pour les lignes, confirmant ainsi leur sensibilité au caractère discret des stimuli [$F(1,16) = 4.49$, $p = .05$, pour la comparaison mots et séquences de dièses vs. lignes, et $F < 1$ pour la comparaison séquences de dièses vs. mots].

Il est particulièrement intéressant de noter que les lecteurs du groupe NF1+DL présentaient un comportement oculaire très similaire à celui des enfants DD, avec une grande variabilité dans la programmation des saccades et aucune sensibilité au caractère discret des stimuli (voir Figure 13). Lorsqu'on compare ces deux groupes, il n'y avait pas d'effet principal du groupe [$F < 1$], ni de triple interaction Champ visuel de présentation × Type de stimulus × Groupe [$F < 1$], mais une interaction Champ visuel de présentation × Type de stimulus significative [$F(2,58) = 13.732$, $p < .001$], principalement expliquée par la sensibilité à la nature linguistique des stimuli [$F(2,58) = 58.81$, $p < .001$, pour la comparaison entre les stimuli linguistiques et non linguistiques, et $F < 1$ pour la comparaison entre les séquences de dièses et les lignes].

Les enfants du groupe NF1nonDL ont montré un comportement oculaire efficace pour la lecture et similaire à celui des enfants DT [$F < 1$], avec une PVL située à mi-chemin entre le début et le milieu du mot dans les deux champs visuels. La comparaison des 2 groupes a révélé une interaction Champ visuel de présentation × Type de stimulus significative [$F(2,54) = 8.088$, $p < .001$] principalement expliquée par la sensibilité au caractère discret des stimuli [$F(1,54) = 10.08$, $p < .01$, pour la comparaison entre les stimuli discrets et continus, et $F < 1$ pour la comparaison entre les mots et les séquences de dièses].

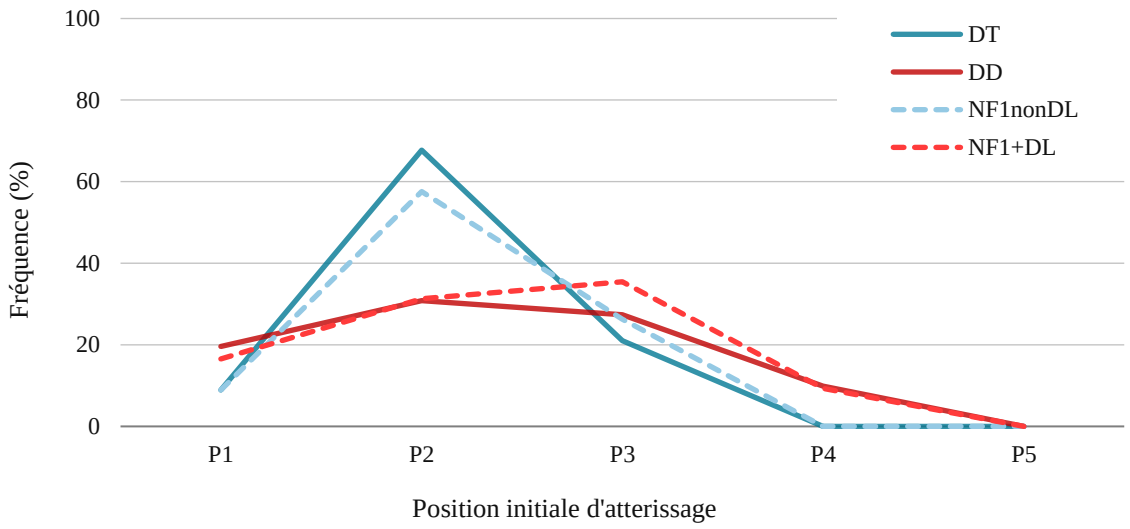


Figure 13. Comparaison de la fréquence des ILPs pour les mots dans le CVD entre les 4 groupes d'enfants.

Notes. DT : enfants au développement typique ; DD : enfants atteints de dyslexie développementale ; NF1+DL : enfants NF1 ayant un déficit en lecture ; NF1nonDL : enfants NF1 sans déficit en lecture.

Pour résumer, ces résultats ont permis de montrer que les mouvements oculaires des enfants atteints de NF1 pendant la tâche de bissection oculaire étaient différents entre les enfants avec et sans déficit en lecture. Alors que les enfants NF1nonDL présentaient des patrons de mouvements oculaires similaires à ceux des enfants DT, les enfants NF1+DL présentaient des stratégies de programmation saccadique immatures, transposables à celles des enfants DD. Face à ce constat, nous nous sommes demandé si finalement les différences dans les stratégies de programmation oculomotrices mises en place par les enfants avec et sans déficit de lecture ne pouvaient pas résulter de leurs compétences de lecture indépendamment de l'appartenance à un groupe clinique.

1.2.3. Analyses complémentaires

Une analyse complémentaire incluant les 4 groupes d'enfants a été réalisée afin d'étudier plus en détail la relation entre les ILPs et le niveau de lecture. L'idée était de déterminer si, indépendamment du diagnostic clinique des enfants, le niveau de lecture pouvait entrainer l'utilisation de différentes stratégies de programmation saccadique. Le niveau de lecture (AL) et la fréquence des ILPs (pour les mots de la CVD) ont été pris en compte pour chaque participant. Les corrélations sont présentées dans la Figure 14. Les résultats ont permis de montrer une corrélation significative entre l'âge de lecture et la fréquence des ILPs à P2 [$r(59) = .493$, $p < .001$], un niveau de lecture plus élevé était ainsi associé à une plus grande probabilité d'atterrir directement à la PVL (i.e., P2). Une corrélation négative significative a également été mise en évidence entre l'âge de lecture et la fréquence des ILPs à P1 [$r(59) = -.266$, $p < .05$], suggérant que les lecteurs en difficulté étaient davantage susceptibles d'atterrir au début du mot. À noter qu'aucune corrélation significative n'a été identifiée pour les positions d'atterrissage à P3 [$r(59) = -.136$, $p > .05$].

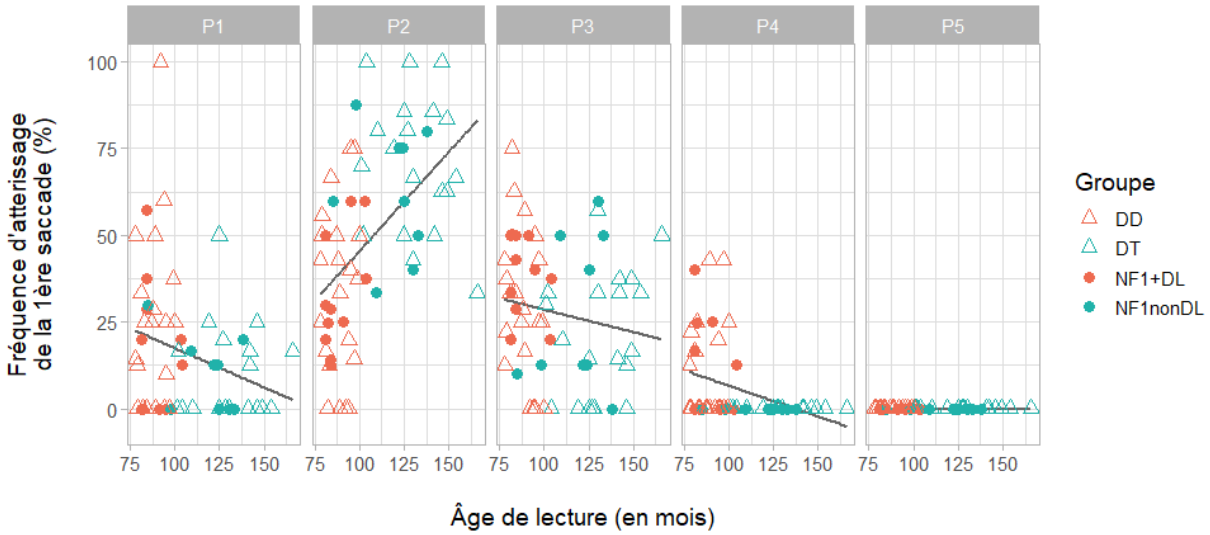


Figure 14. Fréquence d'atterrissage de la saccade initiale (en pourcentage) pour chaque position des mots en fonction de l'âge de lecture (en mois) et du groupe.

Notes. DT : enfants au développement typique ; DD : enfants atteints de dyslexie développementale ; NF1+DL : enfants avec une NF1 et un déficit en lecture ; NF1nonDL : enfants avec une NF1 sans déficit en lecture.

Les analyses de clusters avec une segmentation en 3 groupes suivant la méthode des *K-means* ont mis en évidence une séparation relativement distincte des participants avec très peu de chevauchement. La Figure 15 illustre les distributions de fréquence des ILPs pour chaque position des mots pour chaque cluster défini. Cette stratégie d'analyse a été guidée par l'idée que la lecture séquentielle est caractérisée par un déplacement progressif des fixations de gauche à droite à travers le mot, tandis que dans la lecture parallèle, les positions de fixation tendent à être fréquemment positionnées près du centre du mot (e.g., Ablinger et al., 2013; Schattka et al., 2010). Le cluster 2 comprenait presque la moitié des participants (46 %, principalement des enfants sans déficit en lecture) et témoigne d'une stratégie de guidage oculaire de lecteurs experts avec une ILP très fréquemment située à la PVL (i.e., P2). Les deux clusters restants différaient du cluster des lecteurs "typiques". Le cluster 1 (12 %, principalement constitué d'enfants du groupe DD) témoignait d'une stratégie de mouvements oculaires similaire à celle observée chez les lecteurs débutants, avec une ILP fréquemment située au début des stimuli (i.e., P1). À noter, ce cluster regroupait les lecteurs ayant les niveaux de lecture les plus faibles, privilégiant une lecture séquentielle. Cette observation suggère qu'une immaturité du contrôle oculaire est fréquemment associée à une stratégie de décodage séquentiel des items lexicaux. Enfin, le cluster 3 (42 % des participants) incluait principalement des enfants ayant un déficit en lecture et notamment, 73 % des enfants du groupe NF1+DL. Les enfants du cluster 3 présentaient un niveau de lecture intermédiaire et une distribution aplatie des ILPs, couvrant une zone plus large autour du centre du mot. Ce patron pourrait refléter une instabilité oculomotrice. En ce sens, ce sous-groupe de lecteurs présentait également d'importants déficits dans les processus visuo-attentionnels engagés dans le suivi de colonnes et de lignes au DEM-test[33] (-1.27 DS en moyenne à l'indice VT et -1.97 DS à l'indice HTaj, avec 41 % des enfants ayant des scores inférieurs à -1.5 DS à l'indice VT et 59 % à

[33] Une présentation détaillée du DEM-test est proposée dans la section 2.1.2. Matériel du chapitre 4.

l'indice HTaj). Il est intéressant de noter que parmi le cluster 3, il y avait également un tiers des enfants du groupe NF1nonDL (les 67 % restants étaient inclus dans le cluster 2).

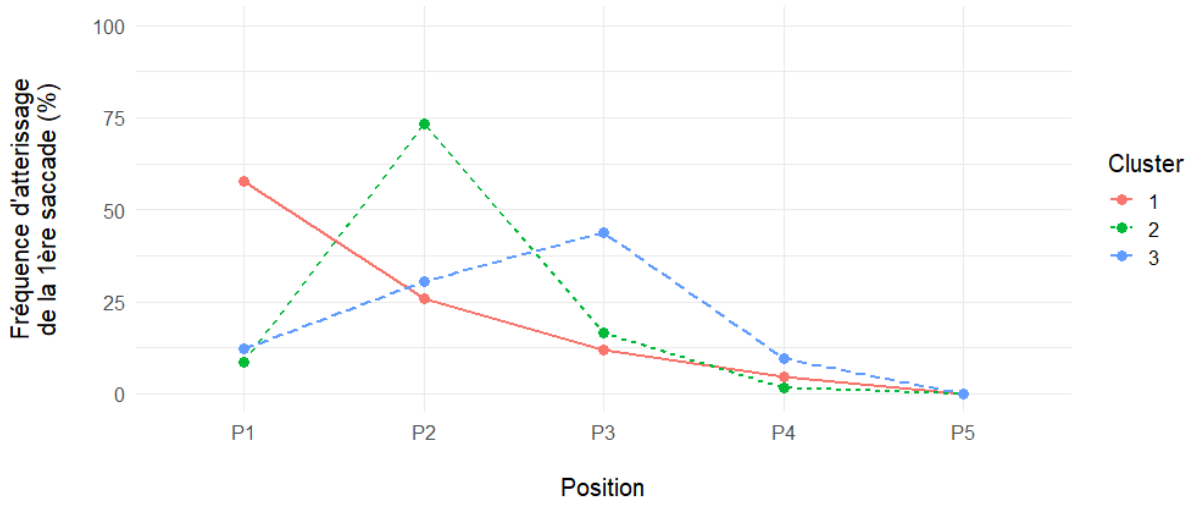


Figure 15. Distributions des ILPs (en pourcentage) selon les 3 clusters identifiés pour tous les groupes d'enfants confondus.

Il est important de souligner le fait que les 3 groupes différaient significativement[34] dans leurs niveaux de lecture [F(2,58) = 3.877, p <.05]. Les analyses de comparaisons multiples ont mis en évidence un âge de lecture significativement plus élevé dans le cluster 2 (Moyenne = 115.61) par rapport aux clusters 1 (Moyenne = 94.43 ; p <.05) et 3 (Moyenne = 100.81 ; p <.05). En revanche, aucune différence significative n'est apparue dans les âges de lecture entre les clusters 1 et 3 [p >.05] ni dans l'âge chronologique entre les 3 clusters [F(2,58) = 0.647, p >.05].

1.3. Synthèse des résultats

Les résultats ont montré que les saccades vers le CVD n'étaient pas significativement affectées par la nature du stimulus ou la présence d'un trouble de la lecture puisque les enfants, quel que soit leur groupe clinique, étaient capables d'atterrir à la PVL. En revanche, le fait que les saccades vers le CVG soient beaucoup plus rares en lecture continue que celles vers le CVD conduirait à des procédures moins automatisées pour la programmation saccadique dans le CVG. Nous avons pu constater que les saccades vers le CVG étaient influencées à la fois par la nature du stimulus et la présence d'un trouble de la lecture. Les enfants NF1+DL présentaient un comportement oculaire similaire à celui des enfants DD, et les enfants NF1nonDL à celui des enfants DT. Plus précisément, l'asymétrie gauche-droite dans la taille des saccades était influencée par la présence d'espaces inter-caractères chez les enfants DT et NF1nonDL alors qu'elle était limitée aux mots (stimuli linguistiques) chez les enfants présentant un déficit de lecture (DD et NF1+DL). Ces résultats vont dans le sens de ceux observés chez les lecteurs experts, qui sont capables d'atterrir à la PVL pour tous les stimuli

[34] Pour ces analyses statistiques, des tests de Kruskal-Wallis et de Dunn-Bonferroni (pour les analyses de comparaisons multiples) ont été réalisés.

discrets (séquences de dièses et mots) quel que soit le champ visuel de présentation (voir Ducrot & Pynte, 2002, et Bellocchi et al., 2013, pour des résultats similaires chez les lecteurs experts et les élèves de CM1 respectivement). Dans le contexte des déficits de lecture, l'absence de PVL dans le CVG reflète des ILPs moins stables et une stratégie de programmation saccadique qui n'est pas encore automatisée. Cette observation est en accord avec les données obtenues sur l'effet de position du regard en vision fovéale, montrant une réduction de l'asymétrie gauche-droite dans la courbe OVP des enfants ayant un déficit en lecture (Bellocchi & Ducrot, 2021; Ducrot et al., 2003).

Les analyses de corrélation et de clusters réalisées sur les mots présentés dans le CVD ont également permis de mettre en évidence un lien fort entre le niveau de lecture des enfants et la fréquence des ILPs dans les mots. Les analyses de clusters ont permis d'identifier trois sous-groupes de lecteurs utilisant des stratégies de programmation saccadique différentes. Ces résultats suggèrent fortement que la capacité de lecture et le mode de traitement utilisé (décodage graphophonologique séquentiel ou traitement parallèle) expliquent en grande partie les différents patterns de comportement oculaire et ce, indépendamment du groupe clinique des enfants (i.e., DT, DD ou NF1). Il est tout de même important de noter qu'un tiers des enfants présentant une NF1 isolée, de même qu'un tiers des enfants dyslexiques présentaient une instabilité oculomotrice. Ces résultats suggèrent que l'hypothèse de difficultés spécifiques du contrôle oculomoteur se produisant indépendamment d'un déficit linguistique, ne peut pas être écartée.

2. Partie 2 : Spécificités du contrôle inhibiteur

Le contrôle des interférences est une composante du contrôle inhibiteur des fonctions exécutives (Diamond, 2013) qui nous permet à la fois (1) de résister aux interférences provenant de distracteurs présents dans l'environnement afin de sélectionner les informations pertinentes pour l'atteinte d'un but (inhibition attentionnelle ou contrôle attentionnel), et (2) de supprimer volontairement une réponse automatique ou dominante non pertinente pour la tâche (inhibition cognitive ou de réponse ; Friedman & Miyake, 2004). Contrairement au contrôle oculaire, les processus du contrôle des interférences ont déjà été étudiés à de nombreuses reprises dans la NF1, notamment au travers de tâches d'attention sélective (i.e., recherche visuelle de cibles) et d'inhibition cognitive avec la tâche de Stroop. Alors que les résultats dans les tâches de recherche visuelle sont très divergents dans la NF1 (e.g., Hyman et al., 2005; Isenberg et al., 2013; Payne et al., 2011; Pride et al., 2018), les études utilisant la tâche de Stroop s'accordent à dire que le contrôle inhibiteur est très fréquemment déficitaire chez les enfants présentant une NF1 (Descheemaeker et al., 2005; Ferner et al., 1996; Remigereau et al., 2018; Roy, 2007).

La tâche de Stroop est une mesure classique de l'interférence entre deux tâches : une tâche automatisée à inhiber et une tâche à réaliser (MacLeod, 1992, 2015). Pour rappel, dans ce test, les participants doivent dénommer la couleur d'encre d'un mot, qui est lui-même un nom de couleur. La couleur d'encre peut être soit congruente avec le nom (e.g., $\mathrm{ROUGE}_{\mathrm{rouge}}$), soit incongruente (e.g., $\mathrm{ROUGE}_{\mathrm{vert}}$) ou soit neutre dans le cas où ce qui est écrit n'est pas un nom de couleur (e.g., $\#\#\#\#\#_{\mathrm{vert}}$). Les participants sont généralement plus lents et moins précis lors des essais incongruents par rapport aux essais congruents et neutres (Stroop, 1935). L'effet d'interférence résulte

de la comparaison des temps de réponse ou de la précision de réponse entre la condition incongruente et la condition neutre. Les principales explications qui ont été proposées pour cet effet d'interférence suggèrent que le traitement du mot écrit est un processus automatique (voir MacLeod, 1991, pour une revue de ces idées) qui interfère donc avec la tâche de dénomination à réaliser qui, elle, est moins automatisée. Ainsi, l'effet d'interférence Stroop résulterait d'une interaction entre l'efficience des processus d'inhibition cognitive et l'automatisation de la lecture. En ce sens, Megherbi et al. (2018) ont montré, dans une dynamique développementale, qu'après contrôle des compétences d'inhibition, l'effet d'interférence Stroop ajusté augmente au cours de la première année d'apprentissage en parallèle des compétences de lecture. Avec l'automatisation de la lecture, l'effet d'interférence augmenterait progressivement, puis diminuerait avec la maturation des processus d'inhibition (Ferrand et al., 2020; Leon-Carrion et al., 2004; Schiller, 1966). Pourtant de nombreuses études ont mis en évidence un effet d'interférence plus élevé chez les enfants dyslexiques, qui présentent des difficultés d'automatisation de la lecture, par rapport aux enfants présentant un bon développement des compétences de lecture (e.g., Everatt et al., 1997; Faccioli et al., 2008; Protopapas et al., 2007). Il est important de noter que la plupart de ces études reposaient sur une mesure des temps de réponse (TRs) et il a été montré que cette augmentation de l'interférence chez les enfants dyslexiques disparaissait lorsque la vitesse de traitement était prise en compte (Di Filippo & Zoccolotti, 2011).

Dans la NF1, alors que près de 50 % des enfants atteints de cette maladie présentent des difficultés de lecture, les études rapportant un effet d'interférence anormalement élevé chez ces enfants n'ont pas pris en compte le niveau d'automatisation de la lecture dans leurs analyses (Descheemaeker et al., 2005; Ferner et al., 1996; Plasschaert et al., 2016; Remigereau et al., 2018; Roy, 2007). L'objectif de cette seconde expérience consistait à étudier plus finement les effets d'interférence Stroop chez les enfants atteints de NF1 en examinant conjointement l'impact de la présence d'un déficit en lecture sur l'amplitude de ces effets.

2.1. Méthode

2.1.1. Participants

Au total, 15 enfants atteints de NF1 ont été inclus dans cette étude du projet Help Reading NF1. La participation à cette étude a été proposée à tous les enfants suivis au Centre de Compétence pour la NF1 du CHU de Toulouse, répondant aux critères diagnostiques de la NF1 conformément à la déclaration de la Conférence sur la neurofibromatose (National Institutes of Health, 1988). Les performances des enfants atteints de NF1 ont été comparées à celles de 19 enfants au développement typique (DT) recrutés dans une école primaire de l'académie d'Aix-Marseille. Tous étaient scolarisés du CP au CE2, âgés entre 6 ans et 9 ans, et répondaient aux critères d'inclusion et d'exclusion définis dans la partie 1.1. Méthode du Chapitre 4. Aucune différence significative n'a été observée entre les groupes NF1 et DT que ce soit pour l'âge chronologique [$t(32) = 0.292$, $p = .772$] ou le sexe [$\chi 2 = 0.260$, $p = .610$].

Pour le groupe DT, les enfants dont les enseignants considéraient qu'ils rencontraient des difficultés d'apprentissage spécifiques ont été exclus. Cela ne constituait en revanche pas un critère

d'exclusion pour le groupe NF1. Le niveau de lecture des enfants atteints de NF1 a justement été pris en compte afin de comparer les performances des enfants présentant un déficit en lecture (i.e., NF1+DL ; au moins 12 mois de retard dans l'âge de lecture par rapport à l'âge chronologique ou au moins un indice de lecture (CM ou CTL) inférieur au seuil -1.5 DS au test de l'Alouette) par rapport à celles des lecteurs typiques (i.e., NF1nonDL). Au total, 8 enfants ont été inclus dans le groupe NF1+DL et 7 dans le groupe NF1nonDL. Comme attendu, le groupe NF1+DL présentait des performances de lecture (AL) significativement plus faibles que le groupe NF1nonDL [$t(13) = -3.754$, $p = .002$, $d = 1.943$]. Aucune différence significative n'a en revanche été observée entre les groupes NF1+DL et NF1nonDL pour l'âge chronologique [$t(13) = -0.061$, $p = .953$] et le sexe [$\chi 2 = 1.607$, $p = .205$]. Les informations démographiques des participants de chaque groupe sont présentées dans le Tableau 12.

Tableau 12. Caractéristiques démographiques et performances d'identification des couleurs à la tâche de Stroop informatisée en fonction du type de stimulus chez les enfants atteints de NF1 (avec ou sans déficit en lecture) et les enfants au développement typique.

Variables	DT	NF1nonDL	NF1+DL
	M (ET)	M (ET)	M (ET)
Démographiques			
n	19	7	8
Sexe *(F/G)*	6/13	4/3	2/6
Âge chronologique *(mois)*	93.00 (9.28)	94.00 (9.80)	93.75 (5.99)
Âge lexical *(mois)*	92.15 (11.22)	95.00 (6.81)	83.25 (5.31)
Données Stroop			
zTR			
Condition incongruente *BLEUvert*	0.13 (0.13)	0.46 (0.36)	0.03 (0.07)
Condition neutre *XXXXvert*	-0.13 (0.13)	-0.37 (0.26)	-0.04 (0.09)
Amplitude d'interférence *BLEUvert - XXXXvert*	0.26 (0.26)	0.84 (0.60)	0.07 (0.15)
Erreurs *(%)*			
Condition incongruente *BLEUvert*	6.38 (9.70)	8.24 (10.69)	9.24 (12.54)
Condition neutre *XXXXvert*	3.07 (5.70)	4.76 (6.56)	5.20 (6.20)
Amplitude d'interférence *BLEUvert - XXXXvert*	3.32 (7.18)	3.49 (14.77)	4.04 (8.04)

Notes. NF1+DL : enfants NF1 avec un déficit en lecture ; NF1nonDL : NF1 sans déficit en lecture ; DT : enfants au développement typique ; F : Fille ; G : Garçon ; TR : temps de réponse.

2.1.2. Matériel

Tâche de Stroop informatisée. Le matériel était composé de noms de couleur écrits en majuscules (ROUGE, JAUNE, BLEU et VERT) et de chaînes de ##### dont la longueur a été préalablement adaptée de façon à correspondre au nombre de caractères des noms de couleurs (4 ou 5 caractères). L'ensemble des items étaient écrits dans une couleur d'encre spécifique (rouge, vert, bleu ou jaune). À noter que la couleur d'écriture des mots était systématiquement incongruente par rapport à leur signification (e.g. BLEU écrit en rouge). Au total, les stimuli expérimentaux comptaient 48 items, soit 24 items par condition, présentés dans un ordre aléatoire. Chaque couleur est apparue le même nombre de fois.

Évaluation des compétences en lecture. L'âge de lecture des enfants (AL) a été mesuré à partir du test de l'Alouette présenté dans la section 1.1.2. Matériel du chapitre 4.

2.1.3. Dispositif et procédure

Pour les enfants atteints de NF1, la procédure s'inscrivait dans la journée expérimentale du protocole Help Reading NF1, précédemment décrite dans la partie 1.1. Méthode du Chapitre 4. La passation de la tâche de Stroop informatisée s'est déroulée lors du premier bilan neuropsychologique, immédiatement après les tâches vérifiant les critères d'inclusion. Les enfants DT ont, quant à eux, été vus directement au sein de leurs écoles. Tous les enfants (NF1 et DT) ont réalisé la tâche individuellement dans une salle calme dont la luminosité a été contrôlée. Ils étaient assis en face de l'écran à un intervalle d'environ 60 cm. Les stimuli étaient affichés en lettres majuscules sur fond noir, dans une police Courier New de 24 points, sur un ordinateur portable DELL Latitude E6400 14 pouces utilisé pour la présentation des stimuli et la collecte des données via le logiciel DMDX (version 2.9.01 ; Forster & Forster, 2003). Leur tâche consistait à identifier la couleur des stimuli présentés à l'écran (tout en inhibant la réponse associée à la lecture du mot, dans le cas des stimuli incongruents) et ce, aussi rapidement et précisément que possible, en appuyant sur le bouton de la couleur correspondante sur un boîtier de réponse. À cette fin, les enfants devaient se concentrer sur la croix de fixation sans bouger les yeux. Cette croix blanche ("+") apparaissait au centre de l'écran pendant 500 ms, puis elle était remplacée par un stimulus qui restait affiché jusqu'à ce que l'enfant réponde ou que 3 500 ms se soient écoulées. Une fois la réponse donnée, l'écran était effacé et un nouvel essai commençait après un délai de 1 000 ms. Les enfants ont été familiarisés avec la tâche au cours d'une série de 12 essais d'entraînement. Le temps et la précision de réponse ont été mesurés. La procédure de la tâche de Stroop informatisée est détaillée dans la Figure 16. Dans le cadre de cette passation, une évaluation du niveau de lecture des enfants était également réalisée à partir du test de l'Alouette et prenait seulement 3 minutes. Cette expérience a été approuvée par le Comité d'éthique statutaire d'Aix-Marseille Université. Tous les parents ont approuvé la participation de leurs enfants et ont signé un formulaire de consentement éclairé.

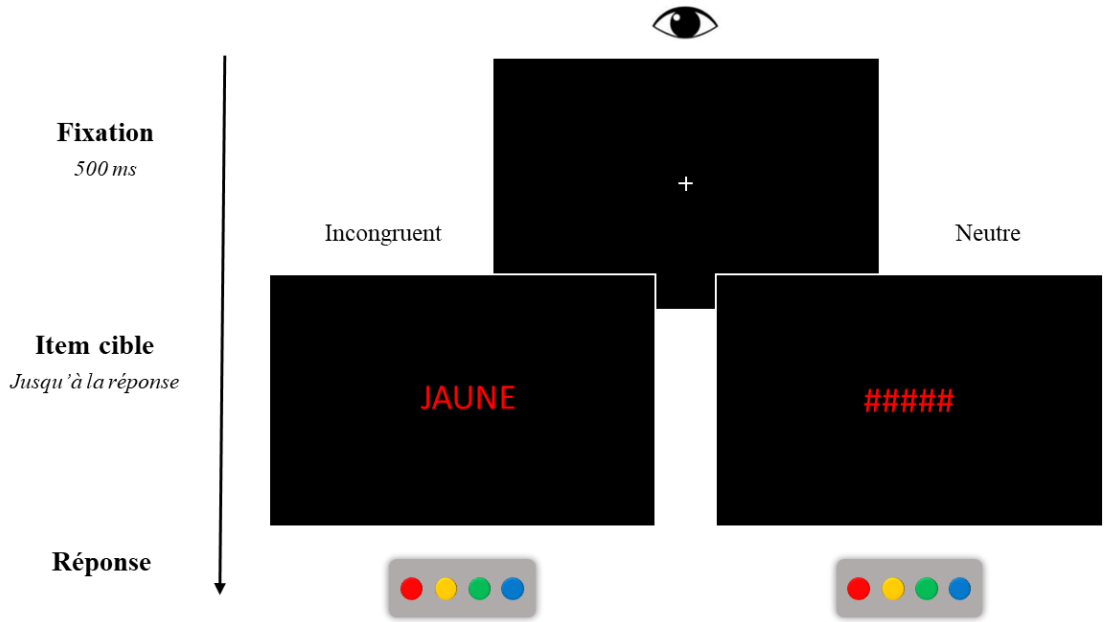


Figure 16. Description de la procédure utilisée dans la tâche de Stroop informatisée.

Notes. Les deux conditions d'affichage des stimuli sont représentées avec à gauche la condition incongruente et à droite la condition neutre. Lorsque l'item cible apparaissait à l'écran, les participants devaient appuyer, le plus rapidement possible, sur le bouton correspondant à la couleur dans laquelle le stimulus était affiché.

2.1.4. Analyses statistiques

Un prétraitement a été effectué afin d'exclure les essais pour lesquels le sujet n'a pas donné de réponse dans le temps imparti ainsi que les temps de réponse (TR) supérieurs ou inférieurs de 2.5 DS par rapport à la moyenne de chaque participant pour chaque condition (soit 4.4 % des données totales exclues). Le pourcentage d'erreurs et le temps de réponse (en millisecondes) pour les réponses correctes uniquement ont, tous deux, été mesurés. Afin de contrôler les différences de vitesse de traitement (au sein d'un même groupe et entre les groupes), les TRs ont ensuite été transformés en zTRs selon la même méthodologie que celle réalisée dans l'étude de Ferrand et al. (2020) en suivant la formule ci-dessous avec TR étant le temps de réponse, *X* la performance du participant à un item donné, *M* la moyenne et *ET* l'écart-type.

$$\mathrm{zTR} = \frac{\left[\mathrm{X\ TR}_{\text{participant X (condition donnée)}} - \mathrm{M\ TR}_{\text{générale (toutes conditions participant X)}}\right]}{ET\ TR_{\text{général (toutes conditions participant X)}}}$$

Pour ces deux variables dépendantes (pourcentage d'erreurs et zTR), des moyennes ont été calculées pour chaque condition et chaque groupe. L'effet d'interférence Stroop a également été quantifié en effectuant la différence de performance entre la condition incongruente ($\mathrm{BLEU}_{\mathrm{vert}}$) et la condition neutre ($\#\#\#\#_{\mathrm{vert}}$). Les analyses statistiques ont ensuite été réalisées avec le logiciel JASP. Des analyses de variance à mesures répétées ont dans un premier temps été effectuées en suivant un modèle 2 Type de stimuli (mots de couleur incongruente vs. séquences de dièses de couleur) × 3 Groupes (TD vs. NF1+DL vs. NF1nonDL), le type de stimulus étant un facteur intra-sujet. Des comparaisons multiples post-hocs de Bonferroni ont été menées lorsque l'effet du groupe est apparu

significatif afin d'étudier plus en détail les effets d'interférence au sein de chacun des groupes. Pour l'ensemble des tests statistiques réalisés, le seuil de significativité a été fixé à p = .05.

2.2. Résultats

Le détail des performances des enfants (zTR et pourcentage d'erreurs) en fonction du type de stimuli et du groupe est présenté dans le Tableau 12.

2.2.1. Effet d'interférence Stroop

Les analyses réalisées sur les *z*TRs ont révélé un effet principal du type de stimuli [$F(1,31) = 36.603$, $p < .001$, $\eta_p^2 = .541$], du groupe [$F(2,31) = 5.133$, $p = .012$, $\eta_p^2 = .249$] ainsi qu'une interaction Type de stimuli × Groupe [$F(2, 31) = 10.296$, $p < .001$, $\eta_p^2 = .399$]. Les analyses de comparaisons multiples concernant le groupe ont permis de révéler un effet d'interférence Stroop significatif seulement dans les groupes présentant des compétences de lecture automatisées, que ce soit pour le groupe NF1nonDL [$t(6) = 6.467$, $p_{bonf} < .001$, $d = 4.796$] ou DT [$t(18) = 3.365$, $p_{bonf} = .031$, $d = 1.515$]. En revanche, l'effet d'interférence n'est pas apparu significatif dans le groupe NF1+DL [$t(7) = 0.590$, $p_{bonf} = 1.000$, $d = 0.409$].

Les résultats des analyses sur le pourcentage d'erreurs ont mis en évidence un effet principal du type de stimuli [$F(1, 31) = 4.229$, $p = .048$, $\eta_p^2 = .120$], mais pas d'effet principal du groupe [$F < 1$] ni d'interaction Type de stimuli × Groupe [$F < 1$], montrant que, quels que soient leurs groupes, les enfants étaient plus susceptibles de commettre des erreurs dans la condition incongruente (BLEUvert) que dans la condition neutre (XXXXvert).

2.2.2. Amplitude de l'effet d'interférence Stroop

Lorsqu'on s'intéresse plus spécifiquement à l'amplitude de l'effet d'interférence Stroop pour les zTR[35], l'analyse a révélé un effet hautement significatif du groupe [$F(2, 31) = 10.253$, $p < .001$, $\eta_p^2 = .398$]. Le détail des amplitudes d'interférence Stroop pour chaque groupe est présenté dans le Tableau 12. Les analyses de comparaisons multiples ont permis de mettre en évidence des différences significatives dans l'amplitude de l'effet d'interférence entre le groupe NF1nonDL et les deux autres groupes : NF1+DL [$t(13) = -4.309$, $p_{bonf} < .001$, $d = -2.230$] et DT [$t(24) = 3.777$, $p_{bonf} = .002$, $d = 1.670$]. En revanche, aucune différence significative n'est apparue dans l'amplitude de l'effet d'interférence entre les groupes NF1+DL et DT [$t(25) = -1.329$, $p_{bonf} = 0.580$, $d = -0.560$].

2.3. Synthèse des résultats

Les résultats ont permis de mettre en évidence un effet du niveau de lecture dans l'effet d'interférence Stroop retrouvé chez les enfants atteints de NF1. Plus précisément, lorsqu'on s'intéresse au pourcentage d'erreurs commises à la tâche de Stroop informatisée, quel que soit le groupe, les

[35] L'analyse sur les amplitudes de l'effet d'interférence Stroop entre les groupes a été réalisée uniquement pour les zTRs, le pourcentage d'erreurs n'ayant initialement pas révélé de différence entre les groupes.

enfants étaient plus susceptibles de commettre des erreurs dans la condition incongruente ($BLEU_{vert}$) que dans la condition neutre ($\#\#\#\#_{vert}$), alors que l'analyse des zTRs a révélé des effets d'interférence différents entre les groupes pour cette variable. Un effet d'interférence significatif a été observé, mais uniquement dans les groupes d'enfants ayant déjà automatisés la lecture (i.e., DT et NF1nonDL) alors qu'aucun effet d'interférence significatif n'a été montré dans le groupe d'enfants ayant une NF1 et un déficit en lecture comorbide. Cela suggère que les difficultés en lecture, après contrôle de la vitesse de traitement par le biais de la conversion des TRs en zTRs, annulent l'effet d'interférence observé chez les lecteurs typiques. Lorsqu'on s'intéresse à l'amplitude de l'effet d'interférence notamment chez les enfants NF1nonDL et DT, pour lesquels cet effet était significatif, les résultats suggèrent que les enfants atteints de NF1 sans déficit en lecture subissent un effet d'interférence beaucoup plus important (amplitude de l'interférence = .84) que les enfants au développement typique (amplitude de l'interférence = .26). À noter que cet effet d'interférence très élevé chez les enfants NF1nonDL est donc observé en l'absence d'un déficit de lecture et d'un trouble déficit de l'attention.

3. Discussion générale du chapitre 5

3.1. Stratégies du contrôle oculaire spécifiques aux compétences en lecture

L'objectif de la première étude était d'examiner les stratégies de programmation saccadique mises en place par les enfants atteints de NF1 et d'étudier l'influence des difficultés de lecture sur ces stratégies. Nous avons également questionné la spécificité des stratégies observées chez les enfants atteints de NF1 en les comparant à celles des enfants sans maladie génétique avec et sans difficulté de lecture (DD et DT). L'étude des mouvements oculaires chez les enfants ayant une NF1 a permis de mettre en évidence des stratégies de programmation saccadique transposables à celles des enfants sans maladie génétique. Plus spécifiquement, les enfants NF1 avec un déficit en lecture présentaient un comportement oculaire identique à celui des enfants dyslexiques, avec une précision réduite et une plus grande variabilité dans la programmation des saccades. De plus, aucune sensibilité au caractère discret des stimuli n'a été observée dans ces deux groupes. Les lecteurs NF1 sans difficulté de lecture ont, en revanche, montré des mécanismes de guidage oculaire pleinement développés pour une lecture experte, comme les enfants DT, avec (1) une PVL systématique, quel que soit le champ visuel d'apparition, et (2) une programmation saccadique guidée par les informations perceptives de bas niveau (i.e., présence d'espace entre les caractères). Il s'agit des premiers résultats montrant une différence dans les stratégies de programmation saccadique chez les enfants NF1 en fonction de la présence ou non d'un déficit en lecture associé.

Lorsqu'on s'intéresse plus en détail aux paramètres du contrôle oculaire, les résultats montrent que bien que la plupart des enfants soient parvenus à atterrir à la PVL dans le CVD, des divergences sont apparues dans le CVG, se traduisant par une asymétrie gauche-droite plus prononcée pour les enfants DT et NF1nonDL que pour les lecteurs DD et NF1+DL (voir Bellocchi et al. (2019), pour des résultats similaires chez les DD). Cette asymétrie chez les enfants sans déficit en lecture était

spécifique aux stimuli discrets (mots et séquences de dièses) et absente pour les stimuli continus. Cela suggère que lors du prétraitement parafovéal, les enfants sans déficit en lecture ont bien été capables de prendre en compte la présence d'espaces inter-caractères, comme cela a déjà été observé chez les adultes (Ducrot & Pynte, 2002). Les enfants ayant un déficit en lecture (NF1+DL et DD), quant à eux, n'étaient capables de le faire que dans le cas des mots, suggérant que leur programmation saccadique était guidée par la nature linguistique des stimuli. Les résultats suggèrent que le mécanisme de prétraitement, guidé par la présence ou l'absence d'espaces entre les caractères et responsable de la directionnalité du balayage attentionnel (gauche-droite) proposé par Ducrot et Pynte (2002), est bien automatisé chez les enfants NF1 sans déficit en lecture, tout comme chez les DT, mais qu'il n'est pas entièrement opérationnel chez les enfants DD et les enfants atteints de NF1 avec un déficit en lecture comorbide. Il est également intéressant de noter que les stratégies de programmation saccadique observées chez les enfants présentant des difficultés de lecture sont très proches de celles des lecteurs débutants de l'étude de Bellocchi et al. (2013). En effet, les ILPs des lecteurs débutants étaient également déterminés par la nature linguistique des stimuli plutôt que par les facteurs perceptifs de bas niveau, avec une plus grande asymétrie gauche-droite dans l'étendue des saccades lorsque le stimulus était un mot qu'une séquence de dièses. Les différences entre les groupes ayant des capacités de lecture différentes pourraient s'expliquer en partie par les différences en termes d'expérience de lecture.

Les analyses en cluster ont confirmé que la position d'atterrissage des saccades oculaires dans les mots constituait un indice sensible de l'efficacité de la lecture (Ducrot et al., 2013; Huestegge et al., 2009; Joseph et al., 2009; Lopukhina et al., 2022), avec trois sous-groupes de lecteurs utilisant des stratégies de programmation saccadique différentes, indépendamment de leur groupe clinique d'appartenance. Les lecteurs typiques (cluster 2), qui incluaient près de deux tiers des enfants NF1nonDL, présentaient des ILPs très fréquemment à la PVL alors que chez les enfants ayant de faibles compétences en lecture, les ILPs étaient soient fréquemment au début des mots (cluster 1), soit couvraient une zone plus large autour du centre du mot (cluster 3). Le modèle de lecture à double voie fournit un bon cadre théorique pour expliquer ce résultat (Coltheart et al., 2001). Avec l'exposition à l'écrit et l'enrichissement du lexique orthographique, une transition va s'opérer d'une stratégie de décodage sub-lexical vers un traitement lexical. Les analyses en clusters soutiennent l'idée que la lecture séquentielle est associée à des ILPs proches du début des mots (cluster 1 avec les lecteurs ayant les niveaux de lecture les plus faibles), alors que la lecture parallèle est associée à des ILPs proches du centre du mot, à la PVL (cluster 2 composé de lecteurs ayant les niveaux de lecture les plus élevés ; Ablinger et al., 2013; Schattka et al., 2010; voir également Huestegge et al., 2009, pour une perspective développementale). Ce processus s'effectuerait en parallèle du développement des capacités visuo-attentionnelles et notamment, de l'augmentation de la taille des empans perceptif et visuo-attentionnel (Bosse & Valdois, 2009; Häikiö et al., 2009; Meixner et al., 2022; Rayner, 1986; Sperlich et al., 2016). Dans le cas des difficultés d'acquisition de la lecture, le bénéfice réduit du prétraitement parafovéal (Kirkby et al., 2022; S. Silva et al., 2016) comme chez les jeunes lecteurs (Johnson et al., 2018) constitue également un élément explicatif des problèmes de programmation des saccades. L'incapacité à collecter des informations précises sur les caractéristiques de l'item situé en parafovéa peut entraver la programmation efficace d'une saccade et, par conséquent, son exécution optimale vers la PVL.

Qu'en est-il des enfants du cluster 3 ? Les enfants de ce groupe présentaient un niveau de lecture intermédiaire et une variabilité importante dans l'amplitude des saccades, se traduisant par une distribution des ILPs plus aplatie et étendue. Il est important de noter que ce cluster comprenait 70 % d'enfants présentant des difficultés de lecture (dont environ 75 % des enfants du groupe NF1+DL). Il est toutefois intéressant de souligner que ce cluster incluait également un tiers des enfants du groupe NF1nonDL. Il est possible dans ce cadre qu'une instabilité oculomotrice ait entraîné une plus grande variabilité dans les positions d'atterrissage. Les performances de ces enfants au DEM-test montrent que ce pattern de résultat peut en effet indiquer des signes d'instabilité oculomotrice, comme cela a déjà été signalé notamment dans la dyslexie (e.g., Freedman et al., 2017; Raghuram et al., 2018; Salem et al., 2022; Tiadi et al., 2016; Vagge et al., 2015; Vikesdal et al., 2021). Celle-ci pourrait en partie émaner de déficits sous-jacents dans les processus visuo-attentionnels (Facoetti et al., 2019; Franceschini et al., 2012, 2022; Vernet et al., 2022a).

Finalement, les premiers résultats obtenus sur le comportement oculaire chez les enfants atteints de NF1 nous ont permis de mettre en évidence le fait que les stratégies de programmation saccadique ne sont pas spécifiques à la maladie, mais plutôt dépendantes de la présence ou de l'absence d'un déficit en lecture comorbide et qu'elles sont transposables à celles des enfants sans maladie monogénique avec et sans déficit en lecture. De plus, les stratégies de programmation saccadique mises en place par les enfants NF1+DL et DD et similaires à celles des lecteurs débutants (Bellocchi et al., 2019; Bellocchi, Mancini, et al., 2013) suggèrent qu'elles constituent le reflet, au moins en partie, de l'expérience en lecture et d'une plus faible exposition à l'écrit chez les enfants rencontrant des difficultés de lecture (Buckingham et al., 2014; Snowling et al., 2007). Les facteurs environnementaux, en lien avec le niveau socio-économique des familles et les habitudes de lecture, constituent ainsi un cadre potentiel pour expliquer les différences de stratégies oculomotrices observées chez les enfants atteints de NF1.

3.2. Déficit du contrôle inhibiteur spécifique à la NF1

L'objectif de cette seconde étude consistait à déterminer l'impact de l'automatisation de la lecture et plus précisément de la présence ou non d'un trouble de la lecture sur les effets d'interférence Stroop fréquemment identifiés comme étant anormalement élevés dans la NF1. Les résultats de notre étude ont permis de révéler un effet d'interférence nettement augmenté chez les enfants atteints de NF1 (sans déficit en lecture) par rapport aux enfants au DT, ne pouvant ni s'expliquer par la présence d'un trouble de la lecture, ni par la présence d'un TDAH. Ces résultats corroborent l'idée qu'un déficit des fonctions exécutives incluant le processus d'inhibition cognitive constituerait l'une des caractéristiques cliniques du profil cognitif des enfants atteints de NF1 (e.g., Beaussart et al., 2018; Plasschaert et al., 2016).

Il est tout de même important de prendre en considération le fait que l'effet d'interférence Stroop implique à la fois les processus d'inhibition cognitive mais aussi le niveau d'automatisation de la lecture. Nos résultats ont permis de confirmer que, même dans la NF1, le niveau de lecture joue un rôle central dans les effets Stroop observés. Alors qu'un fort effet d'interférence est mis en évidence chez les enfants atteints de NF1 sans déficit en lecture, aucun effet significatif dans les zTRs n'est

retrouvé chez les enfants ayant une NF1 avec un déficit en lecture. Ce résultat va dans le sens de ceux observés chez les enfants présentant une DD après contrôle des effets d'âge et de vitesse de dénomination grâce à la conversion des TRs en zTRs (Di Filippo & Zoccolotti, 2011). Ces résultats suggèrent que dans le cas d'une comorbidité entre la NF1 et un déficit en lecture, le conflit entre la tâche de lecture et la tâche de dénomination se trouverait réduit : la lecture n'étant pas automatisée, son inhibition ne serait donc pas nécessaire pour réaliser la tâche de dénomination.

L'absence d'un effet d'interférence significatif dans le groupe NF1+DL ne nous permet, toutefois, pas de conclure quant à la présence ou l'absence d'un déficit d'inhibition associé au profil cognitif dans ce sous-groupe d'enfants. En effet, comme dit précédemment, la tâche de Stroop en particulier est affectée par le niveau d'automatisation de la lecture (Leon-Carrion et al., 2004; Schiller, 1966). Dans le cadre des difficultés de lecture, cette tâche n'apparaît donc pas pertinente pour l'évaluation des processus d'inhibition cognitive. Les enfants atteints de NF1 sans difficulté de lecture en revanche témoignaient d'un niveau d'interférence très élevé par rapport aux enfants au développement typique. Nous pouvons donc penser que dans une tâche d'inhibition cognitive n'impliquant pas la lecture, l'ensemble du groupe NF1 pourrait présenter un niveau d'interférence plus élevé. Cette idée est en accord avec les résultats de la littérature attestant de moins bonnes performances d'inhibition cognitive chez les enfants atteints de NF1 par rapport à des enfants contrôles dans des tâches n'impliquant pas la lecture telles que les tâches de Go/no go, de Flanker ou encore d'anti-saccade (Lasker et al., 2003; Plasschaert et al., 2016; Ribeiro et al., 2015). De plus, le fait que les enfants d'âge préscolaire manifestent déjà un niveau d'interférence marginalement plus élevé que les enfants au DT dans une tâche de Stroop n'impliquant pas la lecture est également cohérent avec notre hypothèse.

Une première limite de cette étude concerne la modalité de réponse : alors que dans l'ensemble des tâches de Stroop réalisées chez les enfants atteints de NF1 dans la littérature ont utilisé une modalité de réponse verbale, la tâche expérimentale de cette étude impliquait une réponse motrice. Or plusieurs études ont montré que les effets d'interférences étaient plus importants en modalité verbale qu'en modalité motrice (Augustinova et al., 2019; Ferrand et al., 2020). Il serait ainsi intéressant d'étudier la question de l'implication de l'automatisation de la lecture dans les effets d'interférence chez les enfants atteints de NF1 avec une tâche impliquant une réponse verbale. Enfin, la tâche que nous avons utilisée dans ce protocole expérimental ne nous permet pas de spécifier la nature du conflit qui est affecté dans la NF1. En fait, la tâche classique de Stroop implique 3 types de conflits confondus : (1) un conflit de tâche (i.e., conflit entre les traitements engagés dans la tâche de lecture et ceux engagés dans la tâche de dénomination), (2) un conflit sémantique (i.e., conflit entre l'accès aux représentations du mot écrit et à celle de la couleur perçue), et (3) conflit de réponse (i.e., conflit entre la réponse associée à la lecture et la réponse associée à la dénomination ; Augustinova et al., 2016, 2019; Ferrand et al., 2020). Or dans notre étude, nous avons évalué l'effet d'interférence classique qui ne permet pas de dissocier ces conflits et de conclure quant à la nature du conflit qui est entravé dans la NF1. Dans ce cadre, l'exploration de la nature du conflit en jeu dans les difficultés que manifestent les enfants atteints de NF1 pourrait être réalisée à l'aide des stimuli de niveau intermédiaire proposée dans les études d'Augustinova et al. (2019) et de Ferrand et al. (2020 ; e.g., conflit de tâche : $\mathrm{CHIEN}_{\mathrm{vert}}$ vs. $\mathrm{XXXX}_{\mathrm{vert}}$; conflit sémantique : $\mathrm{CIEL}_{\mathrm{vert}}$ vs. $\mathrm{CHIEN}_{\mathrm{vert}}$; conflit de réponse : $\mathrm{BLEU}_{\mathrm{vert}}$ vs. $\mathrm{CIEL}_{\mathrm{vert}}$).

SYNTHÈSE DU CHAPITRE 5

Ce chapitre nous a permis de questionner les spécificités du contrôle oculaire et du contrôle inhibiteur chez les enfants atteints de NF1 et de clarifier l'impact d'un déficit de lecture sur ces processus. Les résultats nous ont permis de montrer que les stratégies de programmation saccadique ne sont pas spécifiques à la maladie, mais déterminées par la présence ou l'absence d'un déficit en lecture comorbide. Nous avons pu montrer que les stratégies des enfants NF1 ayant un déficit en lecture étaient transposables à celles des enfants présentant une dyslexie, et que celles du groupe d'enfants NF1 sans difficulté de lecture étaient comparables à celles des enfants au développement typique. En revanche, des spécificités à la maladie sont apparues dans la question du contrôle inhibiteur. En effet, les enfants atteints de NF1 sans déficit en lecture ont manifesté un niveau d'interférence très élevé à la tâche de Stroop par rapport à des enfants au développement typique. Les enfants atteints de NF1 ayant un déficit en lecture, en revanche, ne manifestaient pas d'effet d'interférence tout comme les enfants dyslexiques, témoignant de l'importance de la prise en compte du niveau de lecture dans l'évaluation des processus d'inhibition cognitive avec la tâche de Stroop.

La compréhension des spécificités des processus visuels sous-jacents aux difficultés de lecture dans la NF1 nous a permis de mettre en évidence des profils neuropsychologiques différents pour les NF1 avec et sans trouble de la lecture associé, questionnant ainsi les perspectives d'application clinique. Le prochain chapitre avait pour objectif d'étudier la pertinence d'un dépistage précoce des difficultés de lecture à partir de l'évaluation des processus visuels, et d'examiner l'intérêt d'un outil d'aide à l'automatisation de la lecture visant à favoriser la mise en place de stratégies de programmation saccadique optimales pour la lecture.

Chapitre 6

Dépistage et remédiation des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles nécessaires à l'acquisition de la lecture

PUBLICATIONS ASSOCIÉES

Ce chapitre est associé à une communication affichée présentant les résultats préliminaires de la partie 2, ainsi qu'à la publication d'une étude longitudinale antérieure évaluant l'intérêt du DEM-test dans l'identification, dès la maternelle, des enfants (sans NF1) à risque de présenter des difficultés ultérieures de lecture lors de son apprentissage explicite.

Vernet, M., Ducrot, S., Danna, J., & Chaix, Y. (23-24 mai 2019). Processus oculomoteurs, visuo-attentionnels et lecture chez l'enfant atteint de neurofibromatose de type 1 (NF1) : Guider l'œil pour favoriser l'apprentissage de la lecture [Présentation poster]. *Journées de Printemps de la Société de Neuropsychologie de Langue Française*, Lyon. (hal-03552328)

Vernet, M., Bellocchi, S., Leibnitz, L., Chaix, Y., & Ducrot, S. (2022). Predicting future poor readers from pre-reading visual skills: A longitudinal study. *Applied Neuropsychology: Child, 11*(3), 480–494. https://doi.org/10.1080/21622965.2021.1895790

Les résultats des chapitres 4 et 5 ont permis de mettre en évidence l'implication des processus perceptifs et visuo-attentionnels dans les difficultés de lecture fréquemment rencontrées par les enfants atteints de NF1, et de spécifier la nature des déficits de contrôle oculaire et attentionnel associés à cette maladie. L'application de ces résultats dans la pratique clinique constitue un enjeu majeur de ce travail. C'est pourquoi ce dernier chapitre vise à faire le lien entre les résultats fondamentaux obtenus dans cette thèse et leurs applications dans la démarche de soin des enfants NF1. Dans ce cadre, l'apport nos données expérimentales pourrait participer à enrichir le dépistage et la prise en charge précoce des difficultés de lecture. Dans la NF1, plusieurs études ont déjà mis en évidence l'intérêt d'un bilan des

difficultés cognitives dès la maternelle pour intervenir précocement sur la trajectoire développementale des enfants (Beaussart-Corbat et al., 2021; Brei et al., 2014; Sangster et al., 2011; Soucy et al., 2012), et plus spécifiquement, l'intérêt d'une évaluation des compétences linguistiques (i.e., conscience phonologique, mémoire de travail verbale et connaissance des lettres) pour l'identification précoce des enfants à risque de développer des difficultés de lecture au cours de son apprentissage (Arnold et al., 2018). Cette observation est cohérente avec les études montrant que ces compétences linguistiques constituent des prérequis à l'apprentissage de la lecture (chez des enfants sans maladie génétique ; Carroll et al., 2003; Lonigan et al., 2000; Parrila et al., 2004; Schatschneider et al., 2004) et qu'une intervention précoce portant sur ces compétences apparaît bénéfique, notamment chez les enfants à risque de manifester des difficultés de lecture (Lovett et al., 2017; Torgesen, 2004; Wanzek & Vaughn, 2007).

De nombreuses recherches suggèrent qu'en plus des compétences linguistiques, les processus perceptifs et visuo-attentionnels pourraient être des précurseurs importants pour l'apprentissage de la lecture. En ce sens, la méta-analyse de Kavale (1982), relatant 161 études, a souligné le lien entre les processus de perception visuelle et les performances en lecture. Les résultats ont indiqué que les compétences visuo-perceptives étaient prédictives, en particulier pendant les années préscolaires et primaires, des performances en lecture à l'école primaire. Les processus visuo-attentionnels (i.e., taille de l'empan visuo-attentionnel et balayage attentionnel gauche-droite) et les habiletés visuo-motrices expliquent également une partie de la variance des capacités de lecture après une année d'apprentissage (Bellocchi et al., 2017; Bosse et al., 2009; Facoetti et al., 2010; Plaza & Cohen, 2007; Valdois et al., 2019; Vernet et al., 2022a). Franceschini et al. (2012) ont notamment montré que les enfants présentant de faibles compétences en lecture au CP ou au CE1 commettaient plus d'erreurs dans une tâche de recherche visuelle et une tâche de repérage spatial en maternelle que les lecteurs typiques. Ces différents résultats suggèrent donc que les processus perceptifs, visuo-attentionnels et impliqués dans le guidage oculaire sont essentiels au bon développement des compétences en lecture. La première partie de ce chapitre s'est donc centré sur l'étude des prérequis perceptifs et visuo-attentionnels spécifiquement impliqués dans les difficultés de lecture.

1. Partie 1 : Dépistage précoce des difficultés de lecture

Au travers d'un protocole longitudinal suivant des enfants présentant une NF1 de la maternelle jusqu'à l'apprentissage explicite de la lecture, la première partie de ce chapitre visait (1) à décrire les profils cognitifs des enfants d'âge préscolaire atteints de NF1 (axés sur l'évaluation des processus visuels et linguistiques), et (2) à déterminer s'il était possible d'identifier dès la maternelle les enfants à risque de présenter des difficultés de lecture au cours de son apprentissage explicite.

1.1. Méthode

1.1.1. Participants[36]

Au total, huit enfants atteints de NF1 ont été inclus[37] à l'étude longitudinale du projet Help Reading NF1, tous scolarisés en grande section de maternelle (GSM), âgés entre 4 et 6 ans (âge moyen à t0 = 69.6 ± 5.1 mois ; âge moyen à t1 = 83.9 ± 4.7 mois). Parmi eux, il y avait deux filles et six garçons dont trois qui présentaient une forme familiale de la maladie (soit 37.5 %) et cinq une forme sporadique (soit 62.5 %).

La participation à cette étude a été proposée à tous les enfants suivis au Centre de Compétence pour la NF1 du CHU de Toulouse et du CHU de la Timone de Marseille, répondant aux critères diagnostiques de la NF1 conformément à la déclaration de la Conférence sur la neurofibromatose (National Institutes of Health, 1988) et aux critères d'inclusion et d'exclusion définis. Ils étaient tous droitiers, de langue maternelle française et présentaient une vue normale ou corrigée. Les enfants présentant (1) une pathologie neurologique associée (e.g., épilepsie ou tumeur cérébrale), (2) un diagnostic de déficience intellectuelle (i.e., QI total à la WPPSI-IV inférieur à 70 et/ou note standard inférieur à 7 aux subtests Similitudes et/ou Identification de concepts), (3) de trouble du spectre de l'autisme, (4) de trouble déficit de l'attention avec ou sans hyperactivité (i.e., présence d'au moins 6 symptômes d'hyperactivité et/ou d'inattention selon les critères de diagnostic du DSM-5), (5) un contexte social défavorable ou (6) prenant des traitements médicamenteux psychotropes ont été exclus de l'étude. Les consentements écrits des parents et des enfants ont été recueillis pour chaque participant inclus à l'étude.

1.1.2. Matériel

Le matériel est composé d'un ensemble de tests psychométriques évaluant respectivement les processus visuo-perceptifs, visuo-moteurs, visuo-attentionnels, de conscience phonologique et les compétences de lecture. Les différents tests utilisés sont décrits ci-dessous.

Niveau de lecture au CP. La vitesse et la précision de lecture ont été mesurées à partir du test de l'Alouette (Lefavrais, 1967, 2005) déjà présenté dans la section 1.1.2. Matériel du chapitre 4. Le test OURA LEC CP (OUtil de Repérage des Acquis en LECture des élèves en CP ; Billard et al., 2013) a également été administré aux participants dans sa version du mois de juin. Il s'agit d'un texte à lire (« Dino le Petit Dinosaure ») qui, cette fois-ci, est sémantiquement correct et contient 102 mots. (voir Annexe 5 pour une illustration de la planche de test). La tâche de l'enfant consiste à lire le texte jusqu'à ce que l'examinateur l'arrête. L'épreuve dure 1 minute. Le nombre de mots lus en 1 minute (S) et le

[36] L'inclusion des participants a été très fortement impactée par (1) les délais d'autorisations par le CPP qui nous ont permis de démarrer les inclusions seulement en janvier 2020 puis (2) les restrictions liées à la crise sanitaire à partir de mars 2020, repoussant ainsi les inclusions d'un an, le protocole étant dépendant du cycle scolaire des enfants.

[37] Plus précisément, 10 enfants ont été vus dans le cadre du protocole longitudinal. Un enfant a été exclu lors de la première journée à la suite du bilan d'inclusion pour des troubles attentionnels et d'impulsivité motrice et un second enfant a été exclu lors de la seconde journée de bilan (au CP) à la suite d'un diagnostic de TDAH et à la mise en place d'un traitement médicamenteux associé. Pour cet enfant spécifiquement, les deux bilans ont tout de même été réalisés afin qu'un compte rendu des bilans neuropsychologiques pour son suivi soit remis à la famille.

nombre d'erreurs commises (E) sont mesurés. L'indice pris en compte correspond au nombre de mots correctement lus en 1 minute (MCLM = S – E).

Processus visuo-attentionnels et de guidage oculaire (maternelle et CP). Les processus de balayage visuo-attentionnel et de guidage oculaire ont été évalués à partir du module 1 du logiciel Diaglect précédemment décrit dans la section 1.1.2. Matériel du chapitre 4. Pour l'évaluation en maternelle, le module 1 a été utilisé dans sa version destinée aux enfants scolarisés en maternelle (i.e., 4-6 ans). Celle-ci a été adaptée d'une part en réduisant le nombre de chiffres totaux dans les lignes et les colonnes, et d'autre part en ne présentant que les chiffres de 1 à 6 afin de limiter les possibles difficultés liées à la connaissance souvent ambiguë des chiffres au-delà de 6 chez les enfants de maternelle. La réévaluation en fin de CP a été réalisée avec la version élémentaire du module 1 (i.e., 7-12 ans). L'épreuve visuo-attentionnelle du logiciel VISA-kids (i.e., *VISual Attentional and perceptual evaluation for kids* ; Leibnitz, 2016; Leibnitz et al., 2015b) a également été administrée durant l'évaluation en maternelle. Il s'agit d'une tâche informatisée de recherche visuelle. Une figure d'exemple est présentée en haut de l'écran et des stimuli cibles et des distracteurs sont répartis dans un cadre en dessous de manière aléatoire ou ordonnée (en lignes). L'enfant doit cliquer sur les items identiques à la figure d'exemple[38]. Un item d'entraînement est proposé tous les 2 items afin que l'enfant puisse se familiariser avec le type de présentation (i.e., aléatoire et ordonnée) et le niveau d'analyse perceptive sur laquelle se basent les distracteurs (i.e., global et local). Deux illustrations de cette tâche sont proposées en Annexe 6. Au total, 8 essais sont réalisés (4 en présentation aléatoire et 4 en présentation ordonnée). Le nombre de réponses correctes et de fausses alarmes a été mesuré pour chaque essai et l'indicateur *d'* (i.e., score de discrimination issu de la théorie de détection du signal) a été calculé à partir de ces deux mesures afin d'avoir un indice prenant en compte la stratégie du sujet.

Processus visuo-perceptifs et visuo-moteurs (maternelle et CP). Les compétences visuo-perceptives et visuo-motrices ont été évaluées à partir du DTVP-3 (i.e., *Developmental Test of Visual Perception - 3rd edition* ; Hammill et al., 2014), précédemment décrit dans la section 1.1.2. Matériel du chapitre 4. L'épreuve analytique du logiciel VISA-kids a également été utilisée. Dans cette tâche, une figure est présentée en haut de l'écran et quatre autres figures sont affichées en dessous, dont une qui constitue une partie intégrante du modèle au-dessus et trois qui constituent des distracteurs. L'enfant devait alors retrouver la figure qui faisait partie du modèle en répondant à l'aide de touches du clavier recouvertes de gommettes correspondant aux couleurs disposées sous chaque figure. Au total, 18 items étaient réalisés par l'enfant après avoir effectué deux items de familiarisation avec la tâche. Le pourcentage de réponses correctes était mesuré.

Compétences de conscience phonologique (maternelle et CP). L'évaluation des processus de conscience phonologique a été réalisée à partir des subtests proposés dans la batterie de tests N-EEL (*Nouvelles épreuves pour l'examen du Langage* ; Chevrie-Muller & Plaza, 2001). Les subtests choisis en maternelle étaient différents de ceux proposés au CP. En maternelle, les enfants ont réalisé les trois subtests pour les enfants âgés de moins de 6 ans 6 mois : épreuve de rimes (ER), identification du phonème initial (IPI) et inversion syllabique (IS). Le subtest ER consistait à déterminer si deux mots

[38] Une tâche de contrôle moteur a également été réalisée afin de contrôler la variabilité interindividuelle de la dextérité motrice liée à la fréquence d'usage de la souris d'ordinateur. Toutefois, nous n'avons pris en compte que la précision de réponse, donc les résultats liés à cette tâche n'ont finalement pas été analysés.

énoncés par l'examinateur rimaient. Dans le subtest IPI, l'enfant devait énoncer le premier phonème d'un pseudo-mot prononcé par l'examinateur. Enfin, le subtest IS consistait à inverser les deux syllabes composant un pseudo-mot bisyllabique énoncé par l'examinateur. Les trois subtests étaient respectivement composés de 20, 12 et 10 items. Pour la réévaluation au CP, les enfants ont réalisé les 4 subtests proposés pour les enfants âgés de plus de 6 ans 6 mois : élision du phonème initial (EPI), inversion de phonèmes (IP), ajout d'un phonème initial (API) et élision du phonème final (EPF). Les épreuves EPI et EPF consistaient respectivement à supprimer le premier et le dernier phonème d'un pseudo-mot énoncé par l'examinateur. Dans le subtest IP, l'enfant devait inverser deux phonèmes composant une syllabe. Enfin, le subtest API consistait à ajouter un phonème à un pseudo-mots, tous deux énoncés par l'examinateur. Les quatre subtests étaient tous composés de 12 items, à l'exception du subtest IP qui était composé de 10 items. À noter que pour toutes les épreuves, le participant devait systématiquement répéter après l'examinateur l'item énoncé afin de s'assurer d'une bonne compréhension des mots avant la manipulation demandée[39]. Avant chaque subtest, deux items d'essais étaient administrés. Le nombre de réponses correctes par subtest était comptabilisé.

1.1.3. Procédure

Les participants ont été recrutés au sein des centres hospitaliers universitaires Purpan à Toulouse et de la Timone à Marseille. Les enfants étaient suivis longitudinalement de la GSM à la fin du CP. Les passations de bilans étaient, si possible, organisées la même journée que la consultation neuropédiatrique annuelle de suivi des enfants. Chaque participant a été vu individuellement soit au Centre d'évaluation des troubles du langage et des difficultés d'apprentissage chez l'enfant (*CRTLA*) de Toulouse, soit au Centre de Référence des Troubles d'Apprentissage (CERTA) de Marseille, dans une pièce calme et dont la luminosité a été adaptée en fonction du support des différentes tâches (i.e., papier ou numérique).

La première journée d'évaluation (lorsque les enfants étaient scolarisés en maternelle) s'est divisée en 3 séances. Les enfants bénéficiaient dans un premier temps d'un examen médical pour la vérification des critères d'inclusion[40]. Un premier bilan neuropsychologique d'environ 1 heure était ensuite réalisé afin de vérifier les autres critères d'inclusion comprenant un entretien avec la famille, deux questionnaires (i.e., inventaire des symptômes du TDAH CADDRA et inventaire de latéralité manuelle d'Edinburgh), ainsi que deux épreuves de raisonnement verbal et perceptif (i.e., subtests *Identification de concepts* et *Similitudes* de la WPPSI-IV). Les premiers tests psychométriques, notamment les subtests du logiciel VISA-kids et de la N-EEL, ont également été réalisés lors de ce premier bilan. Après une longue pause, un second bilan neuropsychologique d'environ 1 heure était réalisé afin d'administrer les autres tests psychométriques (module 1 de Diaglect et DTVP-3).

La seconde journée de bilan (lorsque les enfants étaient scolarisés au CP) était divisée en 2 séances de bilans neuropsychologiques comprenant un entretien avec la famille, la passation des tests évaluant les processus visuels (Module 1 de Diaglect et DTVP-3), phonologiques (N-EEL) et le

[39] Cette étape de vérification était d'autant plus importante en raison du port du masque obligatoire lors des bilans réalisés. De manière générale, la compréhension des consignes orales a fait l'objet d'une attention très particulière.

[40] Les consultations médicales sur le site de Toulouse ont été réalisées par le Pr Yves Chaix et celles de Marseille ont été menées par le Dr Chloé Di Meglio. Ensuite, j'ai réalisé l'ensemble des bilans neuropsychologiques sur les deux sites.

niveau de lecture des enfants (test de l'Alouette et OURA LEC CP). Les enfants ont reçu un chèque cadeau de gratification d'un montant de 50€ pour leur participation. Un compte-rendu des bilans neuropsychologiques était également transmis aux familles pour le suivi des enfants.

1.1.4. Analyses statistiques

Les analyses statistiques ont été réalisées à partir du logiciel JASP. Des tests non-paramétriques ont été utilisés en raison du non-respect des règles d'application des tests paramétriques (i.e., une distribution des données suivant une loi normale évaluée à partir du test de Shapiro-Wilk et une homogénéité des variances évaluée à partir du test de Levene). Pour les analyses, les scores-Z des variables de temps et d'erreurs ont été modifiés de sorte qu'une valeur négative représente toujours une plus faible performance qu'un score positif. Des analyses descriptives ont été réalisées pour étudier la proportion d'enfants présentant des difficultés. Deux seuils ont été étudiés : il a été considéré qu'un score pouvait refléter un déficit dans la compétence évaluée lorsqu'il était inférieur ou égal à -1.5 DS et qu'il pouvait refléter une fragilité lorsqu'il était inférieur ou égal à -1 DS. Des corrélations de Spearman ont également été menées pour étudier le lien que les performances visuo-perceptives et visuo-attentionnelles entretiennent avec les compétences de lecture. Dans ce cadre, le seuil de significativité a été fixé à $p = .05$. En raison du faible échantillon de participants, des analyses de corrélation bayésienne se basant sur le facteur de Bayes (BF_{10}) ont permis de compléter les analyses précédentes. Le facteur de Bayes permet de quantifier le ratio entre la probabilité que l'hypothèse alternative soit vérifiée et la probabilité que l'hypothèse nulle soit vérifiée. Nous avons opté pour une distribution standard de Cauchy de 1 pour les analyses et interprété les facteurs de Bayes (BF_{10}) à partir de la classification proposée par Jeffreys (1961)[41]. Enfin, deux études de cas ont été menées. Dans ce cadre, nous avons utilisé la méthode d'analyse de cas unique développée par Crawford et Garthwaite (2002) qui permet de réaliser un test de significativité (version modifiée du test-t pour échantillons indépendants) pour déterminer si le cas d'étude présente un score significativement inférieur à l'échantillon de référence. La valeur de p correspond ainsi à la probabilité qu'un individu de l'échantillon de référence obtienne un score inférieur au cas d'étude. Nous avons considéré qu'une performance était significativement inférieure à celles du groupe de référence si $p < .05$. Pour réaliser ces analyses, nous avons utilisé le programme *Singlims_ES.exe*.

1.2. Résultats

Les performances des enfants aux différents tests psychométriques en maternelle et au CP sont détaillées dans le Tableau 13.

[41] Les BF_{10} compris entre 3 et 10, compris entre 10 et 30, compris entre 30 et 100 et supérieurs à 100 sont considérés respectivement comme des preuves substantielles, fortes, très fortes et décisives pour l'hypothèse alternative. À contrario, les BF_{10} compris entre 0.10 et 0.33, compris entre 0.03 et 0.10, compris entre 0.01 et 0.03 et inférieurs à 0.01 sont considérés respectivement comme des preuves substantielles, fortes, très fortes et décisives pour l'hypothèse nulle. Un BF_{10} compris entre 0.33 et 3 ne permet pas de conclure en faveur d'une des deux hypothèses (Jeffreys, 1961).

1.2.1. Fréquence des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles en maternelle

Parmi les 8 enfants scolarisés en maternelle, 6 (soit 75.0 %) présentaient au moins un score inférieur à -1.5 DS aux épreuves évaluant les processus visuo-perceptifs, visuo-moteurs et visuo-attentionnels. Le nombre d'enfants présentant des performances dans la moyenne ou inférieures au niveau attendu est détaillé dans le Tableau 13 pour chaque indice. À noter que les profils de performances sont très variables entre les enfants.

1.2.2. Prédiction du niveau de lecture au CP

L'évaluation du niveau de lecture au CP a permis de montrer que 7 enfants (soit 87.5 %) présentaient un déficit en lecture avec au moins un indice du test de l'Alouette (i.e., CM et/ou CTL) inférieur à -1.5 DS. Plus spécifiquement, 7 enfants (soit 87.5 %) ont obtenu des scores inférieurs à -1.5 DS à l'indice CM alors que cela ne concernait aucun enfant pour CTL et seulement 1 enfant (12.5 %) pour MCLM. Lorsque l'on se base sur le seuil -1 DS, cela concernait 3 enfants (37.5 %) pour l'indice CTL, 4 enfants (50.0 %) pour l'indice MCLM et 7 enfants pour l'indice CM.

Les analyses de corrélation n'ont pas permis de mettre en évidence de lien significatif entre le niveau de lecture des enfants, que ce soit pour la vitesse (CTL et MCLM) ou la précision de lecture (CM), et les compétences visuo-perceptives, visuo-attentionnelles, visuo-motrices et phonologiques évaluées en maternelle (toutes les valeurs de p >.05). Les analyses à partir du facteur de Bayes ne permettent pas non plus de valider l'hypothèse alternative (tous les BF_{10} compris entre 0.40 et 1.40).

1.2.3. Corrélations entre les performances au CP

Les corrélations de Spearman n'ont pas révélé de lien significatif entre le niveau de lecture des enfants quel que soit l'indice (CM, CTL ou MCLM), et les compétences perceptives, visuo-attentionnelles, visuo-motrices évaluées au même moment, au CP (toutes les valeurs de p >.05). Les analyses à partir du facteur de Bayes ne permettent pas non plus de valider l'hypothèse alternative (tous les BF_{10} compris entre 0.40 et 1.90). Des corrélations significatives sont apparues entre la vitesse de lecture et certains indices de conscience phonologique. Plus précisément, l'indice MCLM s'est révélé être corrélé à l'indice EPI [r(7) = .71, p = .048], et l'indice de lecture CTL aux indices API [r(7) = .74, p = .035] et EPF [r(7) = .77, p = .025]. Une différence marginale est également à noter entre l'indice de précision de lecture (CM) et l'indice EPF [r(7) = .67, p = .066]. De manière générale, moins les compétences phonologiques étaient développées, moins les compétences en lecture étaient efficientes. Cette idée reste à nuancer au regard des indices qui se sont révélés être liés entre eux. Les analyses à partir du facteur de Bayes ne permettent pas de valider l'hypothèse alternative (tous les BF_{10} compris entre 0.40 et 1.60) à l'exception du lien entre CTL et EPF qui reste toutefois substantiel (BF_{10} = 4.463).

Le fait de ne pas observer de corrélation entre le niveau de lecture au CP et les autres processus cognitifs évalués en maternelle ou au CP que ce soit avec une méthode statistique fréquentiste ou bayésienne n'est pas surprenant face à la fréquence très élevée des difficultés de lecture dans notre échantillon. Cette fréquence n'est, en effet, pas du tout représentative de la population générale des enfants atteints de NF1 dans laquelle près de 50 % d'entre eux présentent un déficit en lecture. Dans cette étude, la quasi-totalité des enfants manifeste un déficit en lecture, au moins en précision de

lecture, et bien qu'il existe une variabilité dans le niveau de lecture, les performances se situent presque toutes au-delà du seuil déficitaire défini. Nous avons ainsi fait le choix de présenter et de détailler deux profils spécifiques que nous trouvions intéressants pour améliorer la prise en charge clinique.

Tableau 13. Caractéristiques démographiques et performances aux tests psychométriques des huit enfants atteints de NF1 en maternelle et au CP.

Variables	Performances du groupe		Fréquence de difficultés à t0		
	t0 M (ET)	t1 M (ET)	> -1 DS n (%)	≤ -1 DS n (%)	≤ -1.5 DS n (%)
Démographiques					
Age *(mois)*	69.63 (5.13)	83.88 (4.70)	-	-	-
NSE moyen *(années)*	12.69 (1.10)	-	-	-	-
Test de l'Alouette					
CM *(score-Z)*	-	-3.38 (2.22)	-	-	-
CTL *(score-Z)*	-	-0.73 (0.56)	-	-	-
OURA LEC					
MCLM	-	-0.83 (0.68)	-	-	-
Module 1 Diaglect					
VT *(score-Z)*	-0.47 (1.40)	-1.05 (0.97)	7 (87.50)	1 (12.50)	1 (12.50)
HTaj *(score-Z)* [a]	-1.11 (1.74)	-0.72 (0.68)	4 (50.00)	4 (50.00)	3 (37.50)
HE *(score-Z)* [a]	-2.02 (2.24)	-1.00 (1.34)	3 (37.50)	5 (62.50)	5 (62.50)
DTVP-3					
VMI *(NC)*	87.25 (10.36)	88.37 (10.45)	4 (50.00)	4 (50.00)	2 (25.00)
MVP *(NC)*	95.87 (8.48)	94.87 (10.93)	8 (100.00)	0 (0.00)	0 (0.00)
GVP *(NC)*	92.62 (9.18)	92.00 (8.85)	6 (75.00)	2 (25.00)	0 (0.00)
VISA-kids					
Vatt *(score-Z)*	-1.46 (1.63)	-	3 (37.50)	5 (62.50)	5 (62.50)
Vana *(score-Z)*	-2.18 (2.07)	-	4 (50.00)	4 (50.00)	4 (50.00)
N-EEL					
ER *(score-Z)*	-0.14 (0.84)	-	7 (87.50)	1 (12.50)	0 (0.00)
IPI *(score-Z)*	0.22 (1.28)	-	7 (87.50)	1 (12.50)	0 (0.00)
IS *(score-Z)*	-0.43 (1.26)	-	3 (37.50)	5 (62.50)	0 (0.00)
EPI *(score-Z)*	-	-1.00 (1.14)	-	-	-
IP *(score-Z)*	-	-0.21 (1.30)	-	-	-
API *(score-Z)*	-	-1.02 (1.27)	-	-	-
EPF *(score-Z)*	-	-0.57 (1.35)	-	-	-

Notes. t0 : évaluation en maternelle : t1 : évaluation en fin de CP ; NSE : Niveau socio-éducatif moyen des parents ; CM : précision de lecture ; CTL : vitesse de lecture ; MCLM : nombre de mots correctement lus en 1 minute ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales ; VMI : indice d'intégration visuo-motrice ; MVP : indice de perception visuelle avec implication motrice réduite ; GVP : indice de perception visuelle générale ; NC : note composite ; Vatt : épreuve visuo-attentionnelle ; Vana : épreuve analytique ; ER : épreuve de rimes ; IPI : identification du phonème initial ; IS : inversion syllabique ; EPI : élision du phonème initial ; IP : inversion de phonèmes ; API : ajout d'un phonème initial et EPF : élision du phonème final. [a] n = 7 à t0.

1.2.4. Étude de cas n°1 : difficultés visuo-motrices et visuo-attentionnelles en GSM associées à un déficit en précision de lecture au CP

1.2.4.1. Présentation

GC était âgé de 72 mois au moment du premier bilan neuropsychologique en maternelle et de 90 mois au moment de l'évaluation du niveau de lecture en fin de CP. Sur le plan scolaire, en maternelle, les parents ne rapportaient aucune difficulté particulière tandis qu'au CP l'écriture et la lecture sont apparues plus difficiles notamment dans la gestion des lignes et la vitesse d'exécution : GS privilégiait systématiquement la rapidité au détriment de la précision selon les parents. Concernant les suivis et prises en charge, GC bénéficiait d'un suivi neuropédiatrique annuel dans le cadre de la NF1 à l'hôpital des enfants de Toulouse. En maternelle, un suivi orthophonique était mis en place deux fois par semaine pour un trouble articulatoire et une prise en charge psychomotrice était également effectuée à raison de deux séances par semaine pour des difficultés de motricité fine. En fin de CP, les prises en charge étaient toujours réalisées, mais à une fréquence réduite à une fois par semaine suite à la mise en place d'une prise en charge orthoptique. À noter que GC ne présentait pas de déficit visuel ni auditif primaires. L'alimentation et le sommeil étaient également sans particularité.

Au cours des deux bilans, GC s'est montré volontaire et coopératif dans l'ensemble des tâches proposées même lorsque celles-ci paraissaient s'accompagner d'un coût cognitif important. Sur le plan langagier, malgré ses difficultés articulatoires rendant parfois son discours peu intelligible, GC réussissait sans difficulté à se faire comprendre et a accepté de répéter lorsque cela était nécessaire. La compréhension des consignes n'a présenté aucune difficulté particulière. En maternelle, des fluctuations attentionnelles étaient observées à la fin de chaque séance, mais il est parvenu à se saisir de l'étayage de l'adulte pour finaliser les exercices en cours. Au CP, ce phénomène a disparu mais GC manifestait une anxiété de performance notamment dans la vitesse d'exécution des tâches.

1.2.4.2. Évaluation à t0 (en maternelle)

Les résultats des performances de GC au bilan réalisé en maternelle sont illustrés dans la Figure 17 et les résultats des analyses de Crawford et Garthwaite (2002) sont présentés dans le Tableau **14**. L'évaluation a permis de montrer que GC présentait, en maternelle, des performances dans la moyenne des enfants de son âge en perception visuelle au DTVP-3 (MVP - note composite = 88), mais des difficultés dans les compétences visuo-motrices (VMI - note composite = 76). Les analyses de Crawford et Garthwaite (2002) ont, en ce sens, révélé que GC présentait des scores significativement plus faibles aux deux subtests impliquant les compétences visuo-motrices par rapport à l'échantillon normatif[42]. Plus précisément, GC manifestait des difficultés à tracer une ligne entre deux contours et à reproduire des figures simples à partir d'un modèle. Au module 1 de Diaglect, GC présentait des résultats dans la moyenne aux indices de vitesse, VT (score-Z = 0.07 DS) et HTaj (score-Z = -0.19 DS), sans différence significative avec l'échantillon normatif. Toutefois, il a obtenu un nombre d'erreurs très supérieur aux enfants de même niveau scolaire (HE - score-Z = -3.42 DS), avec une différence hautement significative par rapport à l'échantillon de référence. GC a commis de

[42] Les analyses de Crawford et Garthwaite (2002) pour les performances au DTVP-3 ont été réalisées pour chaque subtest individuellement et non à partir des indices généraux (VMI, MVP et GVP) en raison de la disponibilité des moyennes et écart-types pour chaque groupe d'âge uniquement pour les subtests.

nombreuses omissions de chiffres et de multiples sauts de lignes. GC était en grande difficulté pour effectuer un balayage visuo-attentionnel gauche-droite dans une tâche mimant une situation de lecture en maternelle. Ses résultats au logiciel VISA-kids allaient également dans le sens de difficultés visuo-attentionnelles, montrant des performances très en dessous du niveau attendu aux deux indices pris en compte : Vana (score-Z = -4.69 DS) et Vatt (score-Z = -1.83 DS), avec des performances significativement plus faibles par rapport aux données normatives. Il est important de noter que dans l'épreuve visuo-attentionnelle, GC a commis un nombre de fausses alarmes (FA) plus important lorsque le niveau d'analyse perceptive sur lequel se basaient les distracteurs nécessitait un traitement global (FA = 14) plutôt que local (FA = 4). Les résultats aux indices Vana et Vatt témoignent ainsi de difficultés d'attention sélective et de déploiement des ressources attentionnelles à un niveau d'analyse pertinent pour la tâche en cours. Enfin, sur le plan phonologique, GC ne présentait pas de difficulté particulière en maternelle : aucun score de conscience phonologique n'est apparu significativement différent de l'échantillon normatif.

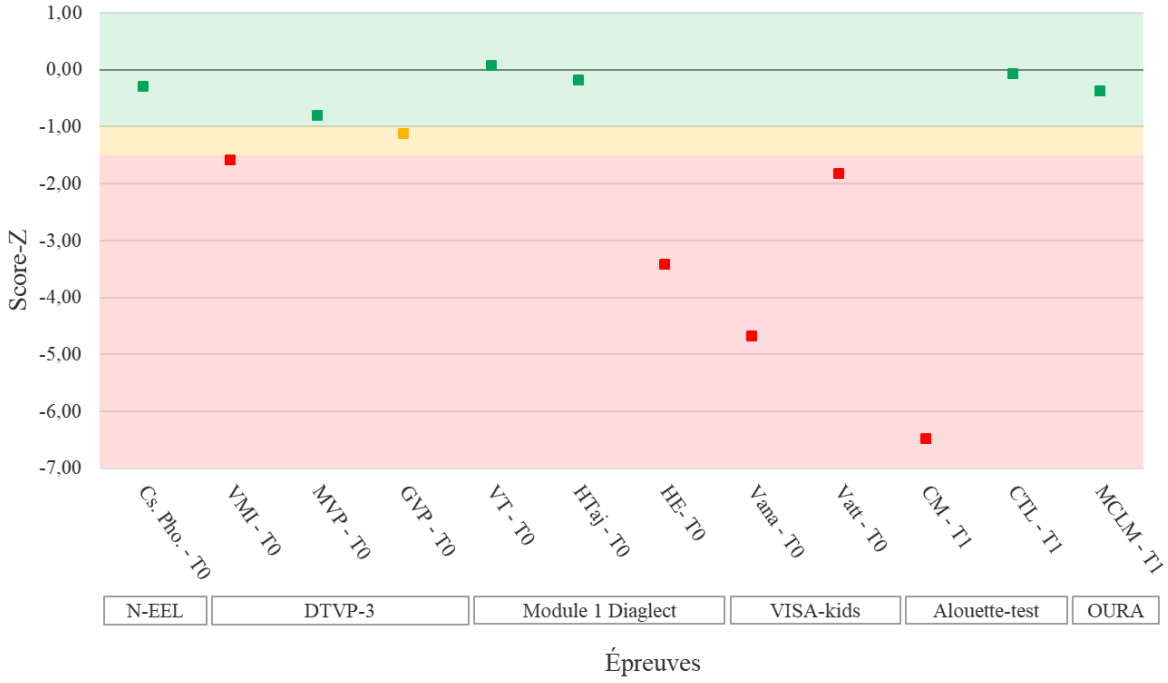


Figure 17. Profil de performances de GC aux différentes épreuves réalisées en maternelle et au CP.

Notes. Les notes composites des indices du DTVP-3 ont été converties en scores-Z afin d'être comparées aux autres indices évalués. Un indice de conscience phonologique a été calculé à partir de la moyenne des différents scores obtenus à la N-EEL. Cs. Pho. : conscience phonologique ; VMI : indice d'intégration visuo-motrice ; MVP : indice de perception visuelle avec implication motrice réduite ; GVP : indice de perception visuelle générale ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales ; Vana : épreuve analytique ; Vatt : épreuve visuo-attentionnelle ; CM : précision de lecture ; CTL : vitesse de lecture ; MCLM : nombre de mots correctement lus en 1 minute.

Tableau 14. Performances brutes de GC aux tests psychométriques en maternelle et résultats des analyses de comparaisons de Crawford et Garthwaite (2002) par rapport aux données normatives.

Variables	Normes *(6;0 ans ou GSM)*		Cas GC		
	M (ET)	n	Score brut	t	P
Module 1 Diaglect					
VT	64 802 (18 349)	165	63 603	-0.065	0.474
HTaj	98 098 (35 850)	165	104 780	0.186	0.426
HE	11.87 (9.40)	165	44	3.408	**<.001**
DTVP-3					
Discrimination figure-fond	43 (11)	120	28	-1.358	0.089
Complétion visuelle	11 (4)	120	8	-0.747	0.228
Constance de forme	31 (7)	120	30	-0.142	0.444
Coordination visuo-motrice	160 (20)	120	117	-2.141	**0.017**
Copie	22 (5)	120	13	-1.793	**0.038**
VISA-kids					
Vana	85.99 (8.85)	71	44.44	-4.662	**<.001**
Vatt	3.27 (0.60)	71	2.17	-1.821	**0.036**
N-EEL					
ER	14.55 (3.51)	93	14	-0.156	0.438
IPI	8.48 (2.56)	93	10	0.591	0.278
IS	5.05 (3.84)	91	0	-1.308	0.097

Notes. GSM : grande section de maternelle ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales ; Vatt : épreuve visuo-attentionnelle ; Vana : épreuve analytique ; ER : épreuve de rimes ; IPI : identification du phonème initial ; IS : inversion syllabique ; les effets significatifs apparaissent en caractères gras.

1.2.4.3. Évaluation du niveau de lecture à t1 (en fin de CP)

Les résultats de l'évaluation du niveau de lecture au CP ont montré que GC présentait d'importantes difficultés dans l'apprentissage de la lecture et plus spécifiquement en précision de lecture (voir Figure 17 et Tableau 15). Alors qu'il a obtenu des scores de vitesse dans la moyenne (CTL - score-Z : -0.07 DS ; MCLM - score-Z : -0.37 DS), GC présentait une précision de lecture très en-dessous du niveau attendu pour son niveau scolaire (CM - score-Z : -6.48 DS). Les analyses de Crawford et Garthwaite (2002) ont confirmé ce résultat en montrant que la performance de GC en précision de lecture était significativement altérée par rapport aux données normatives (voir Tableau 15). Ces difficultés de lecture sont à mettre en lien avec une stratégie inefficace de rapidité de lecture au détriment de la précision, aboutissant à la lecture erronée de nombreux mots réguliers et irréguliers. Une dissociation entre la vitesse et la précision de lecture a d'ailleurs été mise en évidence à partir de la méthode de Crawford et al. (2010) avec le programme *Dissocs_ES.exe*[43] [t(99) = 5.922, p <.001 ;

[43] Pour étudier la question de la dissociation, les moyennes, écart-types ainsi que la corrélation entre les deux scores au sein de l'échantillon de référence sont nécessaires. Or dans le manuel du test de l'Alouette, la corrélation entre les performances à CM et CTL n'est pas fournie. Nous avons donc pris les données de 100 enfants scolarisés en classe de CP et recrutés dans le cadre du projet Diaglect. Les moyennes et écarts-types restaient similaires à ceux disponibles dans le manuel (CM : M = 83.63 et ET = 10.29 ; CTL : M = 94.25 et ET = 45.69). La corrélation entre CM et CTL est hautement significative [r(99) = .663, p <.001]. À noter que les comparaisons de Crawford et Garthwaite (2002) entre les scores de GC et ceux de l'échantillon de référence avec ces données ont montré des résultats équivalents à ceux précédemment exposés.

taille d'effet (Z-DCC) = -6.010]. Il est important de noter que GC a commis de nombreux sauts de mots et de lignes et mis en place une stratégie de doigt curseur qui ne s'est pas révélée efficace : GC positionnait parfois son doigt au-dessus ou en-dessous des lignes et n'allait pas systématiquement au bout des lignes. Ses difficultés en précision de lecture étaient également majorées par son trouble articulatoire ainsi qu'une grande anxiété de performance.

1.2.4.4. Conclusion sur le profil

L'étude du profil de GC en maternelle a permis de mettre en évidence des difficultés visuo-perceptives (de traitement local), visuo-motrices et visuo-attentionnelles (d'attention sélective et de balayage visuel gauche-droite). Les compétences phonologiques étaient, quant à elles, préservées. Au CP, alors que la vitesse de lecture était préservée, un déficit en précision a été mis en évidence. Bien que ses difficultés soient majorées par un trouble articulatoire et par une grande anxiété de performance, elles peuvent être mises en lien avec les difficultés perceptives et visuo-attentionnelles rapportées en maternelle. En effet, les différents processus visuels dans lesquels GC présentait des performances déficitaires en maternelle ont déjà été identifiés comme étant des prédicteurs du niveau de lecture des enfants (sans maladie génétique) au cours de leur apprentissage (Bellocchi et al., 2017; Bosse et al., 2009; Facoetti et al., 2010; Plaza & Cohen, 2007; Valdois et al., 2019; Vernet et al., 2022a). Plus spécifiquement, les difficultés visuo-motrices, probablement en lien avec les difficultés de motricité fine prises en charge en psychomotricité, pourraient avoir un impact sur l'apprentissage de la lecture en limitant l'intégration multimodale des codes orthographiques (Suggate et al., 2018). Le déficit repéré dans le traitement local pourrait également expliquer des difficultés de décodage grapho-phonologique dans la lecture de nouveaux mots réguliers dans les tests réalisés. Il semblerait que les difficultés ne soient pas spécifiques à un niveau d'analyse perceptive particulier. En effet, lorsque l'on s'intéresse à l'épreuve visuo-attentionnelle, GC présentait un taux de fausses alarmes plus important lorsque le niveau d'analyse perceptive sur lequel se basaient les distracteurs nécessitait le déploiement des ressources attentionnelles à un niveau global plutôt qu'à un niveau local. Il semblerait donc que la capacité à adapter le déploiement des ressources attentionnelles en fonction du niveau d'analyse perceptive pertinent pour la tâche ne soit pas efficiente. Ainsi, GC pourrait avoir des difficultés à adapter son focus attentionnel en fonction du traitement mis en place pour la lecture (i.e., décodage grapho-phonologique pour les mots inconnus et traitement lexical pour les mots dont les codes orthographiques sont déjà stockés en mémoire). Enfin, les difficultés de balayage visuel gauche-droite peuvent expliquer les nombreux sauts de mots et lignes et pourraient ainsi se traduire par une programmation saccadique peu efficace et/ou un contrôle attentionnel inefficient, ne lui permettant pas d'inhiber les chiffres des lignes supérieures et inférieures. De manière générale, le cas de GC a permis de mettre en évidence l'intérêt clinique de l'évaluation précoce des processus visuo-moteurs et visuo-attentionnels pour un repérage dès la maternelle d'un risque de présenter des difficultés dans l'apprentissage de la lecture un an plus tard. Ce repérage systématique permettrait de mettre en place une prise en charge adaptée aux profils cognitifs de l'enfant afin de prévenir l'émergence de difficultés de lecture.

Tableau 15. Performances brutes de GC aux tests de lecture au CP et résultats des analyses de comparaisons de Crawford et Garthwaite (2002) par rapport aux données normatives.

Variables	Normes *(CP)*		Cas GC		
	M (ET)	n	Score brut	t	P
Test de l'Alouette					
CM	85 (9)	26	26.64	-6.799	**<.001**
CTL	69 (34)	26	66.62	-0.069	0.473
OURA LEC					
MCLM	43.0 (25.9)	728	37	-0 .232	0.408

Notes. CM : précision de lecture ; CTL : vitesse de lecture ; MCLM : nombre de mots correctement lus en 1 minute ; les effets significatifs apparaissent en caractères gras.

1.2.5. Étude de cas n°2 : difficultés oculomotrices sans difficulté de lecture associée

1.2.5.1. Présentation

SN était âgé de 67 mois au moment du premier bilan neuropsychologique en maternelle et de 78 mois au moment de l'évaluation du niveau de lecture en fin de CP. Sur le plan scolaire, les parents ne rapportaient pas de difficultés spécifiques que ce soit dans les prérequis linguistiques à la lecture en maternelle ou dans l'apprentissage de la lecture au CP. Concernant les suivis et prises en charge, SN bénéficiait de suivis neuropédiatrique et ophtalmologique annuels dans le cadre de la NF1 à l'hôpital des enfants de Toulouse. Aucune prise en charge n'était mise en place par ailleurs au moment des bilans. SN ne présentait pas de déficit visuel ni auditif primaires. L'alimentation et le sommeil étaient également sans particularité. Au cours des deux bilans, SN s'est montré investi dans les différents exercices proposés. Des fluctuations attentionnelles ont été observées en maternelle notamment lors du bilan de l'après-midi, nécessitant un étayage de l'adulte pour finaliser les tâches en cours. D'un point de vue clinique, une grande amélioration des capacités d'attention soutenue était à noter lors du bilan au CP. Par ailleurs, la compréhension et l'expression orale sont apparues sans difficulté.

1.2.5.2. Évaluation à t0 (en maternelle)

Les résultats des performances de SN au bilan réalisé en maternelle sont illustrés dans la Figure 18 et ceux des analyses de Crawford et Garthwaite (2002) sont présentés dans le Tableau 16. L'évaluation a permis de montrer que SN présentait, en maternelle, des performances dans la moyenne dans les compétences visuo-perceptives (avec et sans implication motrice) au DTVP-3 (VMI - note composite : 91 ; MVP - note composite : 88 ; GVP - note composite : 89), dans les compétences d'attention sélective à VISA-kids (Vatt - score-Z : 0.29 DS) et dans les compétences phonologiques à la N-EEL (ER - score-Z : 0.41 DS ; IPI - score-Z : 0.59 DS ; IS - score-Z : 0.77 DS). Les analyses de Crawford et Garthwaite (2002) ont permis de confirmer ce résultat en montrant que les performances de SN à l'ensemble de ces indices n'étaient pas significativement plus faibles par rapport à l'échantillon de référence. Au module 1 de Diaglect, SN présentait également des résultats dans la moyenne dans le temps de dénomination en suivi vertical (VT - score-Z = -0.31 DS). En revanche, le balayage visuel gauche-droite en suivi de lignes est apparu plus difficile avec un temps de dénomination ajusté dans la moyenne faible (HTaj - score-Z = -1.23 DS) et un nombre d'erreurs très supérieur à ce qui était attendu pour son niveau scolaire (HE - score-Z = -3.95 DS). La différence avec

l'échantillon de référence a été identifiée comme étant hautement significative pour l'indice HE. La majorité des erreurs étaient des répétitions de chiffres et des erreurs de guidage oculaire. Le suivi des lignes sans la mise en place d'une stratégie de doigt curseur apparaissait difficile. SN dénommait ainsi les chiffres de proche en proche en incluant certains chiffres des lignes supérieures ou inférieures. Enfin, SN manifestait également des difficultés dans le traitement des informations à un niveau local et a obtenu une précision de réponse à la tâche de traitement analytique de VISA-kids significativement plus faible par rapport à l'échantillon de référence.

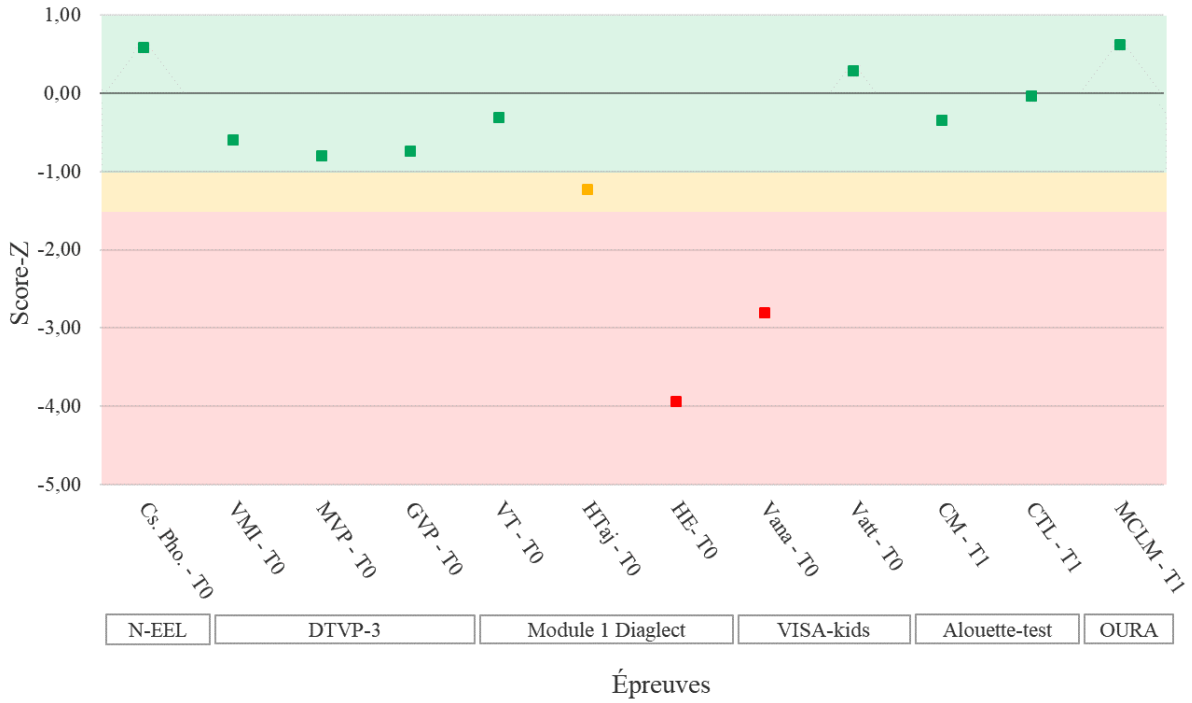


Figure 18. Profil de performances de SN aux différentes épreuves réalisées en maternelle et au CP.

Notes. Les notes composites des indices du DTVP-3 ont été converties en scores-Z afin d'être comparées aux autres indices évalués. Un indice de conscience phonologique a été calculé à partir de la moyenne des différents scores obtenus à la N-EEL. Cs. Pho. : conscience phonologique ; VMI : indice d'intégration visuo-motrice ; MVP : indice de perception visuelle avec implication motrice réduite ; GVP : indice de perception visuelle générale ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales ; Vana : épreuve analytique ; Vatt : épreuve visuo-attentionnelle ; CM : précision de lecture ; CTL : vitesse de lecture ; MCLM : nombre de mots correctement lus en 1 minute.

1.2.5.3. Évaluation du niveau de lecture à t1 (en fin de CP)

Lors de l'évaluation en fin de CP, SN présentait des compétences de lecture dans la moyenne pour son niveau scolaire (voir Figure 18 et Tableau 17), que ce soit en précision (CM - score -Z : -0.34 DS) ou en vitesse de lecture (CTL - score-Z : -0.03 DS ; MCLM - score-Z : 0.63 DS). Les analyses de Crawford et Garthwaite (2002) n'ont pas révélé de différences significatives par rapport à l'échantillon de référence. Les résultats détaillés sont présentés dans le Tableau 17. Il est important de noter que durant les deux tests SN a mis en place une stratégie de doigt curseur mais qu'il a tout de même commis un saut de ligne durant le test de l'Alouette (sur 11 lignes au total). Ces deux observations peuvent être mises en lien avec les difficultés de guidage oculaire et de balayage attentionnel précédemment décrites (HE).

Tableau 16. Performances brutes de SN aux tests psychométriques en maternelle et résultats des analyses de comparaisons de Crawford et Garthwaite (2002) par rapport aux données normatives.

Variables	Normes *(5;7 ans ou GSM)*		Cas SN		
	M (ET)	n	Score brut	t	p
Module 1 Diaglect					
VT	64 802 (18 349)	165	70 564	0.313	0.377
HTaj	98 098 (35 850)	165	142 343	1.23	0.110
HE	11.87 (9.40)	165	49	3.938	**<.001**
DTVP-3					
Discrimination figure-fond	39 (11)	113	30	-0.815	0.209
Complétion visuelle	9 (3)	113	8	-0.332	0.370
Constance de forme	30 (6)	113	25	-0.830	0.204
Coordination visuo-motrice	144 (28)	113	111	-1.173	0.122
Copie	16 (5)	113	19	0.597	0.276
VISA-kids					
Vana	85.99 (8.85)	71	61.11	-2.792	**0.003**
Vatt	3.27 (0.60)	71	3.45	0.298	0.383
N-EEL					
ER	14.55 (3.51)	93	16	0.411	0.341
IPI	8.48 (2.56)	93	10	0.591	0.278
IS	5.05 (3.84)	91	8	0.764	0.223

Notes. GSM : grande section de maternelle ; VT : temps vertical ; HTaj : temps horizontal ajusté ; HE : erreurs horizontales ; Vatt : épreuve visuo-attentionnelle ; Vana : épreuve analytique ; ER : épreuve de rimes ; IPI : identification du phonème initial ; IS : inversion syllabique ; les effets significatifs apparaissent en caractères gras.

Tableau 17. Performances brutes de SN aux tests de lecture au CP et résultats des analyses de comparaisons de Crawford et Garthwaite (2002) par rapport aux données normatives.

Variables	Normes *(CP)*		Cas SN		
	M (ET)	n	Score brut	t	p
Test de l'Alouette					
CM	85 (9)	26	81.93	-0.335	0.370
CTL	69 (34)	26	68	-0.029	0.489
OURA LEC					
MCLM	43.0 (25.9)	728	56	0.520	0.301

Notes. CM : précision de lecture ; CTL : vitesse de lecture ; MCLM : nombre de mots correctement lus en 1 minute.

1.2.5.1. Conclusion sur le profil

Pour résumer, SN présentait au CP des performances en lecture tout à fait dans la moyenne au regard de son niveau scolaire. Pourtant, en maternelle des difficultés avaient été repérées à la fois dans le balayage gauche-droite en suivi de lignes et dans le traitement des informations visuelles à un niveau d'analyse perceptive locale. Les difficultés repérées dans le suivi de lignes au travers d'un nombre d'erreurs de guidage oculaire très élevé peuvent être expliquées par des difficultés oculomotrices,

s'observant lorsque le suivi du doigt n'est pas autorisé et que les espaces inter-caractères sont variables. À noter qu'à la suite du second bilan, un suivi orthoptique a été mis en place. Par ailleurs, bien que deux études aient suggéré la présence d'un biais d'analyse perceptive en faveur du niveau de traitement local dans la NF1 (Bulgheroni et al., 2019; Payne et al., 2017), SN présentait lors du bilan en maternelle un déficit dans l'analyse perceptive locale. Cette difficulté aurait pu avoir des répercussions sur le décodage grapho-phonologique nécessaire à la lecture de mots nouveaux, mais SN n'a pas manifesté de difficultés dans cette compétence. Cela pourrait en partie s'expliquer par le fait que les compétences de conscience phonologique étaient par ailleurs efficaces et qu'une stratégie d'analyse perceptive en faveur du traitement global pourrait être privilégiée par SN, stratégie adaptée pour le passage vers un traitement lexical des mots écrits et ainsi l'automatisation de la lecture.

De manière générale, les difficultés rapportées en maternelle ont pu être compensées à la fois par le biais des processus phonologiques, visuo-perceptifs et d'attention sélective pleinement développés, mais aussi par la mise en place de stratégies compensatoires (e.g., stratégie de doigt curseur). Le cas de SN met en évidence que des difficultés dans certains processus visuels spécifiques repérées en maternelle peuvent, dans certains cas, ne pas avoir de répercussions directes sur l'apprentissage de la lecture. Cela témoigne de la distinction entre les déficits de bas niveau purement orthoptiques[44] et les difficultés perceptives et visuo-attentionnelles impliquées dans l'activité de lecture. Malgré tout, il reste important de les repérer afin de rester vigilant quant aux complications qui peuvent émerger de ces déficits, comme des difficultés en mathématiques (notamment en géométrie et dans le respect des lignes dans les calculs posés) et plus généralement, une fatigue oculaire, une fatigabilité accrue de l'enfant ou encore des maux de tête.

1.3. Synthèse des résultats

L'étude des profils cognitifs en maternelle a permis de montrer que près de 75 % des enfants de notre échantillon présentaient à l'âge préscolaire des difficultés dans au moins un des processus visuels évalués. Plus précisément, les processus visuo-attentionnels impliqués dans la recherche de cibles et le balayage visuel gauche-droite sont apparus très fréquemment affectés en maternelle. Toutefois, au regard de la taille de notre cohorte (8 enfants), les analyses statistiques n'ont pas permis d'identifier de lien entre ces difficultés en maternelle et l'émergence d'un déficit en lecture un an plus tard au CP. Ce résultat ne va pas dans le sens de nos hypothèses et des études précédentes auprès d'enfants sans maladie génétique associée ou atteints de NF1 (e.g., Arnold et al., 2018; Bellocchi et al., 2017; Franceschini et al., 2012; Valdois et al., 2019; Vernet et al., 2022a). Une explication possible concerne la grande variabilité des profils cognitifs qui est l'une des caractéristiques principales de cette maladie, pouvant ainsi limiter la sélection d'un groupe de participants représentatif de la population avec un faible effectif (n = 8). Cette idée est cohérente avec le fait que, dans notre échantillon, 7 enfants sur 8 présentent un déficit en lecture (soit 87.5 % des enfants) alors que chez les enfants atteints de NF1 de manière générale la prévalence des difficultés en lecture concerne environ 50 % des enfants (Chaix et al., 2017; Orraca-Castillo et al., 2014; Watt et al., 2008). De plus, lorsqu'on s'intéresse aux profils des

[44] Troubles orthoptiques est utilisé dans ce cadre pour parler des déficits oculomoteurs de bas niveau (e.g., motilité et poursuite oculaire) et des troubles de la vision binoculaire incluant notamment les phénomènes de vergence.

enfants au CP, aucun lien significatif n'est retrouvé entre les performances en lecture et les tâches perceptives et visuo-attentionnelles, contrairement à ce qui était attendu au regard des résultats obtenus dans le chapitre 4 auprès de deux échantillons avec des effectifs plus importants (n = 16 et n = 42) et présentant une fréquence de difficultés de lecture cohérente avec la littérature. Face à cette observation, deux études de cas nous ont permis de dégager des profils spécifiques d'enfants, soulevant l'intérêt clinique d'une évaluation précoce des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles. Plus spécifiquement, elles nous ont permis d'identifier que dans des profils cliniques spécifiques, les difficultés visuelles repérées en maternelle peuvent à la fois (1) expliquer en partie les difficultés d'apprentissage de la lecture observées au CP, mais (2) également être associées à d'autres difficultés (e.g., troubles orthoptiques) n'ayant pas nécessairement d'incidence directe sur l'apprentissage de la lecture, si les autres processus impliqués sont efficaces.

2. Partie 2 : Évaluation d'un outil d'aide à la lecture

Identifier le rôle des compétences visuelles dans l'apprentissage de la lecture permet de développer des remédiations à l'aide d'outils cliniques adaptés au profil cognitif des enfants atteints de NF1 et de les mettre en place précocement, avant que le retard de lecture ne devienne trop important. Dans ce cadre, certains outils basés notamment sur les processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels (e.g., empan visuo-attentionnel et détection du mouvement), au travers par exemple de jeux vidéo d'action, ont déjà fait l'objet d'études et ont montré leur efficacité (e.g., Caldani et al., 2020; Ebrahimi et al., 2022; Franceschini et al., 2015; Pasqualotto et al., 2022; Peters et al., 2019; Zoubrinetzky et al., 2019). En revanche, à notre connaissance, aucun outil mis à disposition des cliniciens ne s'est axé directement sur l'efficience de la programmation saccadique en lecture et notamment, sur la précision de la position d'atterrissage du regard dans les mots pour le traitement des mots écrits.

Au cours de la première année d'apprentissage, très rapidement le contrôle oculaire s'adapte au traitement des mots écrits avec l'émergence de la PVL en parallèle de la mise en place d'une stratégie optimale de traitement lexical et visuo-attentionnel pour la lecture de mots (Aghababian & Nazir, 2000; Ducrot et al., 2013; Huestegge et al., 2009). Tout comme le lecteur expert, la position d'arrivée des saccades du jeune lecteur (ayant automatisé la lecture) est en partie guidée par les informations visuelles de bas niveau prises en compte lors du prétraitement parafovéal incluant notamment l'espacement entre les caractères (Bellocchi et al., 2019; Ducrot et al., 2013; Joseph et al., 2009). Toutefois, les lecteurs débutants et les lecteurs dyslexiques apparaissent davantage influencés par la nature linguistique des stimuli pour la programmation saccadique (Bellocchi et al., 2019; Bellocchi, Mancini, et al., 2013). Les résultats de la partie 1 du chapitre 5 ont montré que les mêmes spécificités étaient observées entre les enfants NF1 avec et sans déficit en lecture. Nous avons également pu identifier trois clusters d'enfants en fonction de la fréquence de distribution des ILPs, avec une fréquence de distribution des positions d'arrivée des saccades préférentiellement au début du mot ou instable (répartie autour du centre du mot) pour les deux clusters présentant les niveaux de lecture les plus faibles. Ainsi un outil favorisant le positionnement du regard au niveau de la PVL dans les mots pourrait aider à l'automatisation de la lecture. Les résultats de l'étude de Lehtimäki et Reilly (2005)

ont appuyé cette idée en montrant que les apprentis lecteurs étaient capables d'améliorer leur programmation saccadique vers la PVL par le biais d'un entraînement fournissant un feed-back en temps réel sur la position de leurs fixations. Un moyen intéressant pour attirer le regard vers la PVL est d'augmenter la saillance visuelle de la lettre située à cette position. En effet, des études ont déjà montré qu'une saillance visuelle plus importante des informations situées en parafovéa pouvait faciliter la programmation saccadique et réduire les erreurs de guidage oculaire (Marx et al., 2015; Slattery & Vasilev, 2019; Van Zoest & Donk, 2005), bien que cet effet ne soit plus observé chez le lecteur expert atterrissant déjà systématiquement à la PVL (Hohenstein et al., 2010). Face à ce constat et aux spécificités du contrôle oculaire observées chez les enfants atteints de NF1 rencontrant des difficultés de lecture, l'objectif de cette étude était d'examiner l'intérêt d'un outil clinique d'aide à l'automatisation de la lecture basé sur l'optimisation des stratégies de programmation saccadique, par le biais d'une manipulation de la saillance visuelle de la lettre située à la PVL d'un mot en parafovéa.

2.1. Méthode

2.1.1. Participants

Au total, 15 enfants atteints de NF1 ont participé à cette seconde étude (6 filles et 9 garçons ; âge moyen = 94.0 ± 7.7 mois). Ces enfants ont été inclus dans le protocole transversal de l'étude Help Reading NF1. Ainsi, les critères d'inclusion et d'exclusion sont identiques à ceux précédemment décrits dans la section 1.1.1. Participants du chapitre 4[45].

2.1.2. Matériel

Le matériel présenté à l'écran était constitué de 240 items répartis équitablement dans 3 conditions expérimentales définies par la manipulation de la lettre située à la PVL : mise en couleur, mise en surbrillance ou sans manipulation (condition neutre). Parmi les stimuli, 50 % étaient des mots et 50 % des pseudo-mots. Les mots ont été sélectionnés dans la base de données lexicales pour le CP de Manulex (Lété et al., 2004). La moitié des mots étaient de basse fréquence (i.e., fréquence estimée en moyenne de 16 occurrences par million) et l'autre moitié de haute fréquence (i.e., fréquence estimée en moyenne de 406 occurrences par million). Dans chacune des deux fréquences, 93 % des mots étaient des noms communs, 4 % des verbes et 3 % des adjectifs. Pour les pseudo-mots, la régularité orthographique des trigrammes les composant était contrôlée de sorte que leurs fréquences correspondent à celles des mots (Content & Radeau, 1988). La longueur de tous les stimuli était de 5 ou 6 caractères. Le détail des stimuli est disponible en Annexe 7. Les items ont été placés dans un ordre aléatoire au sein des listes pour chacun des participants. L'ordre de répartition des conditions de saillance a été contrebalancé entre les sujets.

La précision (CM), la vitesse (CTL) et l'âge de lecture des enfants (AL) ont été mesurés à partir du test de l'Alouette (Lefavrais, 1967, 2005) présenté dans la section 1.1.2. Matériel du chapitre 4.

[45] À noter qu'un enfant a été exclu par rapport à l'échantillon défini dans la section 1.1.1. Participants du chapitre 4 en raison d'une impossibilité à réaliser la tâche, le niveau de décodage étant trop faible.

Des tâches complémentaires évaluant les processus visuo-perceptifs, visuo-moteurs et visuo-attentionnels ont été administrées et sont détaillées dans la section 1.1.2. Matériel du chapitre 4.

2.1.3. Dispositif et procédure

L'expérience a été programmée à partir du logiciel OpenSesame (Mathôt et al., 2012). Les enfants ont été vus individuellement dans une salle calme dont la luminosité a été contrôlée en fonction du support des tests (i.e., papier ou numérique). Les enfants étaient assis en face de l'écran à environ 60 cm d'intervalle. Les stimuli étaient affichés en lettres minuscules blanches sur fond noir, dans une police Courier New de taille 24 points, sur un ordinateur portable Dell 15 pouces utilisé pour la présentation des stimuli et la collecte des données. Un surélévateur d'ordinateur était utilisé si nécessaire afin d'adapter la hauteur de l'écran de sorte que les yeux de l'enfant se situent au niveau du centre de l'écran.

Les enfants devaient effectuer une tâche de décision lexicale en appuyant sur la touche bleue avec leur main droite si l'item apparu était un mot et sur la touche rouge avec leur main gauche si l'item apparu était un pseudo-mot[46] et ce, aussi rapidement et précisément que possible. À cette fin, les enfants devaient dans un premier temps se concentrer sur la croix de fixation sans bouger les yeux. Cette croix blanche ("+") apparaissait au centre de l'écran pendant 500 ms, puis elle était remplacée par un stimulus qui apparaissait systématiquement dans le CVD. L'item restait affiché jusqu'à ce que l'enfant réponde. Une fois la réponse donnée, un feed-back positif (représenté par un « ☺ ») ou négatif (représenté par un « ☹ ») en fonction de la justesse de la réponse était affiché à l'écran. Ce dernier était ensuite effacé et un nouvel essai commençait après un délai de 1 000 ms. La procédure expérimentale est représentée dans la Figure 19. Le pourcentage de réponses correctes et le temps de réponse ont été mesurés. La tâche a été divisée en 12 blocs de 20 essais entrecoupés par des pauses et durait environ 30 minutes. À la fin de la passation, il a systématiquement été demandé aux participants s'ils avaient remarqué quelque chose de spécifique durant l'exercice. Tous les enfants ont été capables de rapporter la lettre en couleur, mais aucun enfant n'a été conscient de la mise en surbrillance de la lettre à la PVL.

La procédure s'inscrit dans la journée expérimentale du protocole Help Reading NF1, précédemment décrite dans la partie 1.1. Méthode du chapitre 4. La passation de la tâche de décision lexicale a été réalisée lors du second bilan de la journée.

[46] À noter que les boutons de réponse étaient directement intégrés au clavier de l'ordinateur. La touche M était recouverte d'une gommette de couleur bleue associée aux mots et la touche Q du pavé numérique était recouverte d'une gommette rouge associée aux pseudo-mots. Les enfants étaient tous droitiers.

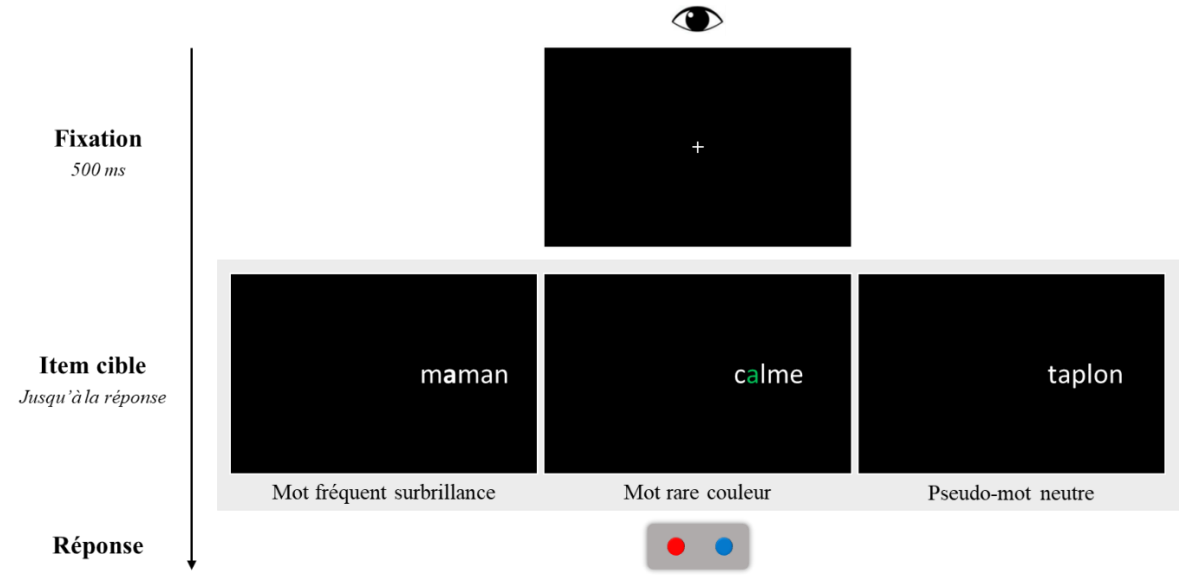


Figure 19. Description de la procédure utilisée dans la tâche de décision lexicale évaluant l'intérêt d'un outil d'aide à la lecture.

Notes. Les trois conditions expérimentales de saillance sont représentées dans cette figure avec à gauche la condition surbrillance (matérialisée par un caractère mis en gras), la condition couleur au centre et la condition neutre à droite. Lorsque l'item cible apparaissait à l'écran dans le CVD, les participants devaient appuyer, le plus rapidement possible, sur le bouton correspond à la lexicalité de l'item (i.e., bouton rouge pour les mots et bouton bleu pour les pseudo-mots).

2.1.4. Analyses statistiques

Un prétraitement a été effectué afin d'exclure les temps de réponse (TR) inférieurs à 100 ms et supérieurs à 5 000 ms ainsi que les TR supérieurs ou inférieurs de 3 DS par rapport à la moyenne de chaque participant pour chaque condition (soit 11.9 % des données totales exclues). En raison d'un biais expérimental dans la répartition des mots fréquents et rares dans chacune des listes (i.e., couleur, surbrillance et neutre), nous avons également appliqué un filtre pour conserver les essais seulement jusqu'au 16e item de chaque condition. Cette valeur a été définie par rapport au minimum d'items équitablement répartis entre les listes par sujet.

Deux mesures ont été prises en compte : (1) le pourcentage de réponses correctes et (2) le temps de réponse (en millisecondes) pour les réponses correctes uniquement. Pour ces deux variables mesurées, des moyennes ont été calculées pour chaque participant dans chaque condition. Dans cette étude, les pseudo-mots ont été utilisés comme des stimuli contrôles, permettant de réaliser la tâche de décision lexicale. Ainsi, la lexicalité n'a pas été prise en compte dans les résultats[47]. Par ailleurs, pour les analyses, l'échantillon de participants a été divisé en deux groupes afin de dissocier les enfants présentant des difficultés de lecture (i.e., NF1+DL) de ceux présentant des performances de lecture dans la moyenne (i.e., NF1nonDL). L'objectif de cette partie étant de déterminer si la manipulation de la saillance visuelle pouvait être bénéfique pour les enfants rencontrant des difficultés de lecture,

[47] À noter tout de même qu'un effet de lexicalité a bien été observé pour les TR [$F(1,14) = 20.16$; $p < .001$], mais pas pour le pourcentage de réponses correctes ($p > .10$).

nous avons choisi d'inclure au groupe NF1+DL tous les enfants présentant au moins un des deux indices de lecture au test de l'Alouette (i.e., CM et/ou CTL) inférieur au seuil -1 DS[48].

Les analyses statistiques ont été réalisées avec le logiciel JASP. Des analyses de variance à mesures répétées ont dans un premier temps été effectuées suivant un modèle 2 Fréquence (fréquent vs. rare) × 3 Saillance visuelle (couleur vs. surbrillance vs. neutre) × 2 Groupe d'enfants (NF1+DL vs. NF1nonDL). À l'exception du groupe d'enfants, les facteurs étaient tous des variables intra-sujets. Des comparaisons multiples post-hocs de Bonferroni ont été menées pour la saillance visuelle. Un score de bénéfice de la saillance visuelle a ensuite été calculé en effectuant la différence entre les conditions expérimentales et la condition neutre. Des corrélations de Pearson ont ainsi pu être réalisées entre les scores de bénéfice et les scores neuropsychologiques (i.e., niveau de lecture, compétences perceptives, visuo-motrices, visuo-attentionnelles et phonologiques). Des analyses de Chi² ont également été menées afin d'étudier le nombre d'enfants par groupe qui témoignaient d'un bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle. Pour ce faire, nous avons considéré la présence d'un bénéfice lorsque l'augmentation de la saillance visuelle permettait une diminution du temps de décision lexicale d'au moins 100 ms[49]. Pour l'ensemble des tests statistiques réalisés, le seuil de significativité a été fixé à p = .05.

2.2. Résultats

Les enfants ont été répartis en deux groupes dépendants de leur niveau de lecture : le groupe NF1+DL et le groupe NF1nonDL. Comme attendu, le groupe NF1+DL présentait des performances significativement plus faibles aux indices CM [t(13) = -5.633, p <.001], CTL [t(13) = -4.072, p = .001] et AL [t(13) = -3.771, p = .002]. En revanche, les deux groupes ne se différenciaient pas en termes d'âge chronologique, de sexe ou encore de niveau socio-éducatif (toutes les valeurs de $p > .05$). Les performances des enfants à la tâche de décision lexicale dans les différentes conditions sont détaillées dans le Tableau 18.

2.2.1. Effet de la saillance sur les performances des enfants atteints de NF1

2.2.1.1. Précision de réponse

L'analyse de la précision de réponse a révélé un effet principal du groupe [F(1,13) = 14.822, p = .002] avec un pourcentage de réponses correctes en moyenne plus élevé chez les enfants du groupe NF1nonDL (86.13 %) par rapport au du groupe NF1+DL (66.77 %). Un effet principal de la fréquence des mots a également été observé [F(1,13) = 52.085, p < .001], mais pas d'interaction significative

[48] Ce seuil implique également l'inclusion des enfants présentant des performances dans la moyenne faible en lecture (entre -1 DS et -1.5 DS), mais compte tenu de l'objectif, il était important d'évaluer si les enfants présentant une fragilité en lecture pouvaient également bénéficier de l'augmentation de la saillance visuelle. C'est pourquoi nous les avons inclus dans le groupe NF1+DL.

[49] L'objectif de l'augmentation de la saillance étant d'améliorer la précision de programmation des saccades pour un traitement parallèle des lettres qui composent le mot, nous nous attendons à un impact à la fois sur le temps de prétraitement (temps de latence) et sur le temps de la première fixation. Nous avons ainsi fait le choix de définir le seuil de bénéfice à 100 ms, qui correspond approximativement à la différence de temps de latence et de première fixation entre un lecteur débutant et un individu ayant déjà automatisé la lecture (Ducrot et al., 2013; Häikiö et al., 2009; Lopukhina et al., 2022; Vorstius et al., 2014).

Fréquence × Groupe [F < 1]. Ce résultat atteste d'un pourcentage de réponses correctes significativement plus élevé pour les mots fréquents (86.40 %) que pour les mots rares (70.40 %), et ce quel que soit le groupe d'enfants. Les résultats n'ont, en revanche, pas permis de mettre en évidence un effet de la saillance ni d'interaction entre les 3 variables indépendantes (toutes les valeurs de $p > 05$).

Tableau 18. Moyennes des pourcentages de réponses correctes et des temps de réponse (en millisecondes) à la tâche de décision lexicale en fonction de la lexicalité, de la fréquence et de la saillance de la lettre située à la PVL chez les enfants ayant une NF1 avec ou sans difficulté en lecture.

	Pourcentage de réponses correctes M (ET)		Temps de réponse M (ET)	
	NF1nonDL	NF1+DL	NF1nonDL	NF1+DL
Neutre				
Mots fréquents	95.83 (4.96)	71.68 (19.85)	1 507 (575)	2 470 (799)
Mots rares	79.51 (10.20)	65.38 (19.07)	1 809 (585)	2 713 (589)
Pseudo-mots	88.84 (9.23)	66.37 (16.14)	2 255 (857)	2 933 (700)
Couleur				
Mots fréquents	92.64 (5.49)	77.91 (19.77)	1 467 (418)	2 284 (890)
Mots rares	82.86 (14.39)	56.32 (12.58)	1 750 (612)	2 418 (638)
Pseudo-mots	81.00 (12.76)	62.09 (23.63)	2 172 (801)	2 700 (679)
Surbrillance				
Mots fréquents	95.88 (3.42)	81.94 (13.31)	1 367 (993)	2 059 (993)
Mots rares	73.88 (9.88)	60.32 (12.98)	1 676 (564)	2 288 (715)
Pseudo-mots	86.95 (13.58)	67.26 (18.54)	2 220 (784)	2 588 (690)

Notes. NF1nonDL : enfants avec une NF1 sans difficulté en lecture ; NF1+DL : enfants avec une NF1 et des difficultés en lecture.

2.2.1.2. Temps de réponse

L'analyse des temps de réponse a mis en évidence un effet principal du groupe [F(1,13) = 6.277, p = .026] avec des temps de réponse en moyenne plus courts chez les enfants du groupe NF1nonDL (1 925 ms) comparativement au groupe NF1+DL (2 558 ms). Un effet principal de la fréquence des mots a également été montré [F(1,13) = 9.660, p = .008], mais pas d'interaction significative Fréquence × Groupe [F < 1], témoignant de temps de réponse significativement plus courts pour les mots fréquents (TR moyen = 1 833 ms) que pour les mots rares (TR moyen = 2 091 ms) quel que soit le groupe d'enfants. Un effet principal de la saillance visuelle a été identifié [F(2,26) = 4.944, p = .015], mais aucune interaction significative n'est apparue ni avec le groupe ni avec la fréquence des mots (toutes les valeurs de $p > .10$). Il n'existait pas non plus de triple interaction Fréquence × Saillance × Groupe significative. Les analyses de comparaisons multiples concernant la saillance de la lettre située à la PVL révèlent une différence significative entre la condition surbrillance et la condition neutre [t(14) = -3.143, p_{bonf} = .012] avec des temps de réponse significativement plus courts en condition surbrillance (2 121 ms) qu'en condition neutre (2 343 ms). Les autres comparaisons ne se sont pas révélées significatives.

2.2.2. Bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle selon le niveau de lecture

Pour la suite des analyses, nous nous sommes centrés sur les temps de réponse puisqu'aucun effet de la saillance visuelle n'a été observé dans le pourcentage de réponses correctes. Nous avons étudié le bénéfice de la mise en couleur ou de la mise en surbrillance de la lettre située à la PVL en calculant une différence entre les conditions expérimentales et la condition neutre. Ce score reflète l'effet des conditions expérimentales[50]. À noter qu'un bénéfice de la condition expérimentale se reflète par un score négatif pour les temps de réponse.

2.2.2.1. Analyses de corrélation

Les analyses de corrélation entre les scores de bénéfice des conditions expérimentales et les performances de lecture révèlent un lien significatif entre CTL et le bénéfice de la surbrillance pour les mots [r(14) = .532, p = .041]. Ce résultat suggère que plus un enfant est ralenti dans sa lecture, plus il bénéficie de la surbrillance dans sa rapidité de décision lexicale. Aucune autre corrélation significative n'est mise en évidence avec les aptitudes en lecture (tous les p >.05).

Lorsqu'on s'intéresse au lien entre le bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle et les compétences visuo-perceptives, visuo-attentionnelles et phonologiques, l'indice HTaj du module 1 du logiciel Diaglect apparaît significativement corrélé au bénéfice de la couleur pour les mots de manière générale [r(14) = .559, p = .030] et pour les mots rares plus spécifiquement [r(14) = .604, p = .017]. Cela signifie que plus un enfant présente de faibles compétences en balayage attentionnel gauche-droite, plus il bénéficie de la mise en couleur dans sa rapidité de décision lexicale. La même tendance se dégage pour la mise en surbrillance pour les mots [r(14) = .481, p = .070] et plus spécifiquement, les mots fréquents [r(14) = .508, p = .053] avec toutefois des résultats qui n'atteignent pas le seuil de significativité. Les autres variables neuropsychologiques n'ont pas montré de corrélations significatives avec le bénéfice de la couleur ni de la surbrillance (toutes les valeurs de $p > .05$).

2.2.2.2. Analyses de Chi²

À partir des scores de bénéfice, nous avons plus précisément étudié la présence ou non d'un bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle de la lettre située à la PVL en fonction du niveau de lecture des enfants. La proportion d'enfants présentant un bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle en fonction du groupe est représentée dans la Figure 20. Parmi le groupe NF1+DL, 71 % des enfants (5/7 enfants) présentaient un bénéfice de la couleur pour les mots et 86 % des enfants (6/7 enfants) présentaient un bénéfice de la surbrillance. Dans le groupe NF1nonDL, 37 % des enfants (3/8 enfants) présentaient un bénéfice de la couleur pour les mots et 50 % des enfants (4/8 enfants) présentaient un bénéfice de la surbrillance. Les différences de proportion d'enfants bénéficiant de l'augmentation de la saillance visuelle en fonction du groupe de lecture pour la couleur et la surbrillance indépendamment ne sont pas apparues significatives (toutes les valeurs de $p > 10$). Toutefois, de manière générale, 100 % des enfants du groupe NF1+DL ont tiré bénéfice d'au moins une des deux conditions expérimentales alors que cela concernait 50 % des enfants dans le groupe NF1+DL. Cette différence s'est révélée significative [$\chi 2 = 4.773$, p = .029].

[50] Bénéfice de la surbrillance = performances en condition surbrillance - performances en condition neutre ; Bénéfice de la couleur = performances en condition couleur - performances en condition neutre.

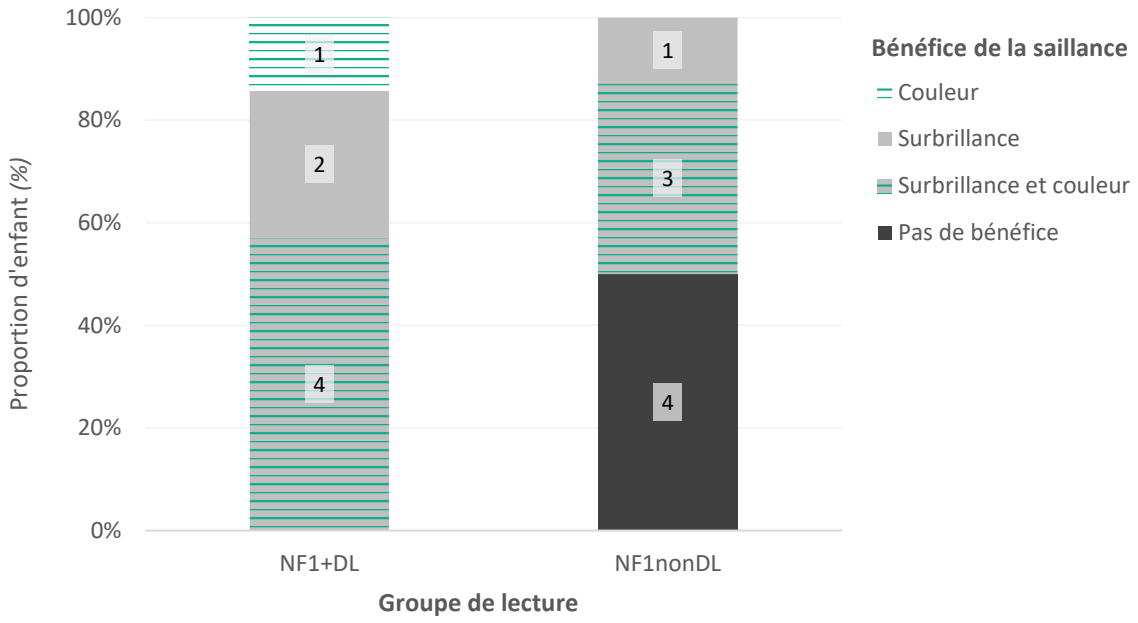


Figure 20. Proportion d'enfants présentant un bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle chez les participants présentant des difficultés de lecture (NF1+DL) et les lecteurs typiques (NF1nonDL).

2.3. Synthèse des résultats

Les résultats de cette étude ont permis de montrer que la manipulation de la saillance visuelle de la lettre située à la PVL, et plus particulièrement la mise en surbrillance de cette lettre, a eu un effet bénéfique sur les temps de réponse des enfants atteints de NF1 et ce, indépendamment de la fréquence des mots et du groupe d'enfants. En revanche, aucun effet significatif n'a été observé pour la précision de réponse. Les résultats ont également permis de montrer qu'il existait un lien entre le bénéfice de la mise en surbrillance pour les mots et le niveau de lecture des enfants, et plus spécifiquement leur vitesse de lecture. Ce résultat suggère que moins un enfant présente une lecture fluente, plus il bénéficierait de la mise en surbrillance dans son temps de réponse. En accord avec cette observation, les analyses ont mis en évidence que l'ensemble des enfants présentant un déficit en lecture bénéficiaient de l'augmentation de la saillance visuelle (dont 86 % de la mise en surbrillance et 71 % de la mise en couleur) dans leur rapidité de réponse. Il est également important de souligner que 50 % des enfants ayant une NF1 sans difficulté de lecture bénéficiaient tout de même de l'aide dans leur rapidité de réponse. Lorsqu'on s'intéresse plus en détail aux compétences visuelles associées au bénéfice de l'aide, les compétences de balayage visuel gauche-droite et de guidage oculaire évaluées par l'indice HTaj du module 1 de Diaglect se sont révélées être significativement corrélées au bénéfice de la couleur, et de façon marginale, au bénéfice de la surbrillance. Cela montre que les enfants qui présentent des difficultés dans le déploiement des ressources attentionnelles et le contrôle oculaire en suivi de lignes bénéficieraient davantage de l'augmentation de la saillance visuelle. Ce résultat est véritablement intéressant puisqu'il étaye l'idée que l'augmentation de la saillance visuelle de la lettre située à la PVL faciliterait la programmation saccadique vers celle-ci et de surcroît, améliorerait la rapidité de traitement du mot écrit.

3. Discussion générale du chapitre 6

3.1. Identification précoce des enfants à risque de présenter des difficultés de lecture

À l'âge préscolaire, l'apprentissage des lettres et de certains codes orthographiques implique déjà des processus visuels essentiels à l'activité de lecture tels que les processus d'analyse perceptive, d'intégration visuo-motrice, de contrôle des mouvements oculaires et d'orientation et de focalisation attentionnelle. Bien que dans la NF1 la question de l'efficience des processus visuels ait été examinée dans de nombreuses études, très peu d'entre elles ont évalué l'efficience de ces processus chez les enfants d'âge préscolaire et celles-ci n'ont pas réalisé une évaluation approfondie de ces processus en lien avec la lecture (Arnold et al., 2018; Lorenzo et al., 2013; Sangster et al., 2011). C'est pourquoi l'un des principaux objectifs de ce chapitre consistait à examiner la fréquence des difficultés perceptives (avec et sans implication motrice) et visuo-attentionnelles chez les enfants atteints de NF1 d'âge préscolaire, avant le début de l'apprentissage explicite de la lecture. Les résultats montrent que près de 75 % des enfants de maternelle de notre échantillon présentaient au moins une performance pouvant refléter un déficit dans au moins un des processus visuels d'intérêt. Dans ce cadre, bien que la moitié des enfants présentaient des difficultés d'analyse perceptive locale, aucun d'entre eux n'a obtenu de performances en dessous du niveau attendu aux épreuves visuo-perceptives du DTVP-3. Sur le plan moteur, 50 % des enfants de notre échantillon ont manifesté au moins une fragilité dans les processus d'intégration visuo-motrice, incluant 25 % d'enfants qui présentaient un déficit dans ce domaine. Ce résultat est cohérent avec les résultats dans la littérature montrant que les performances d'intégration visuo-motrice sont plus faibles chez les enfants NF1 d'âge scolaire et préscolaire que chez les enfants sans maladie génétique (Gilboa et al., 2010; Krab et al., 2008; Lorenzo et al., 2013), mais aussi avec la prévalence élevée de difficultés dans la copie de figure mise en évidence dans plusieurs études (Casnar et al., 2014; Descheemaeker et al., 2005; Dilts et al., 1996; Hyman et al., 2005; Vaucheret Paz et al., 2019).

Parmi les processus principalement affectés, les compétences visuo-attentionnelles impliquées dans le balayage visuel gauche-droite en suivi de lignes sont apparues très fréquemment impactées avec près de 62.5 % des enfants de notre échantillon qui présentaient un déficit. Les enfants commettaient notamment de nombreuses omissions de chiffres et sauts de lignes. La nature de ces erreurs suggère que les processus visuo-attentionnels qui se spécifient avec l'exposition à l'écrit ne sont pas suffisamment développés en maternelle chez la majorité des enfants atteints de NF1. Dans ce cadre, les enfants ne tiendraient pas encore compte de la directionnalité gauche-droite du balayage visuel spécifique à l'activité de lecture dans leurs stratégies d'exploration visuelle, pouvant expliquer pourquoi un grand nombre d'enfants présentait également des difficultés dans l'épreuve de recherche de cibles. Les difficultés de contrôle inhibiteur très fréquemment rapportées comme étant une caractéristique du profil cognitif des enfants atteints de NF1 pourraient également expliquer en partie ce résultat (voir résultats de la partie 2 du chapitre 5 ; voir aussi Descheemaeker et al., 2005; Plasschaert et al., 2016; Remigereau et al., 2018). En effet, la manipulation des espacements inter-caractères afin de mimer une situation de lecture dans la tâche de dénomination horizontale implique des capacités de contrôle attentionnel efficaces afin d'inhiber les chiffres des lignes inférieures et

supérieures qui constituent des distracteurs pour la ligne en cours de dénomination. Cette idée est tout à fait cohérente avec la forte prévalence des difficultés d'attention sélective retrouvée dans la tâche de recherche de cibles (62.5 % des enfants sont en difficulté dans cette épreuve).

Ainsi les difficultés visuelles très fréquemment repérées en maternelle chez les enfants de notre échantillon pourraient principalement s'expliquer par (1) des difficultés visuo-motrices, (2) des difficultés de contrôle attentionnel et (3) une stratégie de balayage visuel gauche-droite inefficiente. L'ensemble de ces difficultés repérées en maternelle chez une grande proportion des enfants de notre échantillon pourraient impacter de manière considérable l'apprentissage de la lecture et expliquer la forte fréquence des déficits en lecture repérée chez les enfants atteints de NF1 d'âge scolaire (Chaix et al., 2017; Orraca-Castillo et al., 2014; Watt et al., 2008). En effet, les compétences d'intégration visuo-motrice sont très fortement impliquées dans l'apprentissage des codes orthographiques et notamment des lettres, nécessaires à l'acquisition de la lecture. Durant les années préscolaires, l'apprentissage multimodal des codes orthographiques permet l'intégration de la configuration visuelle des lettres et de leurs patterns d'exécution motrice. En accord avec cette idée, l'implication des compétences visuo-motrices est apparue, dans la littérature, comme une condition nécessaire à la mise en place des compétences de lecture (Bellocchi et al., 2017; Longcamp et al., 2005; Meng et al., 2019; Suggate et al., 2018). Les processus visuo-attentionnels apparaissent également essentiels. Ils se spécifieraient, quant à eux, avec l'exposition à l'écrit et plus spécifiquement, par le biais d'un apprentissage perceptif lié à la régularité des mouvements oculaires dans le sens de lecture (Dehaene et al., 2005; Nazir et al., 2004). Dans ce cadre, dès la maternelle, les compétences de balayage visuel en suivi de colonnes et de lignes expliquent une partie de la variabilité du niveau de lecture des enfants un an plus tard au CP (Vernet et al., 2022a). De même, les capacités d'attention sélective dans lesquelles les stratégies de recherche visuelle jouent un rôle central, notamment dans les tâches de recherche de cibles, prédisent également en partie le futur niveau de lecture des enfants (Franceschini et al., 2012).

Face aux résultats de la littérature et à la forte fréquence des difficultés visuo-motrices et visuo-attentionnelles repérées dans notre échantillon en maternelle, le second objectif de ce chapitre consistait à déterminer si, au-delà des compétences phonologiques, l'évaluation des processus visuels en maternelle permettait d'identifier les enfants atteints de NF1 à risque de présenter des difficultés de lecture au cours de son apprentissage explicite. Les résultats sur la cohorte de 8 enfants n'ont pas permis d'identifier de lien direct entre les habiletés de lecture au CP et les aptitudes visuo-perceptives (avec ou sans implication motrice) et visuo-attentionnelles en maternelle. Ce résultat est très surprenant au vu de ceux rapportés dans la littérature chez les enfants sans maladie génétique et du lien mis en évidence entre ces processus dans le chapitre 4 chez les enfants NF1 d'âge scolaire. De surcroît, même les compétences de conscience phonologique n'ont pas été retrouvées comme étant associées au niveau de lecture des enfants. Plusieurs limites de notre étude permettent d'apporter un éclairage sur ce résultat. Premièrement, l'effectif réduit (n = 8) a augmenté les effets de la variabilité interindividuelle dans les résultats, variabilité connue pour être une spécificité du profil cognitif des enfants atteints de NF1. De plus, l'échantillon de participants ne semblait pas être représentatif de la population d'enfants atteints par cette maladie notamment par rapport au niveau de lecture des enfants. En effet, la quasi-totalité des enfants de notre échantillon manifestait un déficit en lecture (87.5 %) alors que la littérature rapporte une fréquence de déficit d'environ 50 % (Chaix et al., 2017; Orraca-

Castillo et al., 2014). Il est également important de noter que le seul enfant n'ayant pas de difficulté de lecture dans cette étude présentait en parallèle un trouble orthoptique pris en charge par la suite. En revanche les études de cas ont montré leur pertinence dans une démarche clinique de prévention. L'étude de cas de GC, nous a notamment permis de montrer que l'évaluation des processus visuo-attentionnels et visuo-moteurs avait un intérêt pour l'identification en maternelle de certains enfants qui présentent par la suite des difficultés de lecture. L'étude de cas de SN a également permis d'illustrer le fait que tous les déficits visuels ne sont pas systématiquement associés à des difficultés de lecture, comme les troubles orthoptiques. Les difficultés visuelles constatées dans les bilans cliniques peuvent avoir différentes causes (e.g., troubles orthoptiques, immaturité du contrôle oculaire, déficit des compétences visuo-attentionnelles, fatigabilité visuelle ou encore manque d'exposition à l'écrit). Quelles que soient leurs causes, il est important de repérer ces difficultés et de les prendre en charge le plus précocement possible afin d'intervenir sur la trajectoire développementale des enfants avant qu'un retard trop important ne soit installé (Lovett et al., 2017; Torgesen, 2004; Wanzek & Vaughn, 2007).

3.2. Outil d'aide à la lecture visant à optimiser la programmation saccadique

L'identification du rôle des processus visuels (perceptifs, attentionnels et de guidage oculaire) dans les difficultés de lecture que rencontrent fréquemment les enfants atteints de NF1 nous a permis de nous questionner sur la création d'outils de remédiation spécifiques aux difficultés que manifestent ces enfants. Les résultats de la partie 1 du chapitre 5 ont révélé que les enfants atteints de NF1 avec un déficit en lecture présentaient, tout comme les enfants dyslexiques, des stratégies de programmation saccadique immatures ou instables pouvant refléter un décodage non automatisé. Face à cette observation, le dernier objectif de ce chapitre consistait à étudier l'intérêt d'un outil d'aide à la lecture visant à optimiser la programmation saccadique. Plus spécifiquement, cet outil se basait sur l'augmentation de la saillance visuelle de la lettre située à la PVL dans un mot affiché en parafovéa. Les résultats ont permis de mettre en évidence un bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle dans les temps de réponse et plus particulièrement, chez les enfants présentant un trouble de la lecture. Cette idée est cohérente avec le fait que l'augmentation de la saillance visuelle en parafovéa réduit les erreurs de guidage oculaire (Marx et al., 2015; Slattery & Vasilev, 2019; Van Zoest & Donk, 2005), notamment chez les enfants présentant des difficultés de lecture potentiellement associées à une immaturité ou une instabilité des stratégies de programmation saccadique. En ce sens, le fait que 50 % des enfants ayant une NF1 sans déficit de lecture comorbide aient montré un bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle dans leur temps de réponse apparaît quelque peu surprenant puisque ces enfants ayant normalement correctement automatisé la lecture devraient déjà atterrir à la PVL et ainsi, ne pas bénéficier de l'augmentation de la saillance visuelle (Hohenstein et al., 2010). Un élément de réponse à ce résultat réside dans le fait qu'un tiers des enfants atteints de NF1 sans difficulté de lecture présentaient des ILPs instables (cluster 3), comme l'ont montré les résultats de la partie 1 du chapitre 5. Dans ce cadre, l'augmentation de la saillance visuelle aurait pu leur permettre d'améliorer leur précision de programmation saccadique et ainsi, les aider à stabiliser leurs ILPs au centre-gauche des mots grâce à une réduction de leur focus attentionnel.

L'interprétation de ces résultats repose sur l'idée que l'augmentation de la saillance visuelle de la lettre située à la PVL améliorerait la précision de la programmation des saccades vers cette position optimale pour le décodage. Ainsi, à cette position, un traitement lexical pourrait être plus facilement réalisé grâce à un déploiement des ressources attentionnelles adapté au mode de traitement global des mots écrits (Ans et al., 1998; Ginestet et al., 2022). Cette idée est en accord avec la corrélation retrouvée entre le bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle et les compétences de balayage visuel gauche-droite en suivi de lignes. Plus spécifiquement, les enfants qui présentaient un balayage visuel ralenti et/ou peu précis, pouvant attester de difficultés de programmation saccadique vers le champ visuel droit, bénéficiaient de manière plus importante de l'augmentation de la saillance visuelle dans leur temps de réponse par rapport aux enfants qui présentaient un balayage visuel efficient. Ce résultat constitue un argument important en faveur de l'idée que l'augmentation de la saillance visuelle de la lettre située à la PVL permet une optimisation des processus de programmation saccadique et ainsi, une amélioration des temps de réponse. Une étude en oculométrie pourrait nous permettre d'objectiver cette hypothèse et ainsi, d'étayer l'intérêt de cet outil pour les enfants atteints de NF1 présentant des troubles de la lecture.

Enfin, lorsque l'on s'intéresse à la nature de l'augmentation de la saillance visuelle, la mise en surbrillance de la lettre située à la PVL apparaissait plus efficace que la mise en couleur. En effet, en plus du fait qu'il existait une différence significative entre la condition de surbrillance et la condition neutre (et non pas entre la condition neutre et la condition couleur), un plus grand nombre d'enfants bénéficiaient de la mise en surbrillance que de la mise en couleur. Il est possible que l'intensité de la saillance visuelle ait joué un rôle dans cet effet. La surbrillance non visible, mais perceptible par la rétine, pourrait attirer le regard vers cette position sans gêner l'identification du mot. Le déploiement des ressources attentionnelles pourrait alors être adapté pour un traitement parallèle des lettres composant le mot. En revanche, la couleur étant très saillante pourrait accélérer la programmation saccadique, mais ensuite ralentir l'identification du mot écrit. Pour rappel, aucun enfant n'a identifié la mise en surbrillance, mais tous ont rapporté la lettre en couleur. Il est possible que la faible résistance aux interférences visuelles retrouvée dans la NF1 (Michael et al., 2014) représente, dans ce cadre, un avantage pour engager plus rapidement le focus attentionnel vers la lettre en couleur. Toutefois, la saillance visuelle très élevée de la couleur aurait pu scinder la structure du mot, limitant le traitement parallèle des lettres le composant et par conséquent, ralentissant son identification.

Le traitement de la lettre en couleur ou de la mise en surbrillance n'impliquent pas non plus l'activation des mêmes voies visuelles. Alors que la surbrillance activerait préférentiellement la voie magnocellulaire de traitement sensible aux faibles contrastes visuels, la couleur activerait, quant à elle, préférentiellement la voie parvocellulaire sensible aux nuances de couleur (Atkinson, 1992). Dans la NF1, deux études suggèrent un dysfonctionnement de ces voies visuelles chez les enfants atteints de cette maladie (Ribeiro et al., 2012; Violante et al., 2012) et au vu de la littérature sur l'hypothèse magnocellulaire de la dyslexie (pour des revues récentes, voir Kristjánsson & Sigurdardottir, 2022; Stein, 2022), un dysfonctionnement de la voie magnocellulaire-dorsale aurait pu être spécifiquement observé chez les enfants atteints de NF1 avec un déficit en lecture, auquel cas nous n'aurions pas observé de bénéfice de la mise en surbrillance chez ces enfants. Toutefois, la quasi-totalité des enfants rencontrant des difficultés en lecture (tous sauf un) est parvenue à tirer bénéfice de la mise en surbrillance dans leur temps de réponse. Il est alors possible que les enfants de notre échantillon n'aient

pas de déficit spécifique de la voie magnocellulaire de traitement, tout comme dans l'étude de Van Eylen et al. (2017) où aucune différence significative n'était observée entre les enfants des groupes NF1 et TD à une tâche d'identification du mouvement qui engage spécifiquement l'activation de la voie magnocellulaire. Il est également possible qu'un dysfonctionnement chez certains enfants puisse expliquer les différences interindividuelles dans le bénéfice de l'aide en fonction de la nature de celle-ci (couleur ou surbrillance), mais qu'un tel dysfonctionnement n'ait pas suffisamment d'impact pour supprimer complètement le bénéfice de cette aide.

Quels que soit les mécanismes en jeu dans le bénéfice de l'augmentation de la saillance visuelle, cet outil est intéressant à mettre en place dans la pratique clinique pour les enfants atteints de NF1 présentant des difficultés de lecture. Les résultats de cette étude viennent étayer ceux des études de Caldani et al. (2020) et Lehtimäki et Reilly (2005) qui montraient déjà qu'un entraînement basé sur les processus visuo-attentionnels et de guidage oculaire impliqués dans la lecture pouvait améliorer à la fois la précision de la programmation saccadique mais aussi la vitesse de lecture. L'originalité et l'intérêt principal de cet outil par rapport aux outils déjà existants, basés sur les processus visuo-perceptifs et visuo-attentionnels dans des jeux vidéo d'action (e.g., Ebrahimi et al., 2022; Franceschini et al., 2015; Pasqualotto et al., 2022; Zoubrinetzky et al., 2019), est qu'il utilise un matériel écologique engageant des processus spécifiques à l'activité de lecture pouvant ainsi faciliter le transfert des compétences de l'outil vers des situations quotidiennes de lecture. De plus, il ne nécessite pas l'utilisation d'un eye-tracker comme pour l'OVP game développé par Lehtimäki et Reilly (2005), qui limite véritablement les applications en milieu clinique. Il serait désormais intéressant, en vue d'une validation clinique, d'étudier l'effet d'un entraînement à partir de cet outil sur plusieurs séances et ce, en complément des outils portant sur les processus linguistiques et notamment, la conscience phonologique (Arnold et al., 2016).

SYNTHÈSE DU CHAPITRE 6

Ce dernier chapitre expérimental a permis de faire le lien entre les résultats fondamentaux obtenus dans cette thèse et leurs possibles applications cliniques. En raison du faible effectif et de la grande variabilité des profils cognitifs des enfants, les résultats de l'étude longitudinale restent à compléter afin d'enrichir la taille de notre cohorte. Une étude de cas nous a tout de même permis de montrer l'intérêt clinique qu'une évaluation précoce des processus visuels pourrait apporter dans l'identification des enfants à risque de présenter des difficultés de lecture au cours de leur apprentissage explicite. Ce chapitre nous a également permis de montrer l'intérêt d'un outil d'aide à la lecture visant à optimiser la programmation saccadique des enfants en lecture. Les résultats ont révélé que l'augmentation de la saillance visuelle de la lettre située à la PVL et plus spécifiquement, la mise en surbrillance de cette lettre permettait d'améliorer significativement les temps de réponse des enfants atteints de NF1 présentant des difficultés de lecture.

L'ensemble de ces résultats fournissent des pistes d'applications cliniques pour le dépistage et la prise en charge des difficultés de lecture chez les enfants atteints de NF1, et ouvrent de nouvelles perspectives de recherche notamment pour la création d'outils cliniques.

Discussion générale

Chapitre 7

Discussion générale

1. Discussion des principaux résultats du travail de thèse

1.1. Rappel des objectifs

Ce travail de thèse avait pour objectif d'étudier l'implication des processus perceptifs, visuo-attentionnels et de contrôle oculaire dans l'émergence des difficultés de lecture chez les enfants atteints de NF1. Il s'inscrivait dans la nécessité d'une meilleure compréhension des processus impliqués dans la forte prévalence des difficultés de lecture repérée chez les enfants atteints de NF1, pouvant avoir d'importantes répercussions sur leur scolarité et plus généralement sur leur qualité de vie (Coudé et al., 2006; Krab et al., 2008; Wolkenstein et al., 2009). Plus spécifiquement, les différentes études réalisées ont permis de répondre à trois objectifs principaux : (1) examiner la prévalence des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles et leurs implications dans les difficultés de lecture des enfants atteints de NF1, (2) déterminer les spécificités fondamentales du contrôle oculaire et du contrôle inhibiteur chez ces enfants et définir le rôle des compétences de lecture dans celles-ci, et enfin (3) étudier les perspectives cliniques en termes d'identification précoce des enfants à risque de présenter des difficultés de lecture et de prise en charge. Afin de répondre à ces objectifs, nous avons mené 3 études auprès de différents groupes d'âge et avec différents outils méthodologiques (tests psychométriques, tâches expérimentales ou encore mesures des mouvements oculaires). Les résultats obtenus dans ces travaux, leurs limites ainsi que les perspectives à la fois de recherche et d'application clinique sont présentés et discutés dans ce chapitre.

1.2. Implications des processus visuels dans les difficultés de lecture

1.2.1. Fréquence et implication des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles dans les déficits de lecture chez les enfants atteints de NF1

La littérature sur les profils cognitifs dans la NF1 s'est longuement intéressée aux déficits des processus visuels des enfants atteints de cette maladie (pour une revue, voir le chapitre 3). Pourtant, très peu d'études se sont directement intéressées aux processus perceptifs et visuo-attentionnels spécifiquement engagés dans une tâche de lecture, bien que près de la moitié des enfants porteurs de cette maladie manifestent des difficultés dans l'apprentissage de la lecture (Chaix et al., 2017; Hyman et al., 2005; Orraca-Castillo et al., 2014; Watt et al., 2008). Face à ce constat, l'examen des profils cognitifs des enfants de nos deux études transversales a permis de clarifier la fréquence importante de difficultés perceptives et visuo-attentionnelles dans la NF1 en comparaison aux enfants ayant un développement typique. Les difficultés fréquemment repérées impliquaient notamment les processus visuo-moteurs, de perception visuo-spatiale, l'empan visuo-attentionnel et le balayage visuel gauche-droite. L'étude longitudinale auprès d'enfants atteints de NF1 a également permis d'identifier que dès le plus jeune âge une forte proportion d'enfants présentait déjà des difficultés dans ces compétences visuelles.

Comme nous avons pu le présenter en détail (voir chapitre 2), l'ensemble de ces processus a été identifié comme étant impliqué à la fois dans le développement typique des compétences de lecture, mais aussi dans les troubles de la lecture tels que la dyslexie (e.g., pour des revues, voir Bosse et al., 2009; Facoetti et al., 2019; Gavril et al., 2021; Leibnitz et al., 2017; Lété & Ducrot, 2007). Les résultats de ce travail ont confirmé l'existence d'un lien entre les aptitudes en lecture et l'efficience des processus perceptifs et visuo-attentionnels, suggérant que la forte fréquence des difficultés visuelles dans la NF1 pourrait être associée à la prévalence élevée de difficultés de lecture chez ces enfants. En dehors de quelques études ayant brièvement étudié les compétences de perception visuo-spatiale (Arnold et al., 2020; Barquero et al., 2015; Cutting & Levine, 2010; Mazzocco et al., 1995; Watt et al., 2008), les résultats de cette thèse sont les premiers à apporter un éclairage spécifique sur le lien entre les processus visuels et la genèse des difficultés de lecture dans la NF1.

Ces résultats ouvrent ainsi de nouvelles perspectives de recherche dans la précision des profils cognitifs des enfants présentant une comorbidité entre la NF1 et un déficit en lecture. Dans ce cadre, la spécification des voies de traitement orthographique affectées dans la lecture constitue une piste de réflexion (en se basant sur les modèles doubles voies ; Coltheart et al., 2001; Grainger et al., 2016; Grainger & Ziegler, 2011) qui n'a pas pu être questionnée avec les tests que nous avons utilisés. Sur cette question, l'étude de Arnold et al. (2020) a permis d'apporter un éclairage sur les profils de compétences linguistiques des enfants atteints de NF1 associés à un trouble de la lecture comorbide affectant soit la voie de traitement sub-lexicale (dyslexie phonologique), soit les deux voies de traitement : lexicale et sub-lexicale (dyslexie mixte). Concernant la nature des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles, plusieurs études ont rapporté des différences dans ces processus visuels en fonction de la voie de traitement altérée dans la dyslexie. Par exemple, un déficit d'engagement volontaire de l'attention visuelle et un empan visuo-attentionnel réduit ont été associés à un traitement lexical altéré, et un déficit de désengagement volontaire de l'attention visuelle et des interférences

marquées du niveau d'analyse perceptive locale sur le niveau de traitement global ont quant à eux été associés à des difficultés de décodage grapho-phonologique (Bedoin, 2014, 2017; Bosse & Valdois, 2009; Valdois et al., 2019). Hawelka et al. (2010) ont également rapporté un allongement de la première fixation pour les mots recevant une seule fixation chez les enfants dyslexiques manifestant un dysfonctionnement de la voie lexicale de traitement, sans ralentissement spécifique dans des tâches purement visuelles n'impliquant pas la lecture (e.g., Hutzler et al., 2006). Un allongement des temps de fixation a également été repéré pour les mots recevant plusieurs fixations, dans le cadre d'un dysfonctionnement de la voie de traitement sublexicale, qui est attribué en partie à des difficultés d'accès aux représentations phonologiques des graphèmes. Au vu de ces différents résultats, il serait véritablement intéressant d'étudier les mécanismes perceptifs et attentionnels sous-jacents à la nature des voies de traitement orthographique affectées chez les enfants atteints de NF1 rencontrant des difficultés de lecture.

1.2.2. Processus visuo-attentionnels : impact de la comorbidité avec un déficit de lecture

En plus de montrer l'existence d'un lien entre les processus visuels et l'apprentissage de la lecture, un autre objectif de cette thèse consistait à étudier les spécificités des stratégies de contrôle oculaire et à déterminer l'impact d'un déficit comorbide en lecture. Les résultats ont permis de montrer que le contrôle oculaire des enfants atteints de NF1 était en partie déterminé par la présence ou non d'un déficit en lecture, indépendamment de la maladie. Autrement dit, les enfants présentant une comorbidité entre la NF1 et un déficit en lecture présentaient des stratégies de programmation saccadique transposables à celles des enfants présentant une dyslexie développementale et de la même manière, les enfants NF1 sans déficit en lecture présentaient des stratégies de programmation saccadique similaires à celles des lecteurs au développement typique. Ce résultat a permis de montrer qu'indépendamment de la NF1, les patterns oculaires retrouvés dépendaient du niveau de lecture des enfants.

Ces résultats sont cohérents avec le fait que le DEM-test et plus particulièrement, le temps de dénomination en suivi de lignes impliquant des processus de balayage attentionnel gauche-droite et de guidage oculaire, ait été identifié comme un indicateur efficace pour dissocier les enfants ayant une NF1 avec et sans déficit en lecture. Ce test avait déjà révélé sa pertinence chez les enfants d'âge scolaire (Ayton et al., 2009; Larter et al., 2004), les enfants d'âge préscolaire (Vernet et al., 2022a) et les enfants présentant des difficultés d'apprentissage vis-à-vis des compétences de lecture à l'école élémentaire (Moiroud et al., 2018; Raghuram et al., 2018). Tout comme pour les stratégies de programmation saccadique, notre étude confirme le lien entre le niveau de lecture et l'efficience des processus visuels évaluée à partir de ce test, et montre également qu'au-delà de la NF1, la comorbidité avec un déficit en lecture explique les difficultés visuo-attentionnelles observées à ce test. Cela va dans le sens des conclusions de Bellocchi et al. (2021) qui spécifient que des performances faibles au DEM-test étaient spécifiques aux déficits en lecture, qu'un trouble comorbide y soit associé ou non (dans cette étude un trouble développemental de la coordination).

En plus du fait que les difficultés visuo-attentionnelles puissent être identifiées à partir d'outils psychométriques utilisables par les cliniciens, ce travail de thèse a permis de proposer un outil d'aide à l'automatisation de la lecture basé sur l'optimisation des stratégies de programmation saccadique

vers la PVL. Il est important de noter que cet outil ne vise pas à rééduquer les difficultés de contrôle oculaire mais à favoriser l'émergence d'une stratégie lexicale de traitement, en attirant le regard vers la PVL. Nos résultats ont montré l'intérêt de l'augmentation de la saillance visuelle de la lettre située à la PVL dans un mot présenté dans le CVD. En effet, 100 % des enfants NF1 avec un déficit en lecture de notre échantillon bénéficiaient de l'aide à la programmation saccadique dans leur rapidité de réponse, alors que cela ne concernait que la moitié des enfants sans difficulté de lecture. Il semblerait que l'amélioration des temps de décision lexicale avec l'augmentation de la saillance visuelle puisse être attribuée à l'optimisation de la programmation des saccades vers la PVL permettant ainsi l'accès à une stratégie de traitement orthographique privilégiant la voie lexicale. Bien que cette idée gagnerait à être vérifiée en oculométrie, le lien entre le bénéfice de l'aide et les compétences de balayage visuel gauche-droite étaye notre hypothèse. Cet outil pourrait ainsi venir compléter d'autres outils de remédiation basés sur les compétences phonologiques, les compétences exécutives ou encore, des jeux vidéo d'action travaillant déjà sur les compétences visuo-attentionnelles, mais non spécifiques à la lecture (e.g., Arnold et al., 2016; Barquero et al., 2015; Cancer et al., 2020; Ebrahimi et al., 2022; Pasqualotto et al., 2022; Zoubrinetzky et al., 2019; voir aussi Franceschini et al., 2015; Peters et al., 2019, pour des revues).

L'ensemble de ces résultats montrent que le déploiement des ressources attentionnelles et les patterns oculaires retrouvés en lecture chez les enfants atteints de NF1 sont liés à leur niveau de lecture. Malgré tout, il est important de garder à l'esprit que cela n'exclut pas le fait que certains enfants sans difficulté de lecture présentent également des processus visuels déficitaires. En effet, parmi les enfants NF1nonDL (voir chapitre 4), 28 % des enfants présentaient une performance très en-dessous du niveau attendu à l'indice HTaj du DEM-test, 12 % au JLO et 16 % à l'EVA global. Cette observation va dans le sens des données obtenues sur le contrôle oculaire, où près d'un tiers des enfants NF1 sans difficulté de lecture présentaient des difficultés de programmation saccadique (cluster 3 présenté dans la section 1.2.3. du chapitre 5) alors qu'aucun d'entre eux ne présentaient la stratégie oculomotrice des lecteurs débutants, à savoir une première fixation au début du mot (cluster 1). Cela pourrait ainsi expliquer pourquoi parmi les enfants sans difficultés de lecture, certains ont bénéficié de l'outil d'aide à l'automatisation de la lecture dans leur rapidité de décision lexicale. Nous faisons l'hypothèse que les enfants qui présentaient une instabilité oculomotrice ont pu bénéficier de l'augmentation de la saillance visuelle de la lettre située à la PVL dans leur programmation saccadique, sans pour autant avoir de difficultés en lecture associées. L'étude de cas n°2, présentée dans le chapitre 6, illustre tout à fait l'idée qu'un déficit visuel puisse se manifester sans forcément générer de troubles d'apprentissage de la lecture. Ainsi, nous avons pu montrer que les processus visuels engagés dans la lecture sont similaires chez les enfants NF1+DL et les enfants DD, reflétant une immaturité en lien avec leur niveau de lecture et que même si, dans une dynamique groupale, les enfants NF1nonDL présentaient des performances transposables à celles des enfants DT, parmi eux, certains présentaient tout de même des difficultés spécifiques dans les processus visuels.

1.3. Déficit du contrôle inhibiteur : une spécificité du profil cognitif associée à la NF1

Bien que les mécanismes sous-jacents aux processus de contrôle oculaire ne soient pas apparus spécifiques à la NF1, nos résultats ont montré qu'un déficit d'inhibition cognitive était caractéristique

du profil cognitif des enfants atteints de cette maladie, avec un effet d'interférence Stroop anormalement élevé chez ces enfants (sans déficit en lecture). Ces observations viennent étayer de précédents résultats montrant que les processus de contrôle inhibiteur et plus largement, les fonctions exécutives sont fréquemment affectés dans la NF1 (e.g., Beaussart-Corbat et al., 2021; Plasschaert et al., 2016; Remigereau et al., 2018; Roy et al., 2010, 2014). En revanche, dans la tâche de Stroop spécifiquement, ce travail de recherche a permis de montrer pour la première fois l'importance du niveau d'automatisation de la lecture dans les effets Stroop observés chez les enfants atteints de NF1. En effet, lorsque la rapidité de réponse est contrôlée, aucun effet d'interférence significatif n'est observé chez les enfants présentant un déficit en lecture. Ce résultat est intéressant puisqu'il ne permet pas de conclure quant à l'absence d'un déficit d'inhibition cognitive dans ce sous-groupe d'enfants ayant un déficit en lecture. Il confirme l'idée selon laquelle la tâche de Stroop n'est pas optimale pour l'évaluation de ce processus chez les enfants rencontrant des difficultés de lecture. Il serait ainsi intéressant de vérifier si les enfants NF1 avec un déficit de lecture présentent également un contrôle de l'interférence déficitaire au travers de tâches n'impliquant pas la lecture (e.g., tâches de Go/noGo, tâche d'inhibition de la Nepsy-II ou encore, des tâches de Stroop n'impliquant pas de lecture comme la tâche de Stroop lune/soleil utilisable chez les plus jeunes enfants ; voir Beaussart et al., 2018; Korkman et al., 2014 pour des présentations de tests).

De manière générale, les déficits d'inhibition cognitive soulevés dans ce travail de thèse peuvent entraîner des répercussions sur la scolarité des enfants. En effet, même si les enfants ayant manifesté un déficit d'inhibition cognitive à la tâche de Stroop présentaient des compétences de lecture tout à fait efficientes, de nombreuses études ont mis en évidence une implication des fonctions exécutives dans les performances scolaires de manière générale (voir Cortés Pascual et al., 2019, pour une revue systématique sur la question). Par exemple plusieurs études ont montré l'importance des fonctions exécutives dans les compétences en mathématiques. Le contrôle inhibiteur a été identifié comme étant un processus nécessaire pour les comparaisons numériques et la résolution de problème notamment pour l'inhibition des heuristiques non pertinentes (Borst & Houdé, 2014; Lubin et al., 2013; Viarouge et al., 2019). L'évaluation des compétences de mémoire de travail et de flexibilité mentale explique également les performances à la fois en mathématiques et en orthographe (Dekker et al., 2017). Dans la NF1, Gilboa et al. (2014) ont mis en évidence un lien entre l'efficience des fonctions exécutives et les performances académiques, mais cette étude a principalement utilisé des questionnaires et n'a pas permis de dissocier les différents acquis scolaires. Ainsi, la compréhension de l'implication des difficultés du contrôle inhibiteur et plus largement, des fonctions exécutives dans les troubles des apprentissages fréquemment observés dans la NF1 reste un enjeu majeur de recherche pour améliorer la scolarité de ces enfants.

1.4. Quelle est la nature du lien entre les profils cognitifs observés et la lecture ?

Ce travail de thèse a permis de mettre en évidence deux caractéristiques cliniques du profil cognitif des enfants atteints de NF1 : (1) des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles plus fréquemment observés chez les enfants NF1 ayant un déficit en comorbide, et (2) un déficit du contrôle inhibiteur associé au profil cognitif de la NF1 (en tout cas, chez près de la moitié des enfants sans difficultés de lecture). Nous avons également confirmé la présence de déficits phonologiques dans le

profil cognitifs des enfants atteints de NF1, et notamment chez les enfants ayant des difficultés de lecture, comme l'ont déjà montré plusieurs études (Chaix et al., 2017; Cutting & Levine, 2010). La question est de savoir quelle est la nature du lien entre ces processus cognitifs et le niveau de lecture des enfants atteints de NF1.

Nous savons que des difficultés d'inhibition cognitive, de conscience phonologique et des processus perceptifs et visuo-attentionnels sont associées au profil cognitif de la NF1 (e.g., Chaix et al., 2017; Hyman et al., 2005; Plasschaert et al., 2016; Roy, 2007). Or ces différents processus ont été montré comme étant impliqués dans l'échec d'apprentissage de la lecture (e.g., Carroll et al., 2003; Davidse et al., 2015; Facoetti et al., 2019; Piquard-Kipffer & Sprenger-Charolles, 2013). Malgré le fait qu'une plus grande proportion d'enfants du groupe NF1+DL présentait des difficultés dans les processus visuels et de conscience phonologique, certains enfants atteints de NF1 sans déficit en lecture présentaient également des difficultés dans ces compétences. La Figure 21 illustre la proportion d'enfants présentant des difficultés dans chacun des processus évalués (visuels, phonologiques et d'inhibition cognitive) chez les deux groupes d'enfants NF1. Mais alors comment expliquer qu'en présence de ces types de déficits, certains enfants développent au cours de leur apprentissage des difficultés de lecture tandis que d'autres n'en manifestent pas ?

L'influence des facteurs environnementaux sur la trajectoire développementale des enfants constitue un élément plausible pour expliquer les différences observées. Lorsqu'on se concentre sur l'impact des déficits cognitifs (visuels, linguistiques et exécutifs) dans l'apprentissage de la lecture, l'interaction avec les facteurs environnementaux serait déterminante dans l'émergence de difficultés associées (Ramus, 2012). Plusieurs études ont notamment montré que le niveau socio-économique parental (NSE) jouait un rôle dans les compétences de lecture et qu'un NSE faible constituait un facteur de risque pour l'émergence des difficultés dans l'acquisition de la lecture (Fluss et al., 2009; Hamilton et al., 2016). Dans nos cohortes, bien que le niveau socio-éducatif ne soit pas apparu significativement plus faible entre les enfants NF1nonDL et NF1+DL, il était d'un point de vue descriptif systématiquement réduit dans le groupe d'enfants rencontrant des difficultés de lecture. L'implication du NSE peut s'expliquer par le lien qu'il entretient avec les habitudes de lecture : un NSE faible est fréquemment associé à des habitudes de lecture réduites (e.g., moins de livres et moins de temps dédiés à la lecture partagée) par rapport aux foyers dont le NSE est plus élevé (Feitelson & Goldstein, 1986; Hamilton et al., 2016; Manolitsis et al., 2013; Van Bergen et al., 2017 ; voir aussi Buckingham et al., 2014, pour une revue). Dans ce cadre, la quantité d'exposition à l'écrit pourrait expliquer une partie des différences observées dans nos études (pour des discussions, voir Goswami, 2015; Huettig et al., 2018). En effet, les compétences de lecture émergent en partie par l'exposition répétée à l'écrit (pour une revue, voir Mol & Bus, 2011), qui permet à l'enfant d'acquérir de nouvelles connaissances lexicales (Stanovich et al., 1995; Stanovich & Cunningham, 1993). Par conséquent, les enfants qui sont les moins exposés à l'écrit présenteraient des représentations orthographiques mal spécifiées, limitant le passage vers le mode de traitement lexical et l'automatisation de la lecture. La similitude entre les stratégies de programmation saccadique des enfants ayant des difficultés de lecture et celles des lecteurs débutants est cohérente avec cette idée (Bellocchi et al., 2019; Bellocchi, Mancini, et al., 2013). L'environnement constituerait donc un facteur de médiation dans la relation causale entre les profils cognitifs à risque et les capacités de lecture. Un NSE élevé et une quantité

importante d'exposition à l'écrit pourraient ainsi permettre aux enfants ayant un profil cognitif à risque de réduire leur probabilité de développer des difficultés d'apprentissage de la lecture.

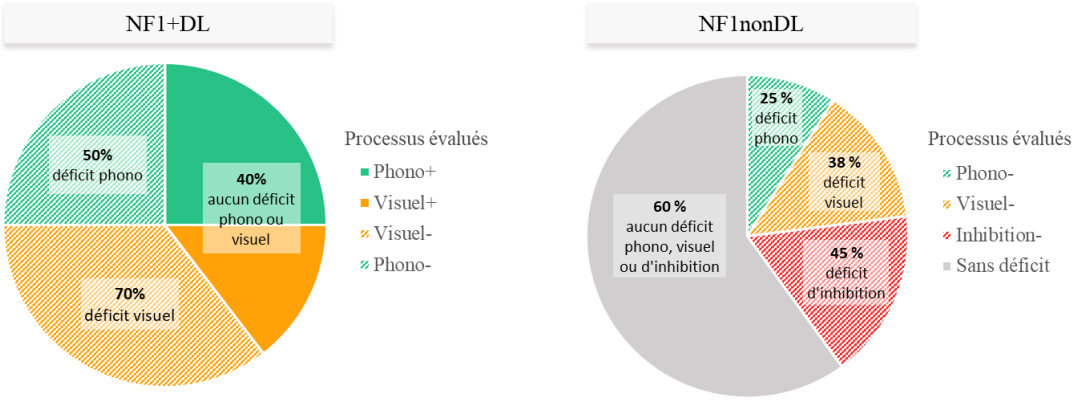


Figure 21. Représentation schématique de la proportion d'enfants présentant des difficultés dans les processus visuels, de conscience phonologique et d'inhibition cognitive chez les enfants NF1 avec (NF1+DL) et sans (NF1nonDL) déficit en lecture.

Notes. Ces graphiques ont été réalisés en prenant la proportion d'enfants des deux études transversales présentant un déficit des processus visuels, phonologiques et d'inhibition cognitive ou aucun déficit dans ces différents domaines. Pour les processus visuels, nous avons pris en compte les indices HTaj, EVA global et les stratégies de programmation saccadique en considérant le cluster 3 comme déviant. À noter que le fait que **les déficits d'inhibition cognitive ne soient pas représentés dans le graphique des enfants NF1+DL est lié au biais évoqué par rapport à l'implication du niveau d'automatisation de la lecture dans la tâche de Stroop.** Les pourcentages écrits permettent d'apprécier des chevauchements entre les déficits. Phono+/visuel+ : processus phonologiques et/ou visuels efficients ; Phono-/visuel-/inhibition- : processus phonologiques, visuels et/ou d'inhibition déficitaires.

De la même manière, les compétences en lecture pourraient également impacter les profils cognitifs des enfants, par le biais de l'influence des facteurs environnementaux. Les enfants qui auraient le plus de difficultés à lire seraient moins enclins à s'exposer volontairement à l'écrit (Snowling et al., 2007; Stanovich, 1986). La réduction de l'exposition à l'écrit chez les lecteurs en difficultés pourrait notamment expliquer les stratégies visuo-attentionnelles et de guidage oculaire mises en place par ces enfants (voir Huettig et al., 2018, pour une discussion sur cette question). Cette idée est cohérente avec les résultats de Taylor et Perfetti (2016) montrant que l'expérience de lecture a un impact significatif sur l'optimisation des paramètres du contrôle oculaire (i.e., temps de fixation, probabilité de refixation et la probabilité de sauts de mots).

Bien que les résultats de cette thèse ne nous permettent pas de répondre pleinement à la question de la causalité entre les déficits cognitifs observés dans la NF1 et les difficultés de lecture fréquemment rencontrées par ces enfants, nous faisons l'hypothèse d'un lien causal réciproque entre ces différentes composantes, lien qui serait médié par l'influence des facteurs environnementaux. La Figure 22 illustre cette relation. D'un point de vue méthodologique, seule une étude longitudinale nous permettrait véritablement de comprendre le sens des relations existantes entre le fonctionnement cognitif de ces enfants et l'émergence des compétences de lecture (Goswami, 2015).

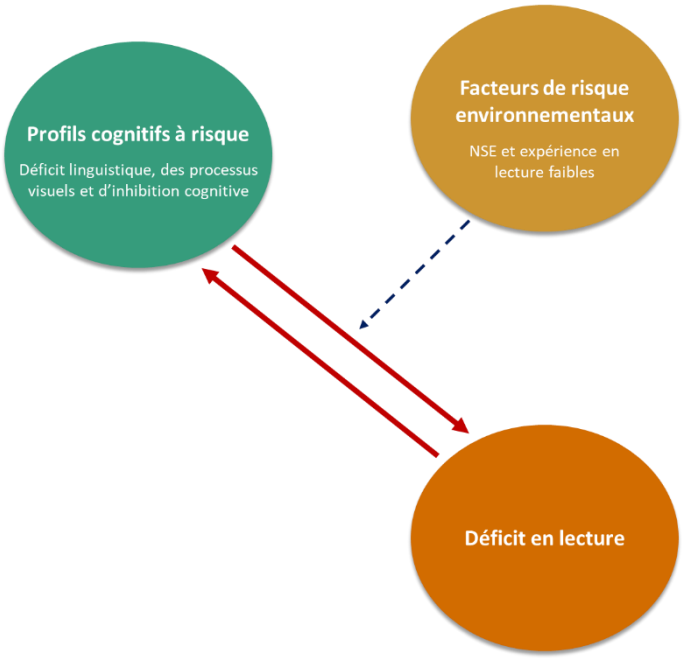


Figure 22. Représentation de l'hypothèse du lien causal réciproque entre les profils cognitifs et les déficits en lecture, médié par les facteurs environnementaux.

2. Limites principales de la thèse

Parmi les limites de ce travail, nous avons déjà évoqué le manque d'une évaluation spécifique des voies de traitement orthographique affectées dans les troubles de la lecture. Cela nous aurait permis de définir la nature des déficits des processus visuels qui sont caractéristiques de chacun de ces profils de difficultés de lecture. D'autres limites importantes sont également à souligner, incluant notamment les effectifs de nos différents groupes d'enfants ainsi que les critères d'inclusion limitant la généralisation des résultats de notre échantillon.

2.1. Effectifs

Une des principales limites des différentes études menées concerne le faible échantillon de participants, induit à la fois par le fait que la NF1 est une maladie rare affectant environ 1 individu sur 2 000 à 3 500 naissances (Evans et al., 2010; Lammert et al., 2005; Uusitalo et al., 2015), mais aussi en raison des nombreux critères d'inclusion nécessaires afin de limiter les biais potentiels qui auraient pu influencer nos résultats. Bien que l'ensemble de nos effectifs soit réduit, les deux études transversales comptaient tout de même respectivement 16 et 42 enfants atteints de NF1, nous permettant d'obtenir des résultats statistiques pouvant être discutés. En revanche, en raison de nombreuses contraintes pour le démarrage des inclusions[51], l'effectif de l'étude longitudinale s'est

[51] L'inclusion des participants dans l'étude longitudinale a été très fortement impactée par (1) les délais d'autorisations par le CPP qui nous ont permis de démarrer les inclusions seulement en janvier 2020 puis (2) les restrictions liées à la crise sanitaire à partir de mars 2020, repoussant ainsi les inclusions d'un an puisque le protocole était dépendant du cycle scolaire des enfants.

retrouvé fortement impacté (n = 8) et ne nous a pas permis de faire ressortir des résultats avec les méthodes statistiques traditionnelles. Pourtant il s'agissait d'une étude véritablement au cœur de ce travail de thèse, très prometteuse à la fois pour la compréhension des mécanismes sous-jacents aux difficultés de lecture fréquemment observées dans cette maladie, mais aussi pour les perspectives cliniques qui aurait pu émerger en termes de dépistage et de prise en charge précoces de ces enfants.

2.2. Critères d'inclusion : la question du TDAH

Les critères d'inclusion que nous avons appliqués dans les différentes études réalisées nous ont permis de contrôler l'effet d'un certain nombre de facteurs confondus dans nos résultats, mais limitent véritablement la généralisation des données à l'ensemble des enfants atteints de NF1. En effet, alors que 25 % à 50 % des enfants atteints de cette maladie répondent aux critères diagnostiques du TDAH (e.g., Biotteau et al., 2019; Hyman et al., 2005; Mautner et al., 2002; Payne et al., 2011; Roy et al., 2010), ces enfants (i.e., NF1 + TDAH) n'ont pas été inclus dans notre étude. L'objectif de ce critère d'exclusion visait à s'assurer que les résultats observés dans nos études constituaient bien le reflet des processus que nous souhaitions étudier, à savoir les processus perceptifs et visuo-attentionnels, et non celui d'un déficit attentionnel et/ou d'une impulsivité motrice. D'un point de vue clinique, lorsqu'un enfant présente un TDAH, la réalisation d'un bilan neuropsychologique complet durant près d'1 heure 30 peut être fortement impactée par les difficultés attentionnelles et l'agitation motrice. Dans le cadre d'un bilan à visée clinique, les observations du psychologue vont être essentielles pour l'interprétation du bilan de l'enfant. Toutefois, dans une démarche de recherche quantitative, il est difficile de prendre en compte ces facteurs dans les données analysées. Pourtant, nous savons que certaines tâches telles que le DEM-test peuvent être fortement impactées par les manifestations attentionnelles du TDAH (Coulter & Shallo-Hoffman, 2001). Des difficultés à cette tâche pourraient ainsi être interprétées de manière erronée sur la base du processus que nous étions censés évaluer (e.g., balayage visuel gauche-droite) alors même que celles-ci seraient dû à des capacités d'attention soutenue altérées. De la même manière, des études ont montré que les enfants présentant un TDAH manifestaient des patterns de mouvements oculaires similaires à ceux des enfants dyslexiques et différents des enfants au développement typique (Deans et al., 2010), ne pouvant pour autant pas s'expliquer par la comorbidité avec un trouble de la lecture (Molina et al., 2020). C'est pour ces différentes raisons que nous avons décidé, pour les premières études sur cette question de recherche, d'exclure les enfants présentant un TDAH tout en gardant à l'esprit que ces résultats sont applicables uniquement à un sous-groupe d'enfants atteints de NF1.

Il s'agit d'une première étape de recherche, qui nécessite désormais des investigations complémentaires afin d'évaluer la manière dont le TDAH chez les enfants atteints de NF1 influence les performances en lecture et les processus visuels. Une manière de l'étudier consisterait à examiner cette question sous l'angle de la comorbidité, en comparant des groupes d'enfants atteints de NF1 avec et sans TDAH de la même manière que l'ont fait certaines études portant sur le fonctionnement exécutif (Hyman et al., 2005; Payne et al., 2012; Pride et al., 2012; Roy et al., 2010, 2014).

3. Perspectives de recherche et applications cliniques

3.1. Perspectives à moyen terme

Ce projet de recherche a permis d'apporter un nouvel éclairage sur la compréhension des difficultés d'apprentissage scolaire chez les enfants atteints de NF1 et plus spécifiquement, sur les difficultés d'acquisition de la lecture. Ces résultats ainsi que les limites de nos études ouvrent de nombreuses perspectives de recherche qui pourront être mises en place à la suite de ce travail de thèse.

3.1.1. Quelle cause des déficits en lecture dans la NF1 ?

Les résultats de cette thèse ont permis de révéler un lien entre l'efficacité des processus visuels et le niveau de lecture des enfants dans la NF1. Nous avons pu faire des hypothèses quant à la nature causale de la relation entre ces variables, mais en l'état nous n'avons pas suffisamment d'éléments pour y répondre. La question du lien causal entre l'efficience des processus visuels et les compétences de lecture reste débattue dans la littérature sur la dyslexie.

Parmi les conceptions théoriques sur la relation causale entre la dyslexie et les déficits visuels, l'hypothèse d'un déficit de la voie magnocellulaire-dorsale à l'origine de difficultés de contrôle oculomoteur et visuo-attentionnel entraînant les difficultés de lecture a beaucoup été étudiée et est très controversée (e.g., Gori et al., 2016; Stein, 2001, 2022 ; voir Chapitre 2, pour une présentation détaillée). Dans la NF1, deux études ont mis en évidence un dysfonctionnement de la voie visuelle magnocellulaire au travers de tâches de sensibilité au contraste (Ribeiro et al., 2012; Violante et al., 2012), mais ces tâches sont remises en question pour l'étude du lien entre le fonctionnement de la voie magnocellulaire et les compétences de lecture (Skottun, 2000). Le fonctionnement de la voie magnocellulaire a également été étudié au travers de la tâche de détection du mouvement, ne révélant pas de différence entre les enfants atteints de NF1 et les enfants au développement typique dans l'étude de Van Eylen et al. (2017). Ce résultat ne nous permet toutefois pas de conclure quant à la présence ou non d'un dysfonctionnement de la voie magnocellulaire en fonction du niveau de lecture des enfants, celui-ci n'étant pas spécifiquement étudié. De plus, il semblerait que le fonctionnement de la voie magnocellulaire étudié au travers de la tâche de détection de mouvement soit corrélé aux performances de lecture dans une fenêtre d'apprentissage spécifique (Bellocchi & Leclercq, 2021), lorsque l'enfant utilise une stratégie de déplacement sériel de l'attention sur de petites unités orthographiques (i.e., graphèmes ou syllabes). Or dans cette étude, les participants étaient âgés en moyenne de 12 ans et pourraient avoir dépassé cette fenêtre d'apprentissage. Il serait ainsi intéressant d'étudier l'implication de la voie magnocellulaire dans la question de la causalité entre un déficit primaire des processus visuels et les difficultés de lecture.

Par ailleurs, le fait que nous ayons observé des résultats similaires chez les enfants ayant un déficit en lecture (DD et NF1+DL) et chez les lecteurs débutants (Bellocchi et al., 2019) suggère qu'il ne s'agit pas d'un déficit spécifique à la NF1 mais qu'il serait plutôt dépendant de la comorbidité avec un déficit en lecture. Cette idée remet en cause la conception d'un déficit visuel comme cause primaire (i.e., déficit oculomoteur et visuo-attentionnel) et questionne l'influence des facteurs environnementaux tels que le NSE et les habitudes de lecture comme vecteur des performances de

lecture, elles-mêmes reflétées au travers de stratégies visuo-attentionnelles et de guidage oculaire spécifiques. En accord avec cette idée et comme nous avons pu le souligner précédemment, de nombreuses études ont mis en évidence le rôle de ces facteurs environnementaux dans le développement des compétences de lecture (pour des revues, voir Buckingham et al., 2014; Mol & Bus, 2011).

Afin d'étudier la relation causale entre les difficultés de lecture et les déficits des processus visuels, un premier protocole visant à examiner l'effet des habitudes de lecture et plus spécifiquement, de la quantité d'exposition à l'écrit sur les compétences de lecture auprès d'enfants et d'adolescents au développement typique et présentant un déficit en lecture (sans NF1) est en cours d'élaboration. Celui-ci nous permettra d'obtenir un questionnaire normé évaluant les habitudes de lecture. L'objectif sera ensuite d'apporter des réponses à la question de la causalité spécifiquement dans la NF1. Pour ce faire, un protocole transversal est envisagé, incluant des enfants atteints de NF1 avec et sans difficulté de lecture et des enfants au développement typique appariés en âge, sexe et niveau scolaire. Les enfants présentant une comorbidité entre la NF1 et un TDAH seront également inclus dans l'étude afin d'avoir un échantillon le plus représentatif possible de la population présentant cette maladie[52]. Comme dans l'étude de Bellocchi & Leclercq (2021), deux groupes d'âge seront sélectionnés permettant d'observer les liens existants au début de l'apprentissage de la lecture (i.e., enfants scolarisés au CP) et une fois l'automatisation de la lecture finalisée (i.e., enfants scolarisés au CM1/CM2). Le NSE des parents sera mesuré et plusieurs tâches seront réalisées incluant des tâches de lecture (évaluant la vitesse et la précision de lecture mais aussi l'efficacité des voies de traitement au travers de lecture de mots réguliers, irréguliers et de pseudo-mots) et des tâches évaluant les processus perceptifs et visuo-attentionnels (e.g., empan visuo-attentionnel, JLO et module 1 du logiciel Diaglect). Une tâche de détection du mouvement sera également réalisée pour évaluer le fonctionnement de la voie magnocellulaire de traitement et le questionnaire sur les habitudes de lecture à destination des parents et des enfants sera également mené pour évaluer la quantité d'exposition à l'écrit. Au vu des effets de désirabilité sociale observés dans ces questionnaires (Mol & Bus, 2011), ceux-ci seront réalisés avec l'examinateur afin de questionner directement les habitudes de lecture et si nécessaire, utiliser l'exemplification pour y répondre. Face à nos observations montrant que les stratégies visuo-attentionnelles et de contrôle oculaire des enfants ayant des difficultés de lecture sont similaires à celles des lecteurs débutants, nous nous attendons à ce que la quantité d'exposition à l'écrit constitue un vecteur de médiation dans la relation entre l'efficience des processus visuels et les aptitudes de lecture.

Cette première étude nous permettra de mieux comprendre les relations entretenues entre le fonctionnement de la voie magnocellulaire, la quantité d'exposition à l'écrit et les performances de lecture, mais ne nous permettra pas de répondre pleinement à la question du lien causal entre ces différents processus. Comme le suggère Goswami (2015), bien qu'il s'agisse d'une méthodologie plus difficile et plus coûteuse à mener, la seule voie pour répondre à la question de la causalité entre les processus réside dans les protocoles longitudinaux.

[52] À noter que des analyses avec et sans les enfants ayant un TDAH seront réalisées afin d'évaluer l'impact de cette comorbidité sur les performances.

3.1.2. Précurseurs à la genèse des difficultés de lecture dans la NF1

Les précurseurs à l'apprentissage de la lecture ont beaucoup été étudiés chez les enfants au développement typique ou présentant une dyslexie développementale. Parmi eux, les processus linguistiques de conscience phonologique, de mémoire de travail auditivo-verbale, de dénomination rapide ou encore de connaissances des lettres ont été identifiés comme étant des prérequis à l'acquisition de la lecture (Carroll et al., 2003; Kirby et al., 2008; Melby-Lervåg et al., 2012; Parrila et al., 2004; Piquard-Kipffer & Sprenger-Charolles, 2013). Les processus perceptifs, visuo-moteurs et visuo-attentionnels ont également été montrés comme étant impliqués dans l'apprentissage explicite de la lecture (Bellocchi et al., 2017; Franceschini et al., 2012; Plaza & Cohen, 2007; Son & Meisels, 2006; Valdois et al., 2019; Vernet et al., 2022a). Ainsi, nous souhaitons d'une part vérifier avec un large effectif que ces observations sont également valables dans la NF1 et d'autre part déterminer quels sont les facteurs qui expliquent la relation entre l'efficacité des processus visuels et l'émergence des compétences de lecture. Cette étude nous permettra également de clarifier l'hypothèse d'un lien causal réciproque entre ces processus avec l'influence environnementale comme vecteur de médiation.

Des études ont notamment rapporté que les habitudes d'exposition à l'écrit à la maison prédisaient en partie le niveau de lecture des enfants (Aram, 2005; Feitelson & Goldstein, 1986; Forget-Dubois et al., 2009; Senechal & LeFevre, 2002). Roy-Charland et al. (2007) ont également montré que durant la lecture d'histoires par les parents, la proportion de temps que les enfants passaient à fixer le texte augmentait de la maternelle au CM1 et lorsque le niveau de difficulté du texte était concordant avec les compétences de lecture des enfants. Ces différents résultats suggèrent que l'exposition à l'écrit peut être un prérequis pour le développement des processus visuels engagés dans la lecture.

Pour tester cette hypothèse et évaluer également l'éventualité d'un déficit magnocellulaire primaire, un protocole longitudinal sera mené. Nous souhaitons suivre des enfants atteints de NF1 et des enfants contrôles, de la maternelle au CE1, en réalisant 3 évaluations : une première en maternelle, une deuxième en fin de CP et une dernière au CE1. Pour pallier les limites d'effectifs de l'étude longitudinale de ce travail de thèse, ce projet devra être multicentrique et inclura également les enfants présentant un TDAH. Tout comme dans le protocole transversal précédemment décrit, une évaluation des processus visuels (e.g., empan visuo-attentionnel, JLO et module 1 du logiciel Diaglect), une tâche de détection de mouvement, le questionnaire évaluant les habitudes de lecture, ainsi qu'une évaluation des processus de conscience phonologique et des fonctions exécutives (e.g., BRIEF et/ou tâche de Stroop lune/soleil) seront réalisés. Cette étude longitudinale serait également l'occasion d'étudier les stratégies d'analyses perceptives mises en place au cours de l'apprentissage de la lecture dans la NF1 (comme l'on fait Krakowski et al., 2016) et d'examiner les différences développementales entre les enfants devenant des lecteurs typiques et ceux présentant plus tard un déficit en lecture. Ainsi, l'inclusion d'une tâche d'identification de formes avec des stimuli hiérarchiques à plusieurs niveaux d'analyses perceptives est envisagée dans cette étude (voir Figure 5 du chapitre 2 pour des exemples de stimuli). Lors des évaluations au CP et au CE1, des tâches de lecture seront ajoutées évaluant la vitesse et la précision de lecture, ainsi que l'efficacité des voies de traitement avec la lecture de mots réguliers, irréguliers et de pseudo-mots. Le NSE des parents sera également pris en compte. Il est important de garder à l'esprit que ce type de protocole est plus risqué et plus complexe à mettre en

place que les études transversales, mais qu'il apporte des réponses spécifiques et indispensables pour les enjeux cliniques de dépistage et de prévention des difficultés.

3.1.3. Spécification de la nature des déficits d'inhibition cognitive

Les résultats de ce travail de thèse ont également montré qu'un déficit des processus d'inhibition cognitive semblait être spécifique au profil cognitif des enfants atteints de NF1. Les résultats ont également révélé que la tâche de Stroop différenciait clairement les enfants atteints de NF1 avec et sans difficulté de lecture, affichant un effet d'interférence anormalement élevé chez les enfants NF1nonDL alors qu'aucun effet d'interférence n'était observé chez les enfants NF1+DL. Nous avons conclu que la tâche de Stroop (impliquant également le niveau d'automatisation de la lecture) n'était peut-être pas pertinente pour l'évaluation des processus d'inhibition cognitive chez les enfants NF1 présentant un déficit en lecture. Pour faire suite à ce travail de thèse, une étude est envisagée avec deux objectifs principaux : (1) spécifier la nature du conflit qui est particulièrement affecté dans la tâche de Stroop chez les enfants atteints de cette maladie (sans déficit en lecture) et (2) déterminer si les difficultés d'inhibition cognitive touchent également les enfants NF1 ayant un déficit en lecture.

Une étude transversale va donc être mise en place auprès d'enfants atteints de NF1 d'âge scolaire avec et sans difficulté de lecture et d'enfants contrôles au développement typique appariés en âge, sexe et niveau scolaire. Plusieurs tâches d'inhibition cognitive seront réalisées. Une tâche de Stroop nous permettra de questionner la nature des conflits affectés chez ces enfants (conflit de tâche, conflit sémantique et conflit de réponse). Les stimuli se baseront sur ceux de l'expérience 2 de l'étude de Ferrand et al. (2020) avec 4 types de stimuli permettant de différencier les 3 natures de conflits (e.g., conflit de tâche : $\mathrm{CHIEN}_{\mathrm{vert}}$ vs. $\mathrm{XXXX}_{\mathrm{vert}}$; conflit sémantique : $\mathrm{CIEL}_{\mathrm{vert}}$ vs. $\mathrm{CHIEN}_{\mathrm{vert}}$; conflit de réponse : $\mathrm{BLEU}_{\mathrm{vert}}$ vs. $\mathrm{CIEL}_{\mathrm{vert}}$). Au vu des différences observées dans les effets d'interférences entre les modalités de réponse possibles (Augustinova et al., 2019; Ferrand et al., 2020), nous envisageons également d'inclure des blocs d'essais en modalité verbale et d'autres en modalité manuelle et ce, de manière contrebalancée entre les participants. Par ailleurs, d'autres tâches évaluant les processus d'inhibition cognitive, mais n'impliquant pas la lecture seront intégrées au protocole pour étudier l'efficience de ce processus notamment chez les enfants atteints de NF1 ayant un déficit en lecture. L'objectif est de déterminer si l'absence d'effet d'interférence à la tâche de Stroop classique chez ce sous-groupe d'enfants est bien le résultat du faible niveau d'automatisation de la lecture limitant l'utilisation de ce test. Pour y répondre, deux tâches sont envisagées : une tâche d'inhibition verbale (tâche d'inhibition de la Nepsy-II ; Korkman et al., 2014) et une tâche d'inhibition motrice (tâche de Go/noGo de la KiTAP ; Zimmermann et al., 2005). La passation de ces épreuves sera complétée par une évaluation du niveau de lecture. Ce protocole nous permettra ainsi de mieux comprendre les difficultés d'inhibition fréquemment observées dans cette population (Lasker et al., 2003; Plasschaert et al., 2016; Remigereau et al., 2018; Ribeiro et al., 2015; Roy, 2007).

3.2. Perspectives à long terme

Les résultats de ce travail de thèse soulèvent également des perspectives importantes à plus long terme concernant le dépistage et la prise en charge des difficultés de lecture chez les enfants atteints

de NF1. La possibilité de mieux comprendre les difficultés visuelles que rencontrent les enfants porteurs de cette maladie ayant un déficit en lecture nous permet d'envisager l'inclusion d'une évaluation de ces processus pour compléter le bilan neuropsychologique des enfants, et le développement d'outils de remédiation cognitive sur lesquels les cliniciens pourront s'appuyer dans leur pratique.

3.2.1. Dépistage précoce des difficultés de lecture

L'implication des processus visuels dans la genèse des difficultés de lecture chez les enfants atteints de NF1 ouvre des perspectives cliniques importantes pour le dépistage des difficultés de lecture chez ces enfants. Maintenant que nous savons que les difficultés de lecture sont souvent associées à des difficultés dans les processus perceptifs et visuo-attentionnels, il est important d'intégrer une évaluation de ces processus dans le bilan neuropsychologique de ces enfants. Lorsque l'apprentissage explicite de la lecture est déjà amorcé, l'évaluation des processus visuels vise à mieux comprendre les profils cognitifs associés aux difficultés de lecture, afin de pouvoir ensuite adapter la prise en charge en fonction du profil de l'enfant. L'ensemble des outils ayant montré un lien avec les compétences de lecture dans notre étude (e.g., DTVP-3, DEM-test, Module 1 de Diaglect ou encore EVADYS) pourraient ainsi être utilisés dans le bilan, en complément des tests évaluant les habiletés linguistiques (Arnold et al., 2018).

Parmi les différents outils étudiés, le DEM-test est apparu véritablement intéressant puisqu'il permet, de manière facile et rapide, d'avoir un aperçu de l'efficacité des processus visuels engagés dans la lecture. En effet, la tâche de dénomination horizontale mime une situation de lecture impliquant un balayage visuel gauche-droite qui nécessite des saccades de tailles variées en raison des espacements inter-caractères variables. Une analyse clinique détaillée sur la nature des erreurs commises peut aussi apporter des éléments de compréhension sur les difficultés que manifestent les enfants. Il est important de souligner que ce test n'est pas destiné à être utilisé à des fins de diagnostics (Facchin, 2021). Il est plutôt envisagé comme un outil de première intention pour (1) évaluer l'efficience des processus visuels dans le cadre de difficultés de lecture pour cibler la prise en charge ou pour (2) identifier en maternelle les enfants à risque de présenter des difficultés de lecture plus tard au cours de l'apprentissage.

Ce test s'est avéré efficace pour repérer les enfants de maternelle (sans maladie génétique spécifique) qui présentaient ensuite des difficultés dans l'apprentissage explicite de la lecture (Vernet et al., 2022a). Bien que les limites de notre étude longitudinale ne nous aient pas permis de mettre en évidence ce résultat chez les enfants atteints de NF1, nous avons pu montrer qu'une forte proportion d'enfants présentait dès la maternelle des difficultés dans les processus visuels nécessaires à l'acquisition de la lecture. Quelles que soient leurs causes, il est important de pouvoir les repérer afin qu'elles puissent être prises en charge le plus précocement possible. Dans ce cadre, le DEM-test pourrait être utilisé de manière systématique afin d'adopter une démarche préventive et de rester attentif à l'émergence de potentielles difficultés au cours de l'apprentissage explicite de la lecture.

En parallèle de ce travail de thèse, nous avons évalué l'intérêt du logiciel Diaglect développé au Laboratoire Parole et Langage sous la direction de Stéphanie Ducrot et plus spécifiquement, du module 1 (inspiré du DEM-test). Cet outil informatisé comporte de nombreux avantages notamment

en raison de ses différentes versions, adaptées aux niveaux scolaires des enfants. En effet, nous nous sommes rendu compte que l'utilisation du DEM-test en maternelle pouvait être limité par la connaissance des chiffres et par la longueur et le coût cognitif engagé dans la planche horizontale. Le module 1 de Diaglect a ainsi pris en compte ces limites (1) en n'utilisant que les chiffres de 1 à 6 pour limiter l'ambiguïté très fréquente en maternelle des chiffres au-delà de 6, et (2) en réduisant le nombre total de chiffres des différentes planches de tests. Ce module informatisé a été étalonné auprès de 786 enfants scolarisés de la maternelle au CM2 et son intérêt a été vérifié dans le cadre de l'identification précoce des enfants à risque de présenter des difficultés de lecture et de la dyslexie développementale (Vernet et al., 2020; Vernet et al., 2022b). La création d'outils de dépistage, pouvant être normés et mis à disposition des cliniciens, constitue la suite logique de ce travail en parallèle de la question de la prise en charge des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles.

3.2.2. Création d'outil de remédiation

Le dépistage des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles dans le cadre des déficits de lecture permet de mettre en place des prises en charge adaptées aux profils cognitifs de chaque enfant. Ce travail de thèse a notamment permis de montrer l'intérêt d'un outil d'aide à la lecture visant à améliorer la précision de visée de saccades sur les mots. Mais cet outil n'est efficace qu'après le début de l'apprentissage explicite de la lecture puisqu'il implique du matériel lexical, et plusieurs études ont souligné l'importance de la prise en charge précoce pour intervenir sur la trajectoire développementale des enfants (Lovett et al., 2017; Torgesen, 2004; Wanzek & Vaughn, 2007). Une prise en charge appropriée mise en place dès le début de l'apprentissage de la lecture pourrait ainsi limiter les difficultés et l'écart de performances entre l'enfant et ses pairs au développement typique et du même niveau scolaire.

Pour répondre à cette limite, un outil de remédiation est en cours de développement au Laboratoire Parole et Langage sous la direction de Stéphanie Ducrot afin de pouvoir proposer aux cliniciens des modules d'entraînement des processus visuels impliqués dans la lecture, dont certains, pouvant être utilisés dès la maternelle. Au total, 8 subtests ont été développés ciblant plusieurs processus visuels : les niveaux d'analyses perceptives nécessaires au décodage graphophonologique (traitement local) et au traitement lexical (traitement global), le balayage visuel gauche-droite au travers de recherche de cibles et de suivi de cibles, les processus visuo-spatiaux, la reconnaissance des lettres, le positionnement du regard dans les mots et enfin, la taille de l'empan perceptif en lecture de phrases. Parmi les modules proposés, cinq, n'impliquant pas de matériel lexical, sont réalisables dès la maternelle. Le clinicien a à sa disposition plusieurs versions des modules entraînements et peut faire varier leur difficulté. L'intérêt de cet outil n'a pas encore été étudié, mais constitue une réelle piste de travail auprès des enfants atteints de NF1 présentant des difficultés de lecture ou étant à risque d'en présenter durant l'apprentissage explicite. D'un point de vue clinique, il est important de garder à l'esprit que les outils informatisés sont des appuis pour la prise en charge des difficultés, mais qu'une utilisation systématique n'est pas préconisée. Les outils mis en place doivent être adaptés au profil cognitif de chaque enfant.

Enfin, au-delà des outils de remédiation, il apparaît essentiel de prendre en compte le lien entre l'efficience des processus visuels et les aptitudes en lecture directement dans les programmes scolaires

pour l'apprentissage de la lecture. Ce lien, que ce soit chez les enfants atteints de NF1 ou chez les enfants sans maladie génétique sous-jacente, révèle l'importance d'entraîner les processus visuo-attentionnels et de contrôle oculaire en lien avec l'écrit. Dès la maternelle, l'exposition répétée au matériel orthographique dans la vie quotidienne et particulièrement à la maison, constitue un facteur déterminant pour l'apprentissage de la lecture. Face aux livres, les enfants apprennent implicitement que la lecture nécessite un balayage visuel gauche-droite et des retours à la ligne. Or des inégalités sociales émergent à ce niveau-là, certains enfants n'étant pas/peu exposés à l'écrit à l'âge préscolaire. Proposer directement dans les programmes scolaires des entraînements de ces processus visuels afin que les enfants puissent avoir tous les outils nécessaires à l'acquisition de la lecture est un enjeu crucial, en parallèle des questions de dépistage et de prise en charge des difficultés de lecture.

CONCLUSION

Ce travail de thèse a permis de mettre en lumière le lien entre les processus visuels (perceptifs, visuo-attentionnels et impliqués dans le contrôle oculaire) et les aptitudes de lecture chez les enfants atteints de NF1. Les résultats ont souligné le fait que les stratégies de programmation saccadique nécessaires à la lecture étaient dépendantes de la comorbidité avec un déficit en lecture, et non spécifiques à la maladie. Ainsi, les enfants ayant une NF1 et un déficit en lecture présentaient un comportement oculaire similaire à celui des enfants ayant une dyslexie, et de la même manière, le groupe d'enfants ayant une NF1 sans difficulté de lecture présentait un comportement oculaire comparable à celui des enfants au développement typique. Les similarités partagées par les enfants présentant des difficultés de lecture permettent d'envisager la mise en place d'outils cliniques de dépistage et de remédiation déjà développés pour la dyslexie. Il est tout de même important de noter que certains enfants NF1 sans déficit en lecture manifestaient malgré tous des difficultés perceptives et visuo-attentionnelles. Par ailleurs, un déficit d'inhibition cognitive est apparu véritablement spécifique au profil cognitif associé à la NF1. Dans ce cadre, le niveau d'automatisation de la lecture joue un rôle central dans les effets d'interférence Stroop évalués puisque nous avons montré un niveau d'interférence anormalement élevé chez les enfants NF1 sans déficit en lecture, alors qu'aucun effet d'interférence n'a été observé chez ceux qui présentaient des difficultés de lecture. Face au constat que près de 40 % des enfants NF1 sans difficulté de lecture associées présentaient des déficits visuels, phonologiques et d'inhibition cognitive, nous avons fait l'hypothèse d'un lien causal réciproque entre les profils cognitifs à risque et les déficits en lecture, avec l'influence des facteurs environnementaux (NSE et habitudes de lecture) comme vecteur de médiation. L'ensemble de ces résultats ouvrent de nouvelles perspectives de recherche et d'applications cliniques visant à améliorer le parcours de soins de ces enfants et à les accompagner au mieux dans leurs apprentissages et leurs parcours scolaires.

Bibliographie

Ablinger, I., Huber, W., Schattka, K. I., & Radach, R. (2013). Recovery in a letter-by-letter reader: more efficiency at the expense of normal reading strategy. *Neurocase*, *19*(3), 236–255. https://doi.org/10.1080/13554794.2012.667119

Aghababian, V., & Nazir, T. A. (2000). Developing Normal Reading Skills: Aspects of the Visual Processes Underlying Word Recognition. *Journal of Experimental Child Psychology*, *76*(2), 123–150. https://doi.org/10.1006/jecp.1999.2540

Ahr, E., Houdé, O., & Borst, G. (2016). Inhibition of the mirror generalization process in reading in school-aged children. *Journal of Experimental Child Psychology*, *145*, 157–165. https://doi.org/10.1016/j.jecp.2015.12.009

Ahr, E., Houdé, O., & Borst, G. (2017). Predominance of lateral over vertical mirror errors in reading: A case for neuronal recycling and inhibition. *Brain and Cognition*, *116*, 1–8. https://doi.org/10.1016/j.bandc.2017.03.005

Alkan, A., Sigirci, A., Kutlu, R., Ozcan, H., Erdem, G., Aslan, M., Ates, O., Yakinci, C., & Egri, M. (2005). Neurofibromatosis type 1: Diffusion weighted imaging findings of brain. *European Journal of Radiology*, *56*(2), 229–234. https://doi.org/10.1016/j.ejrad.2005.05.008

Allen, T., Willard, V. W., Anderson, L. M., Hardy, K. K., & Bonner, M. J. (2016). Social functioning and facial expression recognition in children with neurofibromatosis type 1. *Journal of Intellectual Disability Research*, *60*(3), 282–293. https://doi.org/10.1111/jir.12248

Andreu, S., Cioldi, I., Conceicao, P., Etève, Y., Fabre, M., Le Breton, S., Persem, É., Portelli, T., Rocher, T., Rue, G., Vourc'h, R., & Wuillamier, P. (2021). Évaluations repères 2020 de début de CP et de CE1 : baisse des performances par rapport à 2019, notamment en français en CE1, et hausse des écarts selon les secteurs de scolarisation. *Ministère de l'Éducation Nationale, de La Jeunesse et Des Sports*, *n° 21.02*, 1–12. https://www.education.gouv.fr/journee-defense-et-citoyennete-2020-pres-d-un-jeune-francais-sur-dix-en-difficulte-de-lecture-323603

Ans, B., Carbonnel, S., & Valdois, S. (1998). A connectionist multiple-trace memory model for polysyllabic word reading. *Psychological Review*, *105*(4), 678–723. https://doi.org/10.1037/0033-295X.105.4.678-723

Aram, D. (2005). Continuity in children's literacy achievements: A longitudinal perspective from kindergarten to school. *First Language*, *25*(3), 259–289. https://doi.org/10.1177/0142723705050339

Arnold, S. S., Barton, B., McArthur, G., North, K. N., & Payne, J. M. (2016). Phonics Training Improves Reading in Children with Neurofibromatosis Type 1: A Prospective Intervention Trial. *Journal of Pediatrics*, *177*, 219-226.e2. https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2016.06.037

Arnold, S. S., Payne, J. M., Lorenzo, J., North, K. N., & Barton, B. (2018). Preliteracy impairments in children with neurofibromatosis type 1. *Developmental Medicine & Child Neurology*, *60*(7), 703–710. https://doi.org/10.1111/dmcn.13768

Arnold, S. S., Payne, J. M., Mcarthur, G., North, K. N., & Barton, B. (2020). Profiling the Word Reading Abilities of School-Age Children with Neurofibromatosis Type 1. *Journal of the International Neuropsychological Society*, 1–13. https://doi.org/10.1017/S135561772000106X

Atkinson, J. (1992). Early visual development: Differential functioning of parvocellular and magnocellular pathways. *Eye*, *6*(2), 129–135. https://doi.org/10.1038/eye.1992.28

Augustinova, M., Almeida, E., Clarys, D., Ferrand, L., Izaute, M., Jalenques, I., Juneau, C., Normand, A., & Silvert, L. (2016). Que mesure l'interférence Stroop ? Quand et comment ? Arguments méthodologiques et théoriques en faveur d'un changement de pratiques dans sa mesure. *L'Année Psychologique*, *116*(01), 45–66. https://doi.org/10.4074/s000350331500024x

Augustinova, M., Parris, B. A., & Ferrand, L. (2019). The Loci of Stroop Interference and Facilitation Effects With Manual and Vocal Responses. *Frontiers in Psychology*, *10*(August), 1–14. https://doi.org/10.3389/fpsyg.2019.01786

Austen, E., & Enns, J. T. (2000). Change detection: Paying attention to detail. *Psyche*, *6*(11). https://psycnet.apa.org/record/2001-03397-001

Aydin, S., Kurtcan, S., Alkan, A., Guler, S., Filiz, M., Yilmaz, T. F., Sahin, T. U., & Aralasmak, A. (2016). Relationship between the corpus callosum and neurocognitive disabilities in children with NF-1: diffusion tensor imaging features. *Clinical Imaging*, *40*(6), 1092–1095. https://doi.org/10.1016/j.clinimag.2016.06.013

Ayton, L. N., Abel, L. A., Fricke, T. R., & McBrien, N. A. (2009). Developmental eye movement test: What is it really measuring? *Optometry and Vision Science*, *86*(6), 722–730. https://doi.org/10.1097/OPX.0b013e3181a6a4b3

Barquero, L. A., Sefcik, A. M., Cutting, L. E., & Rimrodt, S. L. (2015). Teaching reading to children with neurofibromatosis type 1: A clinical trial with random assignment to different approaches. *Developmental Medicine and Child Neurology*, *57*(12), 1150–1158. https://doi.org/10.1111/dmcn.12769

Battista, J., & Kalloniatis, M. (2002). Left–right word recognition asymmetries in central and peripheral vision. *Vision Research*, *42*(12), 1583–1592. https://doi.org/10.1016/S0042-6989(02)00075-5

Baudou, E., & Chaix, Y. (2020). The value of screening tests in children with neurofibromatosis type 1 (NF1). *Child's Nervous System*, *36*(10), 2311–2319. https://doi.org/10.1007/s00381-020-04711-6

Baudou, E., Nemmi, F., Biotteau, M., Maziero, S., Assaiante, C., Cignetti, F., Vaugoyeau, M., Audic, F., Peran, P., & Chaix, Y. (2020). Are morphological and structural MRI characteristics related to specific cognitive impairments in neurofibromatosis type 1 (NF1) children? *European Journal of Paediatric Neurology*, *28*, 89–100. https://doi.org/10.1016/j.ejpn.2020.07.003

Baudou, E., Nemmi, F., Biotteau, M., Maziero, S., Peran, P., & Chaix, Y. (2020). Can the Cognitive Phenotype in Neurofibromatosis Type 1 (NF1) Be Explained by Neuroimaging? A Review. *Frontiers in Neurology*, *10*, 1–11. https://doi.org/10.3389/fneur.2019.01373

Beaussart-Corbat, M.-L., Barbarot, S., Farges, D., Martin, L., & Roy, A. (2021). Executive functions in preschool-aged children with neurofibromatosis type 1: Value for early assessment. *Journal of Clinical and Experimental Neuropsychology*, *43*(2), 163–175. https://doi.org/10.1080/13803395.2021.1893277

Beaussart, M.-L., Barbarot, S., Bucaille, A., & Roy, A. (2018). Dysfonctionnement exécutif chez les enfants d'âge préscolaire atteints d'une neurofibromatose de type 1 = Executive dysfunction in preschool children with neurofibromatosis type 1. *Revue de Neuropsychologie, Neurosciences Cognitives et Cliniques*, *10*(3), 195–204. https://doi.org/10.1684/nrp.2018.0464

Beaussart, M.-L., Barbarot, S., Mauger, C., & Roy, A. (2018). Systematic Review and Meta-analysis of Executive Functions in Preschool and School-Age Children with Neurofibromatosis Type 1. *Journal of the International Neuropsychological Society*, *24*(9), 977–994. https://doi.org/10.1017/S1355617718000383

Bedoin, N. (2014). Dyslexie chez l'enfant et déficits d'attention spatiale. *Les Entretiens de l'Orthophonie*.

Bedoin, N. (2017). Rééquilibrer les analyses visuo-attentionnelles globales et locales pour améliorer la lecture chez des enfants dyslexiques de surface. *ANAE - Approche Neuropsychologique Des Apprentissages Chez l'Enfant*, *29*(148), 276–294.

Bellocchi, S. (2013). Developmental Dyslexia, Visual Crowding and Eye Movements. In L. C. Stewart (Ed.), *Eye Movement: Developmental Perspectives, Dysfunctions and Disorders in Humans* (Issue January, pp. 93–110).

Bellocchi, S., & Ducrot, S. (2021). "Same, same but different": The optimal viewing position effect in developmental dyslexia, developmental coordination disorder and comorbid disorders. *Dyslexia*, *27*(3), 294–311. https://doi.org/10.1002/dys.1688

Bellocchi, S., Ducrot, S., Tallet, J., Jucla, M., & Jover, M. (2021). Effect of comorbid developmental dyslexia on oculomotor behavior in children with developmental coordination disorder: A study with the Developmental Eye Movement test. *Human Movement Science*, *76*, 102764. https://doi.org/10.1016/j.humov.2021.102764

Bellocchi, S., & Leclercq, V. (2021). Exploring the Moderation Effect of Educational Stage on Visual Magnocellular Functioning Linked to Reading: A Study in French Primary School Children. *Children*, *8*(2), 68. https://doi.org/10.3390/children8020068

Bellocchi, S., Mancini, J., Jover, M., Huau, A., Ghio, A., André, C., & Ducrot, S. (2013). Dyslexic readers and saccade computation : effects of reading exposure and visuo-perceptual constraints [poster communication]. *XVIIIth ESCoP Conference, Budapest, Hungary*. https://hal.archives-ouvertes.fr/hal-01510227

Bellocchi, S., Massendari, D., Grainger, J., & Ducrot, S. (2019). Effects of inter-character spacing on saccade programming in beginning readers and dyslexics. *Child Neuropsychology*, *25*(4), 482–506. https://doi.org/10.1080/09297049.2018.1504907

Bellocchi, S., Muneaux, M., Bastien-Toniazzo, M., & Ducrot, S. (2013). I can read it in your eyes: What eye movements tell us about visuo-attentional processes in developmental dyslexia. *Research in Developmental Disabilities*, *34*(1), 452–460. https://doi.org/10.1016/j.ridd.2012.09.002

Bellocchi, S., Muneaux, M., Huau, A., Lévêque, Y., Jover, M., & Ducrot, S. (2017). Exploring the Link between Visual Perception, Visual–Motor Integration, and Reading in Normal Developing and Impaired Children using DTVP-2. *Dyslexia*, *23*(3), 296–315. https://doi.org/10.1002/dys.1561

Benton, A. L. (1978). Visuospatial Judgment. *Archives of Neurology*, *35*(6), 364. https://doi.org/10.1001/archneur.1978.00500300038006

Best, J. R., & Miller, P. H. (2010). A Developmental Perspective on Executive Function. *Child Development*, *81*(6), 1641–1660. https://doi.org/10.1111/j.1467-8624.2010.01499.x

Billard, C., Lequette, C., Pouget, G., Pourchet, M., & Zorman, M. (2013). *OUtil de Repérage des Acquis en LECture des élèves en CP*. http://www.cognisciences.com

Billingsley, R. L., Jackson, E. F., Slopis, J. M., Swank, P. R., Mahankali, S., & Moore, B. D. (2003b). Functional magnetic resonance imaging of phonologic processing in neurofibromatosis 1. *Journal of Child Neurology*, *18*(11), 731–740. https://doi.org/10.1177/08830738030180110701

Billingsley, R. L., Jackson, E. F., Slopis, J. M., Swank, P. R., Mahankali, S., & Moore, B. D. (2004). Functional MRI of visual-spatial processing in neurofibromatosis, type I. *Neuropsychologia*, *42*(3), 395–404. https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2003.07.008

Billingsley, R. L., Schrimsher, G. W., Jackson, E. F., Slopis, J. M., & Moore, B. D. (2002). Significance of planum temporale and planum parietale morphologic features in neurofibromatosis type 1. *Archives of Neurology*, *59*(4), 616–622. http://doi.org/10.1001/archneur.59.4.616

Billingsley, R. L., Slopis, J. M., Swank, P. R., Jackson, E. F., & Moore, B. D. (2003a). Cortical morphology associated with language function in neurofibromatosis, type I. *Brain and Language*, *85*(1), 125–139. https://doi.org/10.1016/S0093-934X(02)00563-1

Biotteau, M., Déjean, S., Lelong, S., Iannuzzi, S., Faure-Marie, N., Castelnau, P., Rivier, F., Lauwers-Cancès, V., Baudou, E., & Chaix, Y. (2020). Sporadic and Familial Variants in NF1: An Explanation of the Wide Variability in Neurocognitive Phenotype? *Frontiers in Neurology*, *11*(May). https://doi.org/10.3389/fneur.2020.00368

Biotteau, M., Tournay, E., Baudou, E., Lelong, S., Iannuzzi, S., Faure-Marie, N., Castelnau, P., Schweitzer, E., Rodriguez, D., Kemlin, I., & Dorison, N. (2019). What Can Attention Abilities Teach Us about Reading Comprehension in NF1? *Jnnd*, *5*. https://doi.org/10.17303/jnnd.2019.5.203

Biscaldi, M., Fischer, B., & Hartnegg, K. (2000). Voluntary saccadic control in dyslexia. *Perception*, *29*(5), 509–521. https://doi.org/10.1068/p2666a

Black, J. L., Collins, D. W. K., De Roach, J. N., & Zubrick, S. (1984). A Detailed Study of Sequential Saccadic Eye Movements for Normal- and Poor-Reading Children. *Perceptual and Motor Skills*, *59*(2), 423–434. https://doi.org/10.2466/pms.1984.59.2.423

Blythe, H. I. (2014). Developmental Changes in Eye Movements and Visual Information Encoding Associated With Learning to Read. *Current Directions in Psychological Science*, *23*(3), 201–207. https://doi.org/10.1177/0963721414530145

Blythe, H. I., & Joseph, H. S. S. L. (2011). Children's eye movements during reading. In S. P. Liversedge, I. Gilchrist, & S. Everling (Eds.), *The Oxford Handbook of Eye Movements* (pp. 634–662). Oxford University Press. https://doi.org/10.1093/oxfordhb/9780199539789.013.0036

Blythe, H. I., Kirkby, J., & Liversedge, S. (2018). Comments on: "What Is Developmental Dyslexia?" Brain Sci. 2018, 8, 26. The Relationship between Eye Movements and Reading Difficulties. *Brain Sciences*, *8*(6), 100. https://doi.org/10.3390/brainsci8060100

Blythe, H. I., Liversedge, S. P., Joseph, H. S. S. L., White, S. J., & Rayner, K. (2009). Visual information capture during fixations in reading for children and adults. *Vision Research*, *49*(12), 1583–1591. https://doi.org/10.1016/j.visres.2009.03.015

Borst, G., Ahr, E., Roell, M., & Houdé, O. (2015). The cost of blocking the mirror generalization process in reading: evidence for the role of inhibitory control in discriminating letters with lateral mirror-image counterparts. *Psychonomic Bulletin & Review*, *22*(1), 228–234. https://doi.org/10.3758/s13423-014-0663-9

Borst, G., Cachia, A., Tissier, C., Ahr, E., Simon, G., & Houdé, O. (2016). Early Cerebral Constraints on Reading Skills in School-Age Children: An MRI Study. *Mind, Brain, and Education*, *10*(1), 47–54. https://doi.org/10.1111/mbe.12098

Borst, G., & Houdé, O. (2014). Inhibitory Control As a Core Mechanism for Cognitive Development and Learning at School. *Perspectives on Language and Literacy*, *40*(2), 41–44.

Bosse, M., Tainturier, M. J., & Valdois, S. (2007). Developmental dyslexia: The visual attention span deficit hypothesis. *Cognition*, *104*(2), 198–230. https://doi.org/10.1016/j.cognition.2006.05.009

Bosse, M., & Valdois, S. (2009). Influence of the visual attention span on child reading performance: a cross-sectional study. *Journal of Research in Reading*, *32*(2), 230–253. https://doi.org/10.1111/j.1467-9817.2008.01387.x

Bosse, M., Valdois, S., & Dompnier, B. (2009). Acquisition du langage écrit et empan visuo-attentionnel : une étude longitudinale. In J.-E. Gombert (Ed.), *L'apprentissage de la langue écrite* (pp. 167–178). Presses universitaires de Rennes. https://doi.org/10.4000/books.pur.60497

Both-De Vries, A. C., De Jong, M. T., Shaul, S., & Bus, A. G. (2016). Parafoveal processing of letters and letter-like forms in prereaders growing up in a left-to-right or a right-to-left writing convention. *Language and Cognition*, *8*(4), 566–586. https://doi.org/10.1017/langcog.2015.9

Brei, N. G., Klein-Tasman, B. P., Schwarz, G. N., & Casnar, C. L. (2014). Language in young children with neurofibromatosis-1: Relations to functional communication, attention, and social functioning. *Research in Developmental Disabilities*, *35*(10), 2495–2504. https://doi.org/10.1016/j.ridd.2014.06.016

Bricout-Tomasi, L., Billard, C., & Siéroff, E. (2010). Absence of right visual field attentional bias in reading in dyslexic children. *Behavioural Neurology*, *23*(4), 189–191. https://doi.org/10.3233/BEN-2010-0291

Brysbaert, M., & Nazir, T. A. (2005). Visual constraints in written word recognition: evidence from the optimal viewing-position effect. *Journal of Research in Reading*, *28*(3), 216–228. https://doi.org/10.1111/j.1467-9817.2005.00266.x

Buckingham, J., Beaman, R., & Wheldall, K. (2014). Why poor children are more likely to become poor readers: the early years. *Educational Review*, *66*(4), 428–446. https://doi.org/10.1080/00131911.2013.795129

Bulgheroni, S., Taddei, M., Saletti, V., Esposito, S., Micheli, R., & Riva, D. (2019). Visuoperceptual Impairment in Children with NF1: From Early Visual Processing to Procedural Strategies. *Behavioural Neurology*, *2019*, 1–10. https://doi.org/10.1155/2019/7146168

Buntinx, W., Cans, C., Colleaux, L., Courbois, Y., Debbané, M., Desportes, V., Detraux, J.-J., & Facon, B. (2016). *Déficiences intellectuelles* (I. national de la santé et de la R. M. INSERM (ed.)). https://www.hal.inserm.fr/inserm-02102567

Caldani, S., Gerard, C., Peyre, H., & Bucci, M. P. (2020). Visual Attentional Training Improves Reading Capabilities in Children with Dyslexia: An Eye Tracker Study During a Reading Task. *Brain Sciences*, *10*(8), 558. https://doi.org/10.3390/brainsci10080558

Cancer, A., Bonacina, S., Antonietti, A., Salandi, A., Molteni, M., & Lorusso, M. L. (2020). The Effectiveness of Interventions for Developmental Dyslexia: Rhythmic Reading Training Compared With Hemisphere-Specific Stimulation and Action Video Games. *Frontiers in Psychology*, *11*(June), 1–15. https://doi.org/10.3389/fpsyg.2020.01158

Carrasco, M. (2011). Visual attention: The past 25 years. *Vision Research*, *51*(13), 1484–1525. https://doi.org/10.1016/j.visres.2011.04.012

Carroll, J. M., Snowling, M. J., Hulme, C., & Stevenson, J. (2003). The Development of Phonological Awareness in Preschool Children. *Developmental Psychology*, *39*(5), 913–923. https://doi.org/10.1037/0012-1649.39.5.913

Carroll, J. M., Solity, J., & Shapiro, L. R. (2016). Predicting dyslexia using prereading skills: The role of sensorimotor and cognitive abilities. *Journal of Child Psychology and Psychiatry and Allied Disciplines*, *57*(6), 750–758. https://doi.org/10.1111/jcpp.12488

Casnar, C. L., Janke, K. M., Van Der Fluit, F., Brei, N. G., & Klein-Tasman, B. P. (2014). Relations between fine motor skill and parental report of attention in young children with neurofibromatosis type 1. *Journal of Clinical and Experimental Neuropsychology*, *36*(9), 930–943. https://doi.org/10.1080/13803395.2014.957166

Castricum, J., Tulen, J. H. M., Heuvelmans, A. M., Geleijnse, G., Straver, D. C. G., Taal, W., Kushner, S. A., & Elgersma, Y. (2022). Plasticity of visual evoked potentials in patients with neurofibromatosis type 1. *Clinical Neurophysiology*, *142*, 220–227. https://doi.org/10.1016/j.clinph.2022.08.009

Chabanon, L. (2021). Journée défense et citoyenneté 2020 : près d'un jeune Français sur dix en difficulté de lecture. *Ministère de l'Éducation Nationale, de La Jeunesse et Des Sports*, *n° 21.27*, 1–4. https://www.education.gouv.fr/journee-defense-et-citoyennete-2020-pres-d-un-jeune-francais-sur-dix-en-difficulte-de-lecture-323603

Chabernaud, C., Sirinelli, D., Barbier, C., Cottier, J. P., Sembely, C., Giraudeau, B., Déseille-Turlotte, G., Lorette, G., Barthez, M. A., & Castelnau, P. (2009). Thalamo-striatal T2-weighted hyperintensities (Unidentified Bright Objects) correlate with cognitive impairments in neurofibromatosis type 1 during childhood. *Developmental Neuropsychology*, *34*(6), 736–748. https://doi.org/10.1080/87565640903265137

Chaix, Y., Albaret, J.-M., Brassard, C., Cheuret, E., de Castelnau, P., Benesteau, J., Karsenty, C., & Démonet, J.-F. (2007). Motor impairment in dyslexia: The influence of attention disorders. *European Journal of Paediatric Neurology*, *11*(6), 368–374. https://doi.org/10.1016/j.ejpn.2007.03.006

Chaix, Y., Lion-François, L., Kemlin, I., Faure-Marie, N., Castelnau, P., Barbarot, S., Preclaire, E., Lelong, S., Gentil, C., Lauwers-Cancès, V., Rivier, F., Rodriguez, D., Carniero, M., Iannuzzi, S., Dorison, N., & Schweitzer, E. (2017). Deficit in phonological processes: a characteristic of the neuropsychological profile of children with NF1. *Child Neuropsychology*, *24*(4), 558–574. https://doi.org/10.1080/09297049.2017.1313970

Chevrie-Muller, C., & Plaza, M. (2001). *N-EEL: nouvelles épreuves pour l'examen du langage*. ECPA, Les Editions du Centre de psychologie appliquée.

Choi, B. C. K. (1998). Slopes of a Receiver Operating Characteristic Curve and Likelihood Ratios for a Diagnostic Test. *American Journal of Epidemiology*, *148*(11), 1127–1132. https://doi.org/10.1093/oxfordjournals.aje.a009591

Choi, W., Lowder, M. W., Ferreira, F., & Henderson, J. M. (2015). Individual differences in the perceptual span during reading: Evidence from the moving window technique. *Attention, Perception, & Psychophysics*, *77*(7), 2463–2475. https://doi.org/10.3758/s13414-015-0942-1

Cipolletta, S., Spina, G., & Spoto, A. (2018). Psychosocial functioning, self-image, and quality of life in children and adolescents with neurofibromatosis type 1. *Child: Care, Health and Development*, *44*(2), 260–268. https://doi.org/10.1111/cch.12496

Clements-Stephens, A. M., Rimrodt, S. L., Gaur, P., & Cutting, L. E. (2008). Visuospatial processing in children with neurofibromatosis type 1. *Neuropsychologia*, *46*(2), 690–697. https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2007.09.013

Coltheart, M., Rastle, K., Perry, C., Langdon, R., & Ziegler, J. (2001). DRC: A dual route cascaded model of visual word recognition and reading aloud. *Psychological Review*, *108*(1), 204–256. https://doi.org/10.1037/0033-295X.108.1.204

Comalli, P. E., Wapner, S., & Werner, H. (1962). Interference Effects of Stroop Color-Word Test in Childhood, Adulthood, and Aging. *The Journal of Genetic Psychology*, *100*(1), 47–53. https://doi.org/10.1080/00221325.1962.10533572

Content, A., & Radeau, M. (1988). Données statistiques sur la structure orthographique du français. *Cahiers de Psychologie Cognitive*, *8*(4), 399–404.

Cortés Pascual, A., Moyano Muñoz, N., & Quílez Robres, A. (2019). The Relationship Between Executive Functions and Academic Performance in Primary Education: Review and Meta-Analysis. *Frontiers in Psychology*, *10*. https://doi.org/10.3389/fpsyg.2019.01582

Costa, R. M., & Silva, A. J. (2002). Molecular and cellular mechanisms underlying the cognitive deficits associated with neurofibromatosis 1. *J Child Neurol*, *17*(8), 622–626.

Coudé, F. X., Mignot, C., Lyonnet, S., & Munnich, A. (2006). Academic impairment is the most frequent complication of neurofibromatosis type-1 (NF1) in children. *Behavior Genetics*, *36*(5), 660–664. https://doi.org/10.1007/s10519-005-9040-9

Coulter, R. A., & Shallo-Hoffman, J. (2001). The Presumed Influence of Attention on Accuracy in the Developmental Eye Movement (DEM) Test. *Optometry and Vision Science*, *78*(1), 8. https://doi.org/10.1097/00006324-200101010-00007

Coutinho, V., Kemlin, I., Dorison, N., Billette de Villemeur, T., Rodriguez, D., & Dellatolas, G. (2016). Neuropsychological evaluation and parental assessment of behavioral and motor difficulties in children with neurofibromatosis type 1. *Research in Developmental Disabilities*, *48*, 220–230. https://doi.org/10.1016/j.ridd.2015.11.010

Crawford, J. R., & Garthwaite, P. H. (2002). Investigation of the single case in neuropsychology: confidence limits on the abnormality of test scores and test score differences. *Neuropsychologia*, *40*(8), 1196–1208. https://doi.org/10.1016/S0028-3932(01)00224-X

Crawford, J. R., Garthwaite, P. H., & Porter, S. (2010). Point and interval estimates of effect sizes for the case-controls design in neuropsychology: Rationale, methods, implementations, and proposed reporting standards. *Cognitive Neuropsychology*, *27*(3), 245–260. https://doi.org/10.1080/02643294.2010.513967

Crow, A. J. D., Janssen, J. M., Marshall, C., Moffit, A., Brennan, L., Kohler, C. G., Roalf, D. R., & Moberg, P. J. (2022). A systematic review and meta-analysis of intellectual, neuropsychological, and psychoeducational functioning in neurofibromatosis type 1. *American Journal of Medical Genetics Part A*, *1*(December 2021), 1–16. https://doi.org/10.1002/ajmg.a.62773

Cutting, L. E., Koth, C. W., Burnette, C. P., Abrams, M. T., Kaufmann, W. E., & Bridge Denckla, M. (2000b). Relationship of Cognitive Functioning, Whole Brain Volumes, and T2-Weighted Hyperintensities in Neurofibromatosis-1. *Journal of Child Neurology*, *15*(3), 157–160. https://doi.org/10.1177/088307380001500303

Cutting, L. E., Koth, C. W., & Denckla, M. B. (2000a). How Children With Neurofibromatosis Type 1 Differ From "Typical" Learning Disabled Clinic Attenders: Nonverbal Learning Disabilities Revisited. *Developmental Neuropsychology*, *May 2013*, 29–47.

Cutting, L. E., & Levine, T. (2010). Cognitive profile of children with Neurofibromatosis and reading disabilities. *Child Neuropsychol*, *16*(5), 417–432. https://doi.org/10.1080/09297041003761985.Cognitive

Danna, J., Massendari, D., Furnari, B., & Ducrot, S. (2018). The optimal viewing position effect in printed versus cursive words: Evidence of a reading cost for the cursive font. *Acta Psychologica*, *188*(June), 110–121. https://doi.org/10.1016/j.actpsy.2018.06.003

Dare, N., & Shillcock, R. (2013). Serial and parallel processing in reading: Investigating the effects of parafoveal orthographic information on nonisolated word recognition. *Quarterly Journal of Experimental Psychology*, *66*(3), 487–504. https://doi.org/10.1080/17470218.2012.703212

Datin-Dorrière, V., Borst, G., Guillois, B., Cachia, A., & Poirel, N. (2021). The forest, the trees, and the leaves in preterm children: the impact of prematurity on a visual search task containing three-level hierarchical stimuli. *European Child & Adolescent Psychiatry*, *30*(2), 253–260. https://doi.org/10.1007/s00787-020-01510-x

Davidse, N. J., De Jong, M. T., & Bus, A. G. (2015). Causal Relations among Executive Functions and Academic Skills from Preschool to End of First Grade. *English Linguistics Research*, *4*(1). https://doi.org/10.5430/elr.v4n1p49

De Luca, M., Borrelli, M., Judica, A., Spinelli, D., & Zoccolotti, P. (2002). Reading words and pseudowords: An eye movement study of developmental dyslexia. *Brain and Language*, *80*(3), 617–626. https://doi.org/10.1006/brln.2001.2637

Deans, P., O'Laughlin, L., Brubaker, B., Gay, N., & Krug, D. (2010). Use of Eye Movement Tracking in the Differential Diagnosis of Attention Deficit Hyperactivity Disorder (ADHD) and Reading Disability. *Psychology*, *01*(04), 238–246. https://doi.org/10.4236/psych.2010.14032

DeBella, K., Szudek, J., & Friedman, J. M. (2000). Use of the National Institutes of Health criteria for diagnosis of neurofibromatosis 1 in children. *Pediatrics*, *105*(3), 608–614. https://doi.org/10.1542/peds.105.3.608

Dehaene-Lambertz, G., Monzalvo, K., & Dehaene, S. (2018). The emergence of the visual word form: Longitudinal evolution of category-specific ventral visual areas during reading acquisition. *PLOS Biology*, *16*(3), e2004103. https://doi.org/10.1371/journal.pbio.2004103

Dehaene, S., & Cohen, L. (2011). The unique role of the visual word form area in reading. *Trends in Cognitive Sciences*, *15*(6), 254–262. https://doi.org/10.1016/j.tics.2011.04.003

Dehaene, S., Cohen, L., Morais, J., & Kolinsky, R. (2015). Illiterate to literate: behavioural and cerebral changes induced by reading acquisition. *Nature Reviews Neuroscience*, *16*(4), 234–244. https://doi.org/10.1038/nrn3924

Dehaene, S., Cohen, L., Sigman, M., & Vinckier, F. (2005). The neural code for written words: A proposal. *Trends in Cognitive Sciences*, *9*(7), 335–341. https://doi.org/10.1016/j.tics.2005.05.004

Dehaene, S., Pegado, F., Braga, L. W., Ventura, P., Nunes Filho, G., Jobert, A., Dehaene-Lambertz, G., Kolinsky, R., Morais, J., & Cohen, L. (2010). How learning to read changes the cortical networks for vision and language. *Science*, *330*(6009), 1359–1364. https://doi.org/10.1126/science.1194140

Dekker, M. C., Ziermans, T. B., Spruijt, A. M., & Swaab, H. (2017). Cognitive, Parent and Teacher Rating Measures of Executive Functioning: Shared and Unique Influences on School Achievement. *Frontiers in Psychology*, *8*(JAN), 1–13. https://doi.org/10.3389/fpsyg.2017.00048

Denckla, M. B. (1996). Neurofibromatosis type 1: A model for the pathogenesis of reading disability. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews*, *2*(1), 48–53. https://doi.org/10.1002/(SICI)1098-2779(1996)2:1<48::AID-MRDD8>3.0.CO;2-T

Descheemaeker, M. J., Ghesquière, P., Symons, H., Fryns, J. P., & Legius, E. (2005). Behavioural, academic and neuropsychological profile of normally gifted Neurofibromatosis type 1 children. *Journal of Intellectual Disability Research*, *49*(1), 33–46. https://doi.org/10.1111/j.1365-2788.2005.00660.x

Di Filippo, G., & Zoccolotti, P. (2011). Separating global and specific factors in developmental dyslexia. *Child Neuropsychology*, *18*(4), 1–36. https://doi.org/10.1080/09297049.2011.613809

Diamond, A. (2013). Executive Functions. *Annual Review of Psychology*, *64*(1), 135–168. https://doi.org/10.1146/annurev-psych-113011-143750

Dilts, C. V., Carey, J. C., Kircher, J. C., Hoffman, R. O., Creel, D., Ward, K., Clark, E., & Leonard, C. O. (1996). Children and adolescent with Neurofibromatosis 1 : A behavioral phenotype. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, *17*(4), 229–239.

DiPaolo, D. P., Zimmerman, R. A., Rorke, L. B., Zackai, E. H., Bilaniuk, L. T., & Yachnis, A. T. (1995). Neurofibromatosis type 1: pathologic substrate of high-signal-intensity foci in the brain. *Radiology*, *195*(3), 721–724. https://doi.org/10.1148/radiology.195.3.7754001

Domon-Archambault, V., Gagnon, L., Benoît, A., & Perreault, S. (2018). Psychosocial Features of Neurofibromatosis Type 1 in Children and Adolescents. *Journal of Child Neurology*, *33*(3), 225–232. https://doi.org/10.1177/0883073817749367

Doser, K., Kenborg, L., Andersen, E. W., Bidstrup, P. E., Kroyer, A., Hove, H., Østergaard, J., Sørensen, S. A., Johansen, C., Mulvihill, J., Winther, J. F., & Dalton, S. O. (2019). Educational delay and attainment in persons with neurofibromatosis 1 in Denmark. *European Journal of Human Genetics*. https://doi.org/10.1038/s41431-019-0359-8

Duarte, J. V., Ribeiro, M. J., Violante, I. R., Cunha, G., Silva, E., & Castelo-Branco, M. (2014). Multivariate pattern analysis reveals subtle brain anomalies relevant to the cognitive phenotype in neurofibromatosis type 1. *Human Brain Mapping*, *35*(1), 89–106. https://doi.org/10.1002/hbm.22161

Ducrot, S., & Grainger, J. (2007). Deployment of spatial attention to words in central and peripheral vision. *Perception and Psychophysics*, *69*(4), 578–590. https://doi.org/10.3758/BF03193915

Ducrot, S., & Lété, B. (2007). Attention et contrôle oculaire en lecture experte. In G. A. Michael (Ed.), *Neuroscience Cognitive de l'Attention Visuelle* (pp. 229–264).

Ducrot, S., Lété, B., Descottes, C., Muneaux, M., & Ghio, A. (2006). *The Emaa (EyeMovement Acquisition and Analysis) software package.* Unpublished Technical Report (67 p.), University of Provence.

Ducrot, S., Lété, B., Sprenger-Charolles, L., Pynte, J., & Billard, C. (2003). The Optimal Viewing Position Effect in Beginning and Dyslexic Readers. *Current Psychology Letters. Behaviour, Brain & Cognition*, *1*(10).

Ducrot, S., & Pynte, J. (2002). What determines the eyes' landing position in words? *Perception and Psychophysics*, *64*(7), 1130–1144. https://doi.org/10.3758/BF03194762

Ducrot, S., Pynte, J., Ghio, A., & Lété, B. (2013). Visual and linguistic determinants of the eyes' initial fixation position in reading development. *Acta Psychologica*, *142*(3), 287–298. https://doi.org/10.1016/j.actpsy.2013.01.013

Ebrahimi, L., Pouretemad, H., Stein, J. F., Alizadeh, E., & Khatibi, A. (2022). Enhanced reading abilities is modulated by faster visual spatial attention. *Annals of Dyslexia*, *72*(1), 125–146. https://doi.org/10.1007/s11881-021-00245-x

Eldridge, R., Denckla, M. B., Bien, E., Myers, S., Kaiser Kupfer, M. I., Pikus, A., Schlesinger, S. L., Parry, D. M., Dambrosia, J. M., Zasloff, M. A., & Mulvihill, J. J. (1989). Neurofibromatosis Type 1 (Recklinghausen's Disease): Neurologic and Cognitive Assessment With Sibling Controls. *American Journal of Diseases of Children*, *143*(7), 833–837. https://doi.org/10.1001/archpedi.1989.02150190083027

Eliason, M. J. (1986). Neurofibromatosis: Implications for learning and behavior. In *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics* (Vol. 7, Issue 3, pp. 175–179). https://doi.org/10.1097/00004703-198606000-00009

Engbert, R., Longtin, A., & Kliegl, R. (2002). A dynamical model of saccade generation in reading based on spatially distributed lexical processing. *Vision Research*, *42*(5), 621–636. https://doi.org/10.1016/S0042-6989(01)00301-7

Engbert, R., Nuthmann, A., Richter, E. M., & Kliegl, R. (2005). SWIFT: A Dynamical Model of Saccade Generation During Reading. *Psychological Review*, *112*(4), 777–813. https://doi.org/10.1037/0033-295X.112.4.777

Erdogan-Bakar, E., Cinbiş, M., Ozyurek, H., Kiris, N., Altunbaşak, Ş., & Anlar, B. (2009). Cognitive functions in neurofibromatosis type 1 patients and unaffected siblings. *The Turkish Journal of Pediatrics*, *51*, 565–571. https://doi.org/10.1016/S1090-3798(08)70376-3

Evans, D. G., Howard, E., Giblin, C., Clancy, T., Spencer, H., Huson, S. M., & Lalloo, F. (2010). Birth incidence and prevalence of tumor-prone syndromes: Estimates from a UK family genetic register service. *American Journal of Medical Genetics, Part A*, *152*(2), 327–332. https://doi.org/10.1002/ajmg.a.33139

Everatt, J., Warner, J., Miles, T. R., & Thomson, M. E. (1997). The incidence of Stroop interference in dyslexia. *Dyslexia*, *3*(4), 222–228. https://doi.org/10.1002/(SICI)1099-0909(199712)3:4<222::AID-DYS12>3.0.CO;2-P

Facchin, A. (2021). Spotlight on the Developmental Eye Movement (DEM) Test. *Clinical Optometry*, *Volume 13*, 73–81. https://doi.org/10.2147/OPTO.S232487

Facchin, A., Ruffino, M., Facoetti, A., & Maffioletti, S. (2014). Modified direction of DEM test suggests differences in naming and eye movements. *Optometry & Visual Performance*, *2*(3), 103–110.

Faccioli, C., Peru, A., Rubini, E., & Tassinari, G. (2008). Poor Readers but Compelled to Read: Stroop Effects in Developmental Dyslexia. *Child Neuropsychology*, *14*(3), 277–283. https://doi.org/10.1080/09297040701290040

Facoetti, A., Corradi, N., Ruffino, M., Gori, S., & Zorzi, M. (2010). Visual spatial attention and speech segmentation are both impaired in preschoolers at familial risk for developmental dyslexia. *Dyslexia*, *16*(3), 226–239. https://doi.org/10.1002/dys.413

Facoetti, A., Franceschini, S., & Gori, S. (2019). Role of Visual Attention in Developmental Dyslexia. In *Developmental Dyslexia across Languages and Writing Systems* (pp. 307–326). Cambridge University Press. https://doi.org/10.1017/9781108553377.014

Facoetti, A., Luisa Lorusso, M., Paganoni, P., Umiltà, C., & Gastone Mascetti, G. (2003). The role of visuospatial attention in developmental dyslexia: evidence from a rehabilitation study. *Cognitive Brain Research*, *15*(2), 154–164. https://doi.org/10.1016/S0926-6410(02)00148-9

Facoetti, A., Paganoni, P., & Lorusso, M. L. (2000). The spatial distribution of visual attention in developmental dyslexia. *Experimental Brain Research*, *132*(4), 531–538. https://doi.org/10.1007/s002219900330

Facoetti, A., & Turatto, M. (2000). Asymmetrical visual fields distribution of attention in dyslexic children: a neuropsychological study. *Neuroscience Letters*, *290*(3), 216–218. https://doi.org/10.1016/S0304-3940(00)01354-9

Facoetti, A., Zorzi, M., Cestnick, L., Lorusso, M. L., Molteni, M., Paganoni, P., Umiltà, C., & Mascetti, G. G. (2006). The relationship between visuo-spatial attention and nonword reading in developmental dyslexia. *Cognitive Neuropsychology*, *23*(6), 841–855. https://doi.org/10.1080/02643290500483090

Farioli, F., Grainger, J., & Ferrand, L. (2011). PHOM : une base de données de 14 000 pseudo-homophones. *L'Année Psychologique*, *Vol. 111*(4), 725–751. https://doi.org/10.3917/anpsy.114.0725

Feitelson, D., & Goldstein, Z. (1986). Patterns of Book Ownership and Reading to Young Children in Israeli School-Oriented and Nonschool-Oriented Families. *The Reading Teacher*, *39*(9), 924–930. http://www.jstor.org/stable/20199270

Feldmann, R., Schuierer, G., Wessel, A., Neveling, N., & Weglage, J. (2010). Development of MRI T2 hyperintensities and cognitive functioning in patients with neurofibromatosis type 1. *Acta Paediatrica*, *99*(11), 1657–1660. https://doi.org/10.1111/j.1651-2227.2010.01923.x

Ferner, R. E., Hughes, R. A. C., & Weinman, J. (1996). Intellectual impairment in neurofibromatosis 1. *Journal of the Neurological Sciences*, *138*(1–2), 125–133. https://doi.org/10.1016/0022-510X(96)00022-6

Ferrand, L., Ducrot, S., Chausse, P., Maïonchi-Pino, N., O'Connor, R. J., Parris, B. A., Perret, P., Riggs, K. J., & Augustinova, M. (2020). Stroop interference is a composite phenomenon: Evidence from distinct developmental trajectories of its components. *Developmental Science*, *23*(2), 1–17. https://doi.org/10.1111/desc.12899

Fluss, J., Ziegler, J. C., Warszawski, J., Ducot, B., Richard, G., & Billard, C. (2009). Poor Reading in French Elementary School: The Interplay of Cognitive, Behavioral, and Socioeconomic Factors. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, *30*(3), 206–216. https://doi.org/10.1097/DBP.0b013e3181a7ed6c

Forget-Dubois, N., Dionne, G., Lemelin, J.-P., Pérusse, D., Tremblay, R. E., & Boivin, M. (2009). Early Child Language Mediates the Relation Between Home Environment and School Readiness. *Child Development*, *80*(3), 736–749. https://doi.org/10.1111/j.1467-8624.2009.01294.x

Forster, K. I., & Forster, J. C. (2003). DMDX: A Windows display program with millisecond accuracy. *Behavior Research Methods, Instruments, & Computers*, *35*(1), 116–124. https://doi.org/10.3758/BF03195503

Franceschini, S., Bertoni, S., Gianesini, T., Gori, S., & Facoetti, A. (2017). A different vision of dyslexia: Local precedence on global perception. *Scientific Reports*, *7*(1), 17462. https://doi.org/10.1038/s41598-017-17626-1

Franceschini, S., Bertoni, S., & Puccio, G. (2022). *Hidden in the Labyrinth : Visuo-spatial Attention Deficit in Children with Developmental Dyslexia*. 1–18.

Franceschini, S., Bertoni, S., Puccio, G., Mancarella, M., Gori, S., & Facoetti, A. (2021). Local perception impairs the lexical reading route. *Psychological Research*, *85*(4), 1748–1756. https://doi.org/10.1007/s00426-020-01326-z

Franceschini, S., Bertoni, S., Ronconi, L., Molteni, M., Gori, S., & Facoetti, A. (2015). "Shall We Play a Game?": Improving Reading Through Action Video Games in Developmental Dyslexia. *Current Developmental Disorders Reports*, *2*(4), 318–329. https://doi.org/10.1007/s40474-015-0064-4

Franceschini, S., Gori, S., Ruffino, M., Pedrolli, K., & Facoetti, A. (2012). A causal link between visual spatial attention and reading acquisition. *Current Biology*, *22*(9), 814–819. https://doi.org/10.1016/j.cub.2012.03.013

Franzen, L., Stark, Z., & Johnson, A. P. (2021). Individuals with dyslexia use a different visual sampling strategy to read text. *Scientific Reports*, *11*(1), 6449. https://doi.org/10.1038/s41598-021-84945-9

Freedman, E. G., Molholm, S., Gray, M. J., Belyusar, D., & Foxe, J. J. (2017). Saccade adaptation deficits in developmental dyslexia suggest disruption of cerebellar-dependent learning. *Journal of Neurodevelopmental Disorders*, *9*(1), 36. https://doi.org/10.1186/s11689-017-9218-5

Frey, A., & Bosse, M. (2018). Perceptual span, visual span, and visual attention span: Three potential ways to quantify limits on visual processing during reading. *Visual Cognition*, *26*(6), 412–429. https://doi.org/10.1080/13506285.2018.1472163

Friedman, N. P., & Miyake, A. (2004). The Relations Among Inhibition and Interference Control Functions: A Latent-Variable Analysis. *Journal of Experimental Psychology: General*, *133*(1), 101–135. https://doi.org/10.1037/0096-3445.133.1.101

Frith, C., & Frith, U. (1996). A biological marker for dyslexia. *Nature*, *382*(6586), 19–20. https://doi.org/10.1038/382019a0

Frith, U., Landerl, K., & Frith, C. (1995). Dyslexia and verbal fluency: More evidence for a phonological deficit. *Dyslexia*, *1*, 2–11. https://doi.org/1076-9242/95/010002-10.

Garzia, R. P., Richman, J. E., Nicholson, S. B., & Gaines, C. S. (1990). A new visual-verbal saccade test: the development eye movement test (DEM). *Journal of the American Optometric Association*, *61*(2), 124–135.

Gates, N. J., & March, E. G. (2016). A Neuropsychologist's Guide To Undertaking a Systematic Review for Publication: Making the most of PRISMA Guidelines. *Neuropsychology Review*, *26*(2), 109–120. https://doi.org/10.1007/s11065-016-9318-0

Gavril, L., Roșan, A., & Szamosközi, Ștefan. (2021). The role of visual-spatial attention in reading development: a meta-analysis. *Cognitive Neuropsychology*, *38*(6), 387–407. https://doi.org/10.1080/02643294.2022.2043839

Geiger, G., Cattaneo, C., Galli, R., Pozzoli, U., Lorusso, M. L., Facoetti, A., & Molteni, M. (2008). Wide and Diffuse Perceptual Modes Characterize Dyslexics in Vision and Audition. *Perception*, *37*(11), 1745–1764. https://doi.org/10.1068/p6036

Georgiou, G. K., Tziraki, N., Manolitsis, G., & Fella, A. (2013). Is rapid automatized naming related to reading and mathematics for the same reason(s)? A follow-up study from kindergarten to Grade 1. *Journal of Experimental Child Psychology*, *115*(3), 481–496. https://doi.org/10.1016/j.jecp.2013.01.004

Gil-Gómez de Liaño, B., Quirós-Godoy, M., Pérez-Hernández, E., & Wolfe, J. M. (2020). Efficiency and accuracy of visual search develop at different rates from early childhood through early adulthood. *Psychonomic Bulletin & Review*, *27*(3), 504–511. https://doi.org/10.3758/s13423-020-01712-z

Gilboa, Y., Josman, N., Fattal-Valevski, A., Toledano-Alhadef, H., & Rosenblum, S. (2010). The handwriting performance of children with NF1. *Research in Developmental Disabilities*, *31*(4), 929–935. https://doi.org/10.1016/j.ridd.2010.03.005

Gilboa, Y., Josman, N., Fattal-Valevski, A., Toledano-Alhadef, H., & Rosenblum, S. (2014). Underlying mechanisms of writing difficulties among children with Neurofibromatosis type 1. *Research in Developmental Disabilities*, *35*(6), 1310–1316. https://doi.org/10.1016/j.ridd.2014.03.021

Gilboa, Y., Rosenblum, S., Fattal-Valevski, A., Toledano-Alhadef, H., & Josman, N. (2014). Is there a relationship between executive functions and academic success in children with neurofibromatosis type 1? *Neuropsychological Rehabilitation*, *24*(6), 918–935. https://doi.org/10.1080/09602011.2014.920262

Gilboa, Y., Rosenblum, S., Fattal-Valevski, A., Toledano-Alhadef, H., Rizzo, A. S., & Josman, N. (2011). Using a Virtual Classroom environment to describe the attention deficits profile of children with Neurofibromatosis type 1. *Research in Developmental Disabilities*, *32*(6), 2608–2613. https://doi.org/10.1016/j.ridd.2011.06.014

Gill, D. S., Hyman, S. L., Steinberg, A., & North, K. N. (2006). Age-related findings on MRI in neurofibromatosis type 1. *Pediatric Radiology*, *36*(10), 1048–1056. https://doi.org/10.1007/s00247-006-0267-2

Ginestet, E., Phénix, T., Diard, J., & Valdois, S. (2019). Modeling the length effect for words in lexical decision: The role of visual attention. *Vision Research*, *159*(December 2018), 10–20. https://doi.org/10.1016/j.visres.2019.03.003

Ginestet, E., Valdois, S., & Diard, J. (2022). Probabilistic modeling of orthographic learning based on visuo-attentional dynamics. *Psychonomic Bulletin & Review*. https://doi.org/10.3758/s13423-021-02042-4

Giovagnoli, G., Vicar, S., Tomassetti, S., & Menghini, D. (2016). The Role of Visual-Spatial Abilities in Dyslexia: Age Differences in Children's Reading? *Frontiers in Psychology*, *7*(DEC), 1–9. https://doi.org/10.3389/fpsyg.2016.01997

Goetsch Weisman, A., Haws, T., Lee, J., Lewis, A. M., Srdanovic, N., & Radtke, H. B. (2020). Transition Readiness Assessment in Adolescents and Young Adults with Neurofibromatosis Type 1 (NF1). *Comprehensive Child and Adolescent Nursing*, *00*(00), 1–17. https://doi.org/10.1080/24694193.2020.1806402

Goh, W. H. S., Khong, P. L., Leung, C. S. Y., & Wong, V. C. N. (2004). T2-weighted hyperintensities (unidentified bright objects) in children with neurofibromatosis 1: Their impact on cognitive function. *Journal of Child Neurology*, *19*(11), 853–858. https://doi.org/10.1177/08830738040190110201

Goldstein-Marcusohn, Y., Goldfarb, L., & Shany, M. (2020). Global and Local Visual Processing in Rate/Accuracy Subtypes of Dyslexia. *Frontiers in Psychology*, *11*(April), 1–9. https://doi.org/10.3389/fpsyg.2020.00828

Gori, S., & Facoetti, A. (2015). How the visual aspects can be crucial in reading acquisition: The intriguing case of crowding and developmental dyslexia. *Journal of Vision*, *15*(1), 1–20. https://doi.org/10.1167/15.1.8

Gori, S., Seitz, A. R., Ronconi, L., Franceschini, S., & Facoetti, A. (2016). Multiple Causal Links Between Magnocellular–Dorsal Pathway Deficit and Developmental Dyslexia. *Cerebral Cortex*, *26*(11), 4356–4369. https://doi.org/10.1093/cercor/bhv206

Goswami, U. (2015). Sensory theories of developmental dyslexia: three challenges for research. *Nature Reviews Neuroscience*, *16*(1), 43–54. https://doi.org/10.1038/nrn3836

Grainger, J. (2018). Orthographic processing: A 'mid-level' vision of reading: The 44th Sir Frederic Bartlett Lecture. *Quarterly Journal of Experimental Psychology*, *71*(2), 335–359. https://doi.org/10.1080/17470218.2017.1314515

Grainger, J., Bertrand, D., Lété, B., Beyersmann, E., & Ziegler, J. C. (2016). A developmental investigation of the first-letter advantage. *Journal of Experimental Child Psychology*, *152*, 161–172. https://doi.org/10.1016/j.jecp.2016.07.016

Grainger, J., Dufau, S., & Ziegler, J. C. (2016). A Vision of Reading. *Trends in Cognitive Sciences*, *20*(3), 171–179. https://doi.org/10.1016/j.tics.2015.12.008

Grainger, J., & Van Heuven, W. J. B. (2004). Modeling Letter Position Coding in Printed Word Perception. In *Mental lexicon: "Some words to talk about words"* (pp. 1–23). Nova Science Publishers.

Grainger, J., & Ziegler, J. C. (2011). A Dual-Route Approach to Orthographic Processing. *Frontiers in Psychology*, *2*(APR), 1–13. https://doi.org/10.3389/fpsyg.2011.00054

Guilbert, A., & Guiraud-Vinatea, H. (2022). Links between organized visual search and reading ability in French primary school children. *Dyslexia*, *28*(1), 97–109. https://doi.org/10.1002/dys.1703

Gutmann, D. H., Ferner, R. E., Listernick, R. H., Korf, B. R., Wolters, P. L., & Johnson, K. J. (2017). Neurofibromatosis type 1. *Nature Reviews Disease Primers*, *3*(1), 17004. https://doi.org/10.1038/nrdp.2017.4

Häikiö, T., Bertram, R., Hyönä, J., & Niemi, P. (2009). Development of the letter identity span in reading: Evidence from the eye movement moving window paradigm. *Journal of Experimental Child Psychology*, *102*(2), 167–181. https://doi.org/10.1016/j.jecp.2008.04.002

Hamilton, L. G., Hayiou-Thomas, M. E., Hulme, C., & Snowling, M. J. (2016). The Home Literacy Environment as a Predictor of the Early Literacy Development of Children at Family-Risk of Dyslexia. *Scientific Studies of Reading*, *20*(5), 401–419. https://doi.org/10.1080/10888438.2016.1213266

Hammill, D. D., Pearson, N. A., & Voress, J. K. (2014). *DTVP-3: Developmental test of visual perception*. Pro-ed.

Hari, R. (2001). Left minineglect in dyslexic adults. *Brain*, *124*(7), 1373–1380. https://doi.org/10.1093/brain/124.7.1373

Hari, R., & Renvall, H. (2001). Impaired processing of rapid stimulus sequences in dyslexia. *Trends in Cognitive Sciences*, *5*(12), 525–532. https://doi.org/10.1016/S1364-6613(00)01801-5

Hawelka, S., Gagl, B., & Wimmer, H. (2010). A dual-route perspective on eye movements of dyslexic readers. *Cognition*, *115*(3), 367–379. https://doi.org/10.1016/j.cognition.2009.11.004

Henderson, J. M., & Ferreira, F. (1990). Effects of foveal processing difficulty on the perceptual span in reading: Implications for attention and eye movement control. *Journal of Experimental Psychology: Learning, Memory, and Cognition*, *16*(3), 417–429. https://doi.org/10.1037/0278-7393.16.3.417

Hill, G. T., & Raymond, J. E. (2002). Deficits of motion transparency perception in adult developmental dyslexics with normal unidirectional motion sensitivity. *Vision Research*, *42*(9), 1195–1203. https://doi.org/10.1016/S0042-6989(02)00042-1

Hofman, K. J., Karen, J. H., Harris, E. L., & Bryan, R. N. (1994). *Neurofibromatosis type 1 The cognitive phenotype*. 1–8.

Hohenstein, S., Laubrock, J., & Kliegl, R. (2010). Semantic preview benefit in eye movements during reading: A parafoveal fast-priming study. *Journal of Experimental Psychology: Learning, Memory, and Cognition*, *36*(5), 1150–1170. https://doi.org/10.1037/a0020233

Hopkins, S., Black, A. A., White, S. L. J., & Wood, J. M. (2019). Visual information processing skills are associated with academic performance in Grade 2 school children. *Acta Ophthalmologica*, *97*(8), e1141–e1148. https://doi.org/10.1111/aos.14172

Hubel, D. H. (1995). *Eye, brain, and vision.* Scientific American Library/Scientific American Books.

Huestegge, L., Radach, R., Corbic, D., & Huestegge, S. M. (2009). Oculomotor and linguistic determinants of reading development: A longitudinal study. *Vision Research*, *49*(24), 2948–2959. https://doi.org/10.1016/j.visres.2009.09.012

Huettig, F., Lachmann, T., Reis, A., & Petersson, K. M. (2018). Distinguishing cause from effect – many deficits associated with developmental dyslexia may be a consequence of reduced and suboptimal reading experience. *Language, Cognition and Neuroscience*, *33*(3), 333–350. https://doi.org/10.1080/23273798.2017.1348528

Huijbregts, S. C. J., Jahja, R., De Sonneville, L., De Breij, S., & Swaab-Barneveld, H. (2010). Social information processing in children and adolescents with neurofibromatosis type 1. *Developmental Medicine & Child Neurology*, *52*(7), 620–625. https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2010.03639.x

Huijbregts, S. C. J., Loitfelder, M., Rombouts, S. A., Swaab, H., Verbist, B. M., Arkink, E. B., Van Buchem, M. A., & Veer, I. M. (2015). Cerebral volumetric abnormalities in Neurofibromatosis type 1: associations with parent ratings of social and attention problems, executive dysfunction, and autistic mannerisms. *Journal of Neurodevelopmental Disorders*, *7*(1), 32. https://doi.org/10.1186/s11689-015-9128-3

Huson, S. M., Compston, D. A. S., Clark, P., & Harper, P. S. (1989). A genetic study of von Recklinghausen neurofibromatosis in south east Wales. I Prevalence, fitness, mutation rate, and effect of parental transmission on severity. *Journal of Medical Genetics*, *26*(11), 704–711. https://doi.org/10.1136/jmg.26.11.704

Hutzler, F., Kronbichler, M., Jacobs, A. M., & Wimmer, H. (2006). Perhaps correlational but not causal: No effect of dyslexic readers' magnocellular system on their eye movements during reading. *Neuropsychologia*, *44*(4), 637–648. https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2005.06.006

Hyman, S. L., Gill, D. S., Shores, E. A., Steinberg, A., & North, K. N. (2007). T2 hyperintensities in children with neurofibromatosis type 1 and their relationship to cognitive functioning. *Journal of Neurology, Neurosurgery and Psychiatry*, *78*(10), 1088–1091. https://doi.org/10.1136/jnnp.2006.108134

Hyman, S. L., Shores, A., & North, K. N. (2005). The nature and frequency of cognitive deficits in children with neurofibromatosis type 1. *Neurology*, *65*(7), 1037–1044. https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000179303.72345.ce

Hyman, S. L., Shores, E. A., & North, K. N. (2006). Learning disabilities in children with neurofibromatosis type 1: Subtypes, cognitive profile, and attention-deficit-hyperactivity disorder. *Developmental Medicine and Child Neurology*, *48*(12), 973–977. https://doi.org/10.1017/S0012162206002131

Hyönä, J. (1995). Do Irregular Letter Combinations Attract Readers' Attention? Evidence From Fixation Locations in Words. *Journal of Experimental Psychology: Human Perception and Performance*, *21*(1), 68–81. https://doi.org/10.1037/0096-1523.21.1.68

Hyönä, J., & Koivisto, M. (2006). The role of eye movements in lateralised word recognition. *Laterality: Asymmetries of Body, Brain and Cognition*, *11*(2), 155–169. https://doi.org/10.1080/13576500500395641

Iannaccone, A., McCluney, R. A., Brewer, V. R., Spiegel, P. H., Taylor, J. S., Kerr, N. C., & Pivnick, E. K. (2002). Visual evoked potentials in children with neurofibromatosis type 1. *Documenta Ophthalmologica*, *105*(1), 63–81. https://doi.org/10.1023/A:1015719803719

Inhoff, A. W., & Rayner, K. (1986). Parafoveal word processing during eye fixations in reading: Effects of word frequency. *Perception & Psychophysics*, *40*(6), 431–439. https://doi.org/10.3758/BF03208203

Inserm. (2007). Dyslexie Dysorthographie Dyscalculie. *Institut National de La Santé et de La Recherche Médicale INSERM*, *43*(104), 1350–1360.

Irani, F. (2011). Visual-Spatial Ability. In J. S. Kreutzer, J. DeLuca, & B. Caplan (Eds.), *Encyclopedia of Clinical Neuropsychology* (pp. 2656–2656).

Isenberg, J. C., Templer, A., Gao, F., Titus, J. B., & Gutmann, D. H. (2013). Attention skills in children with neurofibromatosis type 1. *Journal of Child Neurology*, *28*(1), 45–49. https://doi.org/10.1177/0883073812439435

Iversen, S., Berg, K., Ellertsen, B., & Tønnessen, F. E. (2005). Motor coordination difficulties in a municipality group and in a clinical sample of poor readers. *Dyslexia*, *11*(3), 217–231. https://doi.org/10.1002/dys.297

Jacquier-Roux, M., Valdois, S., & Zorman, M. (2002). *Outil de dépistage des dyslexies [Dyslexia screening tool]*. Laboratoire de Cogni-Sciences IUFM, Grenoble, France (2002).

Jacquier-Roux, M., Valdois, S., Zorman, M., Lequette, C., & Pouget, G. (2005). ODEDYS: outil de dépistage des dyslexies, version 2. In *Grenoble: Laboratoire cogni-sciences, IUFM de Grenoble*.

Jeffreys, H. (1961). *Theory of Probability* (3rd ed.). Oxford University Press.

Johansson, E., Kallionpää, R. A., Böckerman, P., Peltonen, J., & Peltonen, S. (2021). A rare disease and education: Neurofibromatosis type 1 decreases educational attainment. *Clinical Genetics*, *99*(4), 529–539. https://doi.org/10.1111/cge.13907

Johnson, R. L., Oehrlein, E. C., & Roche, W. L. (2018). Predictability and parafoveal preview effects in the developing reader: Evidence from eye movements. *Journal of Experimental Psychology: Human Perception and Performance*, *44*(7), 973–991. https://doi.org/10.1037/xhp0000506

Johnson, R. L., Perea, M., & Rayner, K. (2007). Transposed-letter effects in reading: Evidence from eye movements and parafoveal preview. *Journal of Experimental Psychology: Human Perception and Performance*, *33*(1), 209–229. https://doi.org/10.1037/0096-1523.33.1.209

Jordan, T. R., Almabruk, A. A. A., Gadalla, E. A., McGowan, V. A., White, S. J., Abedipour, L., & Paterson, K. B. (2014). Reading direction and the central perceptual span: Evidence from Arabic and English. *Psychonomic Bulletin & Review*, *21*(2), 505–511. https://doi.org/10.3758/s13423-013-0510-4

Joseph, H. S. S. L., Liversedge, S. P., Blythe, H. I., White, S. J., & Rayner, K. (2009). Word length and landing position effects during reading in children and adults. *Vision Research*, *49*(16), 2078–2086. https://doi.org/10.1016/j.visres.2009.05.015

Juhasz, B. J., White, S. J., Liversedge, S. P., & Rayner, K. (2008). Eye movements and the use of parafoveal word length information in reading. *Journal of Experimental Psychology: Human Perception and Performance*, *34*(6), 1560–1579. https://doi.org/10.1037/a0012319

Kallionpää, R. A., Uusitalo, E., Leppävirta, J., Pöyhönen, M., Peltonen, S., & Peltonen, J. (2018). Prevalence of neurofibromatosis type 1 in the Finnish population. *Genetics in Medicine*, *20*(9), 1082–1086. https://doi.org/10.1038/gim.2017.215

Kavale, K. (1982). Meta-analysis of the relationship between visual perceptual skills and reading achievement. *Journal of Learning Disabilities*, *15*(1), 42–51. https://doi.org/10.1177/002221948201500110

Kennedy, A., & Pynte, J. (2005). Parafoveal-on-foveal effects in normal reading. *Vision Research*, *45*(2), 153–168. https://doi.org/10.1016/j.visres.2004.07.037

Kevan, A., & Pammer, K. (2009). Predicting early reading skills from pre-reading measures of dorsal stream functioning. *Neuropsychologia*, *47*(14), 3174–3181. https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2009.07.016

Khelifi, R., Sparrow, L., & Casalis, S. (2015). Third and fifth graders' processing of parafoveal information in reading: A study in single-word recognition. *Journal of Experimental Child Psychology*, *139*, 1–17. https://doi.org/10.1016/j.jecp.2015.05.002

Kirby, J. R., Roth, L., Desrochers, A., & Lai, S. S. V. (2008). Longitudinal predictors of word reading development. *Canadian Psychology*, *49*(2), 103–110. https://doi.org/10.1037/0708-5591.49.2.103

Kirkby, J. A., Barrington, R. S., Drieghe, D., & Liversedge, S. P. (2022). Parafoveal processing and transposed-letter effects in dyslexic reading. *Dyslexia*, *28*(3), 359–374. https://doi.org/10.1002/dys.1721

Klein-Tasman, B. P., Colon, A. M., Brei, N., van der Fluit, F., Casnar, C. L., Janke, K. M., Basel, D., Siegel, D. H., & Walker, J. A. (2013). Adaptive Behavior in Young Children with Neurofibromatosis Type 1. *International Journal of Pediatrics*, *2013*(November), 1–7. https://doi.org/10.1155/2013/690432

Klein-Tasman, B. P., Lee, K., Thompson, H. L., Janusz, J., Payne, J. M., Pardej, S., de Blank, P., Kennedy, T., Janke, K. M., Castillo, A. Del, & Walsh, K. S. (2021). Recommendations for Measurement of Attention Outcomes in Preschoolers With Neurofibromatosis. *Neurology*, *97*(7), S81–S90. https://doi.org/10.1212/WNL.0000000000012423

Koini, M., Rombouts, S. A. R. B., Veer, I. M., Van Buchem, M. A., & Huijbregts, S. C. J. (2017). White matter microstructure of patients with neurofibromatosis type 1 and its relation to inhibitory control. *Brain Imaging and Behavior*, *11*(6), 1731–1740. https://doi.org/10.1007/s11682-016-9641-3

Kooistra, L., Crawford, S., Dewey, D., Cantell, M., & Kaplan, B. J. (2005). Motor correlates of ADHD: Contribution of reading disability and oppositional defiant disorder. *Journal of Learning Disabilities*, *38*(3), 195–206. https://doi.org/10.1177/00222194050380030201

Korkman, M., Kirk, U., & Kemp, S. (2014). *NEPSY-ii*. Pearson Madrid.

Koth, C. W., Cutting, L. E., & Denckla, M. B. (2000). The association of neurofibromatosis type 1 and attention deficit hyperactivity disorder. *Child Neuropsychol*, *6*(3), 185–194. https://doi.org/10.1076/chin.6.3.185.3155

Krab, L. C., Aarsen, F. K., de Goede-Bolder, A., Catsman-Berrevoets, C. E., Arts, W. F., Moll, H. A., & Elgersma, Y. (2008). Impact of neurofibromatosis type 1 on school performance. *J Child Neurol*, *23*(9), 1002–1010. https://doi.org/0883073808316366 [pii]10.1177/0883073808316366 [doi]

Krab, L. C., De Goede-Bolder, A., Aarsen, F. K., Moll, H. A., De Zeeuw, C. I., Elgersma, Y., & Van Der Geest, J. N. (2011). Motor learning in children with neurofibromatosis type I. *Cerebellum*, *10*(1), 14–21. https://doi.org/10.1007/s12311-010-0217-2

Krakowski, C.-S., Borst, G., Pineau, A., Houdé, O., & Poirel, N. (2015). You can detect the trees as well as the forest when adding the leaves: Evidence from visual search tasks containing three-level hierarchical stimuli. *Acta Psychologica*, *157*, 131–143. https://doi.org/10.1016/j.actpsy.2015.03.001

Krakowski, C.-S., Borst, G., Vidal, J., Houdé, O., & Poirel, N. (2018). Children inhibit global information when the forest is dense and local information when the forest is sparse. *Journal of Experimental Child Psychology*, *173*, 155–167. https://doi.org/10.1016/j.jecp.2018.03.020

Krakowski, C.-S., Poirel, N., Vidal, J., Roëll, M., Pineau, A., Borst, G., & Houdé, O. (2016). The forest, the trees, and the leaves: Differences of processing across development. *Developmental Psychology*, *52*(8), 1262–1272. https://doi.org/10.1037/dev0000138

Lammert, M., Friedman, J. M., Kluwe, L., & Mautner, V. F. (2005). Prevalence of neurofibromatosis 1 in German children at elementary school enrollment. *Archives of Dermatology*, *141*(1), 71–74. https://doi.org/10.1001/archderm.141.1.71

Landerl, K., Freudenthaler, H. H., Heene, M., De Jong, P. F., Desrochers, A., Manolitsis, G., Parrila, R., & Georgiou, G. K. (2019). Phonological Awareness and Rapid Automatized Naming as Longitudinal Predictors of Reading in Five Alphabetic Orthographies with Varying Degrees of Consistency. *Scientific Studies of Reading*, *23*(3), 220–234. https://doi.org/10.1080/10888438.2018.1510936

Landerl, K., Fussenegger, B., Moll, K., & Willburger, E. (2009). Dyslexia and dyscalculia: Two learning disorders with different cognitive profiles. *Journal of Experimental Child Psychology*, *103*(3), 309–324. https://doi.org/10.1016/j.jecp.2009.03.006

Larter, S. C., Herse, P. R., Naduvilath, T. J., & Dain, S. J. (2004). Spatial load factor in prediction of reading performance. *Ophthalmic and Physiological Optics*, *24*(5), 440–449. https://doi.org/10.1111/j.1475-1313.2004.00219.x

Lasker, A. G., Denckla, M. B., & Zee, D. S. (2003). Ocular motor behavior of children with neurofibromatosis 1. *Journal of Child Neurology*, *18*(5), 348–355. https://doi.org/10.1177/08830738030180050301

Layes, S., Lalonde, R., & Rebai, M. (2021). Visuo-Spatial Abilities and Phonological Awareness as Predictors of Reading Accuracy in Arabic Children With and Without Dyslexia. *International Journal of Disability, Development and Education*, *00*(00), 1–17. https://doi.org/10.1080/1034912X.2021.1952936

Leclercq, V., & Siéroff, E. (2013). Development of endogenous orienting of attention in school-age children. *Child Neuropsychology*, *19*(4), 400–419. https://doi.org/10.1080/09297049.2012.682568

Lefavrais, P. (1967). *Test de l'alouette: manuel*. Les éditions du centre de psychologie appliquée.

Lefavrais, P. (2005). *Alouette-R*. Les éditions du centre de psychologie appliquée.

Lefton, L. A., Nagle, R. J., Johnson, G., & Fisher, D. F. (1979). Eye Movement Dynamics of Good and Poor Readers: Then and Now. *Journal of Reading Behavior*, *11*(4), 319–328. https://doi.org/10.1080/10862967909547338

Legius, E., Messiaen, L., Wolkenstein, P., Pancza, P., Avery, R. A., Berman, Y., Blakeley, J., Babovic-Vuksanovic, D., Cunha, K. S., Ferner, R., Fisher, M. J., Friedman, J. M., Gutmann, D. H., Kehrer-Sawatzki, H., Korf, B. R., Mautner, V.-F., Peltonen, S., Rauen, K. A., Riccardi, V., … Plotkin, S. R. (2021). Revised diagnostic criteria for neurofibromatosis type 1 and Legius syndrome: an international consensus recommendation. *Genetics in Medicine*, *23*(8), 1506–1513. https://doi.org/10.1038/s41436-021-01170-5

Lehtimäki, T. M., & Reilly, R. G. (2005). Improving eye movement control in young readers. *Artificial Intelligence Review*, *24*(3–4), 477–488. https://doi.org/10.1007/s10462-005-9010-x

Lehtonen, A., Garg, S., Roberts, S. A., Trump, D., Evans, D. G., Green, J., & Huson, S. M. (2015). Cognition in children with neurofibromatosis type 1: Data from a population-based study. *Developmental Medicine and Child Neurology*, *57*(7), 645–651. https://doi.org/10.1111/dmcn.12734

Lehtonen, A., Howie, E., Trump, D., & Huson, S. M. (2013). Behaviour in children with neurofibromatosis type 1: Cognition, executive function, attention, emotion, and social competence. *Developmental Medicine and Child Neurology*, *55*(2), 111–125. https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2012.04399.x

Leibnitz, L. (2016). *Processus visuo-attentionnels et perceptifs dans la mise en place du codage orthographique* [Thèse de doctorat, Aix-Marseille Université]. https://www.theses.fr/2016AIXM3098

Leibnitz, L., Ducrot, S., Grainger, J., & Mathilde, M. (2015b). Prévenir les difficultés en lecture : Une batterie de dépistage des difficultés visuo-attentionnelles et perceptives à destination des enfants de maternelle [Communication affichée]. *56ème Congrès SFP - Psychologie : Fonctionnements, Dysfonctionnements*. https://doi.org/10.13140/RG.2.1.1917.7200

Leibnitz, L., Ducrot, S., Muneaux, M., & Grainger, J. (2015a). Spécificité des capacités visuo-attentionnelles et lecture chez l'enfant. *Revue Francophone d'Orthoptie*, *8*(1), 45–49. https://doi.org/10.1016/j.rfo.2015.02.011

Leibnitz, L., Grainger, J., Muneaux, M., & Ducrot, S. (2017). Processus visuo-attentionnels et lecture : une synthèse. *L'Année Psychologique*, *116*(4), 597–622. https://doi.org/10.4074/S0003503316000403

Leon-Carrion, J., García-Orza, J., & Pérez-Santamaría, F. J. (2004). Development of the inhibitory component of the executive functions in children and adolescents. *International Journal of Neuroscience*, *114*(10), 1291–1311. https://doi.org/10.1080/00207450490476066

Lété, B., & Ducrot, S. (2007). La perception du mot écrit chez l'apprenti lecteur et l'enfant dyslexique: Évaluation en fovéa et en parafovéa. In E. Demont & M. N. Metz-Lutz (Eds.), *L'acquisition du langage et ses troubles* (pp. 125–172). SOLAL.

Lété, B., Sprenger-Charolles, L., & Colé, P. (2004). MANULEX: A grade-level lexical database from French elementary school readers. *Behavior Research Methods, Instruments, & Computers*, *36*(1), 156–166. https://doi.org/10.3758/BF03195560

Leung, C. Y., Sugiura, M., Abe, D., & Yoshikawa, L. (2014). The Perceptual Span in Second Language Reading: An Eye-Tracking Study Using a Gaze-Contingent Moving Window Paradigm. *Open Journal of Modern Linguistics*, *04*(05), 585–594. https://doi.org/10.4236/ojml.2014.45051

Lewis, A. K., Porter, M. A., Williams, T. A., Bzishvili, S., North, K. N., & Payne, J. M. (2017). Facial emotion recognition, face scan paths, and face perception in children with neurofibromatosis type 1. *Neuropsychology*, *31*(4), 361–370. https://doi.org/10.1037/neu0000340

Liddle, E. B., Jackson, G. M., Rorden, C., & Jackson, S. R. (2009). Lateralized temporal order judgement in dyslexia. *Neuropsychologia*, *47*(14), 3244–3254. https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2009.08.007

Liu, T., Thiebaut de Schotten, M., Altarelli, I., Ramus, F., & Zhao, J. (2022). Neural dissociation of visual attention span and phonological deficits in developmental dyslexia: A hub-based white matter network analysis. *Human Brain Mapping*, *November 2021*, 1–10. https://doi.org/10.1002/hbm.25997

Livingston, E. M., Siegel, L. S., & Ribary, U. (2018). Developmental dyslexia: emotional impact and consequences. *Australian Journal of Learning Difficulties*, *23*(2), 107–135. https://doi.org/10.1080/19404158.2018.1479975

Livingstone, M. S., Rosen, G. D., Drislane, F. W., & Galaburda, A. M. (1991). Physiological and anatomical evidence for a magnocellular defect in developmental dyslexia. *Proceedings of the National Academy of Sciences*, *88*(18), 7943–7947. https://doi.org/10.1073/pnas.88.18.7943

Lobier, M., Dubois, M., & Valdois, S. (2013). The Role of Visual Processing Speed in Reading Speed Development. *PLoS ONE*, *8*(4), e58097. https://doi.org/10.1371/journal.pone.0058097

Longcamp, M., Zerbato-Poudou, M.-T., & Velay, J.-L. (2005). The influence of writing practice on letter recognition in preschool children: A comparison between handwriting and typing. *Acta Psychologica*, *119*(1), 67–79. https://doi.org/10.1016/j.actpsy.2004.10.019

Lonigan, C. J., Burgess, S. R., & Anthony, J. L. (2000). Development of emergent literacy and early reading skills in preschool children: Evidence from a latent-variable longitudinal study. *Developmental Psychology*, *36*(5), 596–613. https://doi.org/10.1037/0012-1649.36.5.596

Lopukhina, A., Zdorova, N., Staroverova, V., Ladinskaya, N., Kaprielova, A., Goldina, S., Vedenina, O., Bartsevae, K., & Dragoy, O. (2022). *Benchmark measures of eye movements during reading in Russian children*. https://doi.org/10.31234/osf.io/2x5pk

Lorenzo, J., Barton, B., Arnold, S. S., & North, K. N. (2013). Cognitive features that distinguish preschool-age children with neurofibromatosis type 1 from their peers: A matched case-control study. *Journal of Pediatrics*, *163*(5), 1479-1483.e1. https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2013.06.038

Lorusso, M. L., Facoetti, A., Pesenti, S., Cattaneo, C., Molteni, M., & Geiger, G. (2004). Wider recognition in peripheral vision common to different subtypes of dyslexia. *Vision Research*, *44*(20), 2413–2424. https://doi.org/10.1016/j.visres.2004.05.001

Lovett, M. W., Frijters, J. C., Wolf, M., Steinbach, K. A., Sevcik, R. A., & Morris, R. D. (2017). Early intervention for children at risk for reading disabilities: The impact of grade at intervention and individual differences on intervention outcomes. *Journal of Educational Psychology*, *109*(7), 889–914. https://doi.org/10.1037/edu0000181

Lubin, A., Vidal, J., Lanoë, C., Houdé, O., & Borst, G. (2013). Inhibitory control is needed for the resolution of arithmetic word problems: A developmental negative priming study. *Journal of Educational Psychology*, *105*(3), 701–708. https://doi.org/10.1037/a0032625

Luria, A. R. (1966). Higher cortical functions in man. In *Higher cortical functions in man.* Basic Books.

Macdonald, J. A., Beauchamp, M. H., Crigan, J. A., & Anderson, P. J. (2014). Age-related differences in inhibitory control in the early school years. *Child Neuropsychology*, *20*(5), 509–526. https://doi.org/10.1080/09297049.2013.822060

MacLeod, C. M. (1991). Half a century of research on the Stroop effect: An integrative review. *Psychological Bulletin*, *109*(2), 163–203. https://doi.org/10.1037/0033-2909.109.2.163

MacLeod, C. M. (1992). The Stroop task: The "gold standard" of attentional measures. *Journal of Experimental Psychology: General*, *121*(1), 12–14. https://doi.org/10.1037/0096-3445.121.1.12

MacLeod, C. M. (2015). The Stroop Effect. In R. Shamey (Ed.), *Encyclopedia of Color Science and Technology* (pp. 1–6). Springer Berlin Heidelberg. https://doi.org/10.1007/978-3-642-27851-8_67-1

Mancheva, L., Reichle, E. D., Lemaire, B., Valdois, S., Ecalle, J., & Guérin-Dugué, A. (2015). An analysis of reading skill development using E-Z Reader. *Journal of Cognitive Psychology*, *27*(5), 657–676. https://doi.org/10.1080/20445911.2015.1024255

Manolitsis, G., Georgiou, G. K., & Tziraki, N. (2013). Examining the effects of home literacy and numeracy environment on early reading and math acquisition. *Early Childhood Research Quarterly*, *28*(4), 692–703. https://doi.org/10.1016/j.ecresq.2013.05.004

Martelli, M., Di Filippo, G., Spinelli, D., & Zoccolotti, P. (2009). Crowding, reading, and developmental dyslexia. *Journal of Vision*, *9*(4), 1–18. https://doi.org/10.1167/9.4.14

Marx, C., Hawelka, S., Schuster, S., & Hutzler, F. (2015). An incremental boundary study on parafoveal preprocessing in children reading aloud: Parafoveal masks overestimate the preview benefit. *Journal of Cognitive Psychology*, *27*(5), 549–561. https://doi.org/10.1080/20445911.2015.1008494

Mathôt, S., Schreij, D., & Theeuwes, J. (2012). OpenSesame: An open-source, graphical experiment builder for the social sciences. *Behavior Research Methods*, *44*(2), 314–324. https://doi.org/10.3758/s13428-011-0168-7

Mautner, V.-F., Kluwe, L., Thakker, S. D., & Leark, R. A. (2002). Treatment of ADHD in neurofibromatosis type 1. *Developmental Medicine & Child Neurology*, *44*(3), 164–170. https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2002.tb00780.x

Mazzocco, M. M. M. (2001). Math Learning Disability and Math LD Subtypes. *Journal of Learning Disabilities*, *34*(6), 520–533. https://doi.org/10.1177/002221940103400605

Mazzocco, M. M. M., Turner, J. E., Denckla, M. B., Hofman, K. J., Scanlon, D. C., & Vellutino, F. R. (1995). Language and reading deficits associated with Neurofibromatosis Type 1: Evidence for a not-so-nonverbal learning disability. *Developmental Neuropsychology*, *11*(4), 503–522. https://doi.org/10.1080/87565649509540634

McConkie, G. W., Kerr, P. W., Reddix, M. D., & Zola, D. (1988). Eye movement control during reading: I. The location of initial eye fixations on words. *Vision Research*, *28*(10), 1107–1118. https://doi.org/10.1016/0042-6989(88)90137-X

McConkie, G. W., & Rayner, K. (1975). The span of the effective stimulus during a fixation in reading. *Perception & Psychophysics*, *17*(6), 578–586. https://doi.org/10.3758/BF03203972

Megherbi, H., Elbro, C., Oakhill, J., Segui, J., & New, B. (2018). The emergence of automaticity in reading: Effects of orthographic depth and word decoding ability on an adjusted Stroop measure. *Journal of Experimental Child Psychology*, *166*, 652–663. https://doi.org/10.1016/j.jecp.2017.09.016

Meixner, J. M., Nixon, J. S., & Laubrock, J. (2022). The perceptual span is dynamically adjusted in response to foveal load by beginning readers. In *Journal of Experimental Psychology: General* (Vol. 151, Issue 6, pp. 1219–1232). American Psychological Association. https://doi.org/10.1037/xge0001140

Melby-Lervåg, M., Lyster, S.-A. H., & Hulme, C. (2012). Phonological skills and their role in learning to read: A meta-analytic review. *Psychological Bulletin*, *138*(2), 322–352. https://doi.org/10.1037/a0026744

Memisevic, H., Biscevic, I., Pasalic, A., & Malec, D. (2019). Predictors of Reading Fluency in Second and Third Grade Students: Results from Bosnia and Herzegovina. *Studia Psychologica*, *61*(3), 175–188. https://doi.org/10.21909/sp.2019.03.781

Meng, Z.-L., Wydell, T. N., & Bi, H.-Y. (2019). Visual-motor integration and reading Chinese in children with/without dyslexia. *Reading and Writing*, *32*(2), 493–510. https://doi.org/10.1007/s11145-018-9876-z

Merigan, W. H., & Maunsell, J. H. R. (1993). How Parallel are the Primate Visual Pathways? *Annual Review of Neuroscience*, *16*(1), 369–402. https://doi.org/10.1146/annurev.ne.16.030193.002101

Michael, G. A., Garcia, S., Herbillon, V., & Lion-François, L. (2014). Reactivity to visual signals in neurofibromatosis type 1: Is everything ok? *Neuropsychology*, *28*(3), 423–428. https://doi.org/10.1037/neu0000046

Michael, G. A., Lété, B., & Ducrot, S. (2013). Trajectories of attentional development: An exploration with the master activation map model. *Developmental Psychology*, *49*(4), 615–631. https://doi.org/10.1037/a0028410

Milledge, S. V, Blythe, H. I., & Liversedge, S. P. (2021). Parafoveal pre-processing in children reading English: The importance of external letters. *Psychonomic Bulletin & Review*, *28*(1), 197–208. https://doi.org/10.3758/s13423-020-01806-8

Milledge, S. V, Zang, C., Liversedge, S. P., & Blythe, H. I. (2022). Phonological parafoveal pre-processing in children reading English sentences. *Cognition*, *225*(February), 105141. https://doi.org/10.1016/j.cognition.2022.105141

Moiroud, L., Gerard, C. L., Peyre, H., & Bucci, M. P. (2018). Developmental Eye Movement test and dyslexic children: A pilot study with eye movement recordings. *PLoS ONE*, *13*(9), 1–11. https://doi.org/10.1371/journal.pone.0200907

Mol, S. E., & Bus, A. G. (2011). To read or not to read: A meta-analysis of print exposure from infancy to early adulthood. *Psychological Bulletin*, *137*(2), 267–296. https://doi.org/10.1037/a0021890

Molina, R., Redondo, B., Vera, J., García, J. A., Muñoz-Hoyos, A., & Jiménez, R. (2020). Children with Attention-deficit/Hyperactivity Disorder Show an Altered Eye Movement Pattern during Reading. *Optometry and Vision Science*, *97*(4), 265–274. https://doi.org/10.1097/OPX.0000000000001498

Mondloch, C. J., Geldart, S., Maurer, D., & de Schonen, S. (2003). Developmental changes in the processing of hierarchical shapes continue into adolescence. *Journal of Experimental Child Psychology*, *84*(1), 20–40. https://doi.org/10.1016/S0022-0965(02)00161-3

Monzalvo, K., Fluss, J., Billard, C., Dehaene, S., & Dehaene-Lambertz, G. (2012). Cortical networks for vision and language in dyslexic and normal children of variable socio-economic status. *NeuroImage*, *61*(1), 258–274. https://doi.org/10.1016/j.neuroimage.2012.02.035

Moore, B. D., Slopis, J. M., Jackson, E. F., De Winter, A. E., & Leeds, N. E. (2000). Brain volume in children with neurofibromatosis type 1: Relation to neuropsychological status. *Neurology*, *54*(4), 914–920. https://doi.org/10.1212/WNL.54.4.914

Moore, B. D., Slopis, J. M., Schomer, D., Jackson, E. F., & Levy, B. M. (1996). Neuropsychological significance of areas of high signal intensity on brain MRIs of children with neurofibromatosis. *Neurology*, *46*(6), 1660–1668. https://doi.org/10.1212/WNL.46.6.1660

Morris, R. K., Rayner, K., & Pollatsek, A. (1990). Eye movement guidance in reading: The role of parafoveal letter and space information. *Journal of Experimental Psychology: Human Perception and Performance*, *16*(2), 268–281. https://doi.org/10.1037/0096-1523.16.2.268

Muneaux, M., & Ducrot, S. (2014a). Capacités oculomotrices, visuo-attentionnelles et lecture: Un autre regard sur la dyslexie. *ANAE - Approche Neuropsychologique Des Apprentissages Chez l'Enfant*, *26*(129), 137–146.

Muneaux, M., & Ducrot, S. (2014b). Traitement visuel chez l'enfant prématuré et atteinte du système magnocellulaire/dorsal : synthèse et perspectives. *Revue de Neuropsychologie*, *6*(1), 17. https://doi.org/10.3917/rne.061.0017

Navon, D. (1977). Forest before trees: The precedence of global features in visual perception. *Cognitive Psychology*, *9*(3), 353–383. https://doi.org/10.1016/0010-0285(77)90012-3

Nazir, T. A. (2000). Traces of Print Along the Visual Pathway. In *Reading as a Perceptual Process* (pp. 3–22). Elsevier. https://doi.org/10.1016/B978-008043642-5/50003-6

Nazir, T. A., Ben-Boutayab, N., Decoppet, N., Deutsch, A., & Frost, R. (2004). Reading habits, perceptual learning, and recognition of printed words. *Brain and Language*, *88*(3), 294–311. https://doi.org/10.1016/S0093-934X(03)00168-8

NIH National Institutes of Health. (1988). Consensus Development Conference Neurofibromatosis: Conference Statement. *Arch Neurol*, *45*, 575–578.

North, K., Joy, P., Yuille, D., Cocks, N., & Hutchins, P. (1995). Cognitive function and academic performance in children with neurofibromatosis type 1. *Developmental Medicine & Child Neurology*, *37*(5), 427–436. https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.1995.tb12026.x

O'Regan, J. K., & Jacobs, A. M. (1992). Optimal viewing position effect in word recognition: A challenge to current theory. *Journal of Experimental Psychology: Human Perception and Performance*, *18*(1), 185–197. https://doi.org/10.1037/0096-1523.18.1.185

O'Regan, J. K., Lévy-Schoen, A., Pynte, J., & Brugaillière, B. (1984). Convenient Fixation Location Within Isolated Words of Different Length and Structure. *Journal of Experimental Psychology: Human Perception and Performance*, *10*(2), 250–257. https://doi.org/10.1037/0096-1523.10.3.393

Orraca-Castillo, M., Estévez-Pérez, N., & Reigosa-Crespo, V. (2014). Neurocognitive profiles of learning disabled children with neurofibromatosis type 1. *Frontiers in Human Neuroscience*, *8*(August). https://doi.org/10.3389/fnhum.2014.00386

Pagán, A., Blythe, H. I., & Liversedge, S. P. (2016). Parafoveal preprocessing of word initial trigrams during reading in adults and children. *Journal of Experimental Psychology: Learning, Memory, and Cognition*, *42*(3), 411–432. https://doi.org/10.1037/xlm0000175

Page, M. J., Moher, D., Bossuyt, P. M., Boutron, I., Hoffmann, T. C., Mulrow, C. D., Shamseer, L., Tetzlaff, J. M., Akl, E. A., Brennan, S. E., Chou, R., Glanville, J., Grimshaw, J. M., Hróbjartsson, A., Lalu, M. M., Li, T., Loder, E. W., Mayo-Wilson, E., McDonald, S., … McKenzie, J. E. (2021). PRISMA 2020 explanation and elaboration: updated guidance and exemplars for reporting systematic reviews. *BMJ*, *372*, n160. https://doi.org/10.1136/bmj.n160

Pardej, S. K., Lee, K. M., Glad, D. M., & Klein-Tasman, B. P. (2022). Psychometric Properties of Attention Measures in Young Children with Neurofibromatosis Type 1: Preliminary Findings. *Journal of Pediatric Neuropsychology*, *8*(3), 123–136. https://doi.org/10.1007/s40817-022-00129-x

Parrila, R., Kirby, J. R., & McQuarrie, L. (2004). Articulation rate, naming speed, verbal short-term memory, and phonological awareness: Longitudinal predictors of early reading development? *Scientific Studies of Reading*, *8*(1), 3–26. https://doi.org/10.1207/s1532799xssr0801_2

Parris, B., Sharma, D., & Weekes, B. (2007). Optimal Viewing Position Effect in Stroop Task. *Experimental Psychology*, *54*(4). https://doi.org/10.1027/1618-3169.54.4.xxx

Parviainen, T., Helenius, P., Poskiparta, E., Niemi, P., & Salmelin, R. (2006). Cortical Sequence of Word Perception in Beginning Readers. *Journal of Neuroscience*, *26*(22), 6052–6061. https://doi.org/10.1523/JNEUROSCI.0673-06.2006

Pasqualotto, A., Altarelli, I., De Angeli, A., Menestrina, Z., Bavelier, D., & Venuti, P. (2022a). Enhancing reading skills through a video game mixing action mechanics and cognitive training. *Nature Human Behaviour*, *6*(4), 545–554. https://doi.org/10.1038/s41562-021-01254-x

Pasqualotto, A., Altarelli, I., De Angeli, A., Menestrina, Z., Bavelier, D., & Venuti, P. (2022b). Enhancing reading skills through a video game mixing action mechanics and cognitive training. *Nature Human Behaviour*, *6*(4), 545–554. https://doi.org/10.1038/s41562-021-01254-x

Paterson, K. B., Almabruk, A. A. A., McGowan, V. A., White, S. J., & Jordan, T. R. (2015). Effects of word length on eye movement control: The evidence from Arabic. *Psychonomic Bulletin & Review*, *22*(5), 1443–1450. https://doi.org/10.3758/s13423-015-0809-4

Paterson, K. B., & Jordan, T. R. (2010). Effects of increased letter spacing on word identification and eye guidance during reading. *Memory & Cognition*, *38*(4), 502–512. https://doi.org/10.3758/MC.38.4.502

Paterson, K. B., McGowan, V. A., White, S. J., Malik, S., Abedipour, L., & Jordan, T. R. (2014). Reading Direction and the Central Perceptual Span in Urdu and English. *PLoS ONE*, *9*(2), e88358. https://doi.org/10.1371/journal.pone.0088358

Payne, J. M., Arnold, S. S., Pride, N. A., & North, K. N. (2012). Does attention-deficit-hyperactivity disorder exacerbate executive dysfunction in children with neurofibromatosis type 1? *Developmental Medicine and Child Neurology*, *54*(10), 898–904. https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2012.04357.x

Payne, J. M., Barton, B., Shores, E. A., & North, K. N. (2013). Paired associate learning in children with neurofibromatosis type 1: Implications for clinical trials. *Journal of Neurology*, *260*(1), 214–220. https://doi.org/10.1007/s00415-012-6620-5

Payne, J. M., Haebich, K. M., MacKenzie, R., Walsh, K. S., Hearps, S. J. C., Coghill, D., Barton, B., Pride, N. A., Ullrich, N. J., Tonsgard, J. H., Viskochil, D., Schorry, E. K., Klesse, L., Fisher, M. J., Gutmann, D. H., Rosser, T., Packer, R. J., Korf, B., Acosta, M. T., … North, K. N. (2021). Cognition, ADHD Symptoms, and Functional Impairment in Children and Adolescents With Neurofibromatosis Type 1. *Journal of Attention Disorders*, *25*(8), 1177–1186. https://doi.org/10.1177/1087054719894384

Payne, J. M., Hyman, S. L., Shores, E. A., & North, K. N. (2011). Assessment of executive function and attention in children with neurofibromatosis type 1: Relationships between cognitive measures and real-world behavior. *Child Neuropsychology*, *17*(4), 313–329. https://doi.org/10.1080/09297049.2010.542746

Payne, J. M., Pickering, T., Porter, M., Oates, E. C., Walia, N., Prelog, K., & North, K. N. (2014). Longitudinal assessment of cognition and T2-hyperintensities in NF1: An 18-year study. *American Journal of Medical Genetics, Part A*, *164*(3), 661–665. https://doi.org/10.1002/ajmg.a.36338

Payne, J. M., Porter, M. A., Bzishvili, S., & North, K. N. (2017). Atypical Local Interference Affects Global Processing in Children with Neurofibromatosis Type 1. *Journal of the International Neuropsychological Society*, *23*(5), 446–450. https://doi.org/10.1017/S1355617717000224

Payne, J. M., Porter, M., Pride, N. A., & North, K. N. (2016). Theory of mind in children with Neurofibromatosis Type 1. *Neuropsychology*, *30*(4), 439–448. https://doi.org/10.1037/neu0000262

Perea, M., Panadero, V., Moret-Tatay, C., & Gómez, P. (2012). The effects of inter-letter spacing in visual-word recognition: Evidence with young normal readers and developmental dyslexics. *Learning and Instruction*, *22*(6), 420–430. https://doi.org/10.1016/j.learninstruc.2012.04.001

Perez-roche, T., Altemir, I., Giménez, G., Prieto, E., & González, I. (2016). *Research in Developmental Disabilities Effect of prematurity and low birth weight in visual abilities and school performance*. *59*, 451–457. https://doi.org/10.1016/j.ridd.2016.10.002

Perret, P., & Ducrot, S. (2010). Viewing-position effects in the stroop task: Initial fixation position modulates stroop effects in fully colored words. *Psychonomic Bulletin and Review*, *17*(4), 550–555. https://doi.org/10.3758/PBR.17.4.550

Perry, C., & Long, H. (2022). What Is Going on with Visual Attention in Reading and Dyslexia? A Critical Review of Recent Studies. *Brain Sciences*, *12*(1), 87. https://doi.org/10.3390/brainsci12010087

Perry, C., Ziegler, J. C., & Zorzi, M. (2007). Nested incremental modeling in the development of computational theories: The CDP+ model of reading aloud. *Psychological Review*, *114*(2), 273–315. https://doi.org/10.1037/0033-295X.114.2.273

Perry, C., Ziegler, J. C., & Zorzi, M. (2010). Beyond single syllables: Large-scale modeling of reading aloud with the Connectionist Dual Process (CDP++) model. *Cognitive Psychology*, *61*(2), 106–151. https://doi.org/10.1016/j.cogpsych.2010.04.001

Peters, J. L., De Losa, L., Bavin, E. L., & Crewther, S. G. (2019a). Efficacy of dynamic visuo-attentional interventions for reading in dyslexic and neurotypical children: A systematic review. *Neuroscience & Biobehavioral Reviews*, *100*, 58–76. https://doi.org/10.1016/j.neubiorev.2019.02.015

Phenix, T. (2018). *Modélisation bayésienne algorithmique de la reconnaissance visuelle de mots et de l'attention visuelle*. [Thèse de doctorat, Université Grenoble Alpes].

Piquard-Kipffer, A., & Sprenger-Charolles, L. (2013). Early predictors of future reading skills: A follow-up of French-speaking children from the beginning of kindergarten to the end of the second grade (age 5 to 8). In *Annee Psychologique* (Vol. 113, Issue 4). https://doi.org/10.4074/S0003503313014012

Piscitelli, O., Digilio, M. C., Capolino, R., Longo, D., & Di Ciommo, V. (2012). Neurofibromatosis type 1 and cerebellar T2-hyperintensities: the relationship to cognitive functioning. *Developmental Medicine & Child Neurology*, *54*(1), 49–51. https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2011.04139.x

Plasschaert, E., Van Eylen, L., Descheemaeker, M., Noens, I., Legius, E., & Steyaert, J. (2016). Executive functioning deficits in children with neurofibromatosis type 1: The influence of intellectual and social functioning. *American Journal of Medical Genetics Part B: Neuropsychiatric Genetics*, *171*(3), 348–362. https://doi.org/10.1002/ajmg.b.32414

Plaza, M., & Cohen, H. (2007). The contribution of phonological awarness and visual attention in early reading and spelling. *Dyslexia*, *239*(13), 234–239. https://doi.org/10.1002/dys

Plummer, P., & Rayner, K. (2012). Effects of parafoveal word length and orthographic features on initial fixation landing positions in reading. *Attention, Perception, & Psychophysics*, *74*(5), 950–963. https://doi.org/10.3758/s13414-012-0286-z

PNDS. (2021). Protocole National de Diagnostic et de Soins (PNDS) Neurofibromatose 1. *Centre de Référence Labellisé NEUROFIBROMATOSES*, 1–104.

Poirel, N., Krakowski, C. S., Sayah, S., Pineau, A., Houdé, O., & Borst, G. (2014). Do You Want to See the Tree? Ignore the Forest. *Experimental Psychology*, *61*(3), 205–214. https://doi.org/10.1027/1618-3169/a000240

Poirel, N., Mellet, E., Houdé, O., & Pineau, A. (2008). First came the trees, then the forest: Developmental changes during childhood in the processing of visual local-global patterns according to the meaningfulness of the stimuli. *Developmental Psychology*, *44*(1), 245–253. https://doi.org/10.1037/0012-1649.44.1.245

Poirel, N., Simon, G., Cassotti, M., Leroux, G., Perchey, G., Lanoë, C., Lubin, A., Turbelin, M.-R., Rossi, S., Pineau, A., & Houdé, O. (2011). The Shift from Local to Global Visual Processing in 6-Year-Old Children Is Associated with Grey Matter Loss. *PLoS ONE*, *6*(6), e20879. https://doi.org/10.1371/journal.pone.0020879

Pollatsek, A., Bolozky, S., Well, A. D., & Rayner, K. (1981). Asymmetries in the perceptual span for Israeli readers. *Brain and Language*, *14*(1), 174–180. https://doi.org/10.1016/0093-934X(81)90073-0

Pollatsek, A., Lesch, M., Morris, R. K., & Rayner, K. (1992). Phonological codes are used in integrating information across saccades in word identification and reading. *Journal of Experimental Psychology: Human Perception and Performance*, *18*(1), 148–162. https://doi.org/10.1037/0096-1523.18.1.148

Porporino, M., Iarocci, G., Shore, D. I., & Burack, J. A. (2004). A developmental change in selective attention and global form perception. *International Journal of Behavioral Development*, *28*(4), 358–364. https://doi.org/10.1080/01650250444000063

Portnoy, A., & Gilaie-Dotan, S. (2020). *Oculomotor-related measures but not distance visual acuity are predictive of reading ability in first graders*. https://doi.org/https://doi.org/10.1101/2020.03.09.983197

Prado, C., Dubois, M., & Valdois, S. (2007). The eye movements of dyslexic children during reading and visual search: Impact of the visual attention span. *Vision Research*, *47*(19), 2521–2530. https://doi.org/10.1016/j.visres.2007.06.001

Pride, N. A., Korgaonkar, M. S., North, K. N., & Payne, J. M. (2018). Impaired engagement of the ventral attention system in neurofibromatosis type 1. *Brain Imaging and Behavior*, *12*(2), 499–508. https://doi.org/10.1007/s11682-017-9717-8

Pride, N. A., Payne, J. M., & North, K. N. (2012). The Impact of ADHD on the Cognitive and Academic Functioning of Children With NF1. *Developmental Neuropsychology*, *37*(7), 590–600. https://doi.org/10.1080/87565641.2012.695831

Pride, N. A., Payne, J. M., Webster, R., Shores, E. A., Rae, C., & North, K. N. (2010). Corpus callosum morphology and its relationship to cognitive function in neurofibromatosis type 1. *Journal of Child Neurology*, *25*(7), 834–841. https://doi.org/10.1177/0883073809350723

Protopapas, A., Archonti, A., & Skaloumbakas, C. (2007). Reading ability is negatively related to Stroop interference. *Cognitive Psychology*, *54*(3), 251–282. https://doi.org/10.1016/j.cogpsych.2006.07.003

Pynte, J., Kennedy, A., & Ducrot, S. (2004). The influence of parafoveal typographical errors on eye movements in reading. *European Journal of Cognitive Psychology*, *16*(1–2), 178–202. https://doi.org/10.1080/09541440340000169

Raghuram, A., Gowrisankaran, S., Swanson, E., Zurakowski, D., Hunter, D. G., & Waber, D. P. (2018). Frequency of Visual Deficits in Children With Developmental Dyslexia. *JAMA Ophthalmology*, *136*(10), 1089. https://doi.org/10.1001/jamaophthalmol.2018.2797

Raichle, M. E. (2015). The Brain's Default Mode Network. *Annual Review of Neuroscience*, *38*(1), 433–447. https://doi.org/10.1146/annurev-neuro-071013-014030

Ramus, F. (2003). Theories of developmental dyslexia: insights from a multiple case study of dyslexic adults. *Brain*, *126*(4), 841–865. https://doi.org/10.1093/brain/awg076

Ramus, F. (2012). Les troubles spécifiques de la lecture. *L'Information Grammaticale*, *133*(1), 34–40. https://doi.org/10.3406/igram.2012.4200

Rayner, K. (1975). The perceptual span and peripheral cues in reading. *Cognitive Psychology*, *7*(1), 65–81. https://doi.org/10.1016/0010-0285(75)90005-5

Rayner, K. (1979). Eye guidance in reading: Fixation locations within words. *Perception*, *8*(6), 21–30.

Rayner, K. (1985). The Role of Eye Movements in Learning to Read and Reading Disability. *Remedial and Special Education*, *6*(6), 53–60. https://doi.org/10.1177/074193258500600609

Rayner, K. (1986). Eye movements and the perceptual span in beginning and skilled readers. *Journal of Experimental Child Psychology*, *41*(2), 211–236. https://doi.org/10.1016/0022-0965(86)90037-8

Rayner, K. (1998). Eye movements in reading and information processing: 20 years of research. *Psychological Bulletin*, *124*(3), 372–422. https://doi.org/10.1037/0033-2909.124.3.372

Rayner, K., Castelhano, M. S., & Yang, J. (2010). Preview benefit during eye fixations in reading for older and younger readers. *Psychology and Aging*, *25*(3), 714–718. https://doi.org/10.1037/a0019199

Rayner, K., Fischer, M. H., & Pollatsek, A. (1998). Unspaced text interferes with both word identification and eye movement control. *Vision Research*, *38*(8), 1129–1144. https://doi.org/10.1016/S0042-6989(97)00274-5

Rayner, K., McConkie, G. W., & Zola, D. (1980). Integrating information across eye movements. *Cognitive Psychology*, *12*(2), 206–226. https://doi.org/10.1016/0010-0285(80)90009-2

Rayner, K., Schotter, E. R., & Drieghe, D. (2014). Lack of semantic parafoveal preview benefit in reading revisited. *Psychonomic Bulletin & Review*, *21*(4), 1067–1072. https://doi.org/10.3758/s13423-014-0582-9

Rayner, K., Well, A. D., Pollatsek, A., & Bertera, J. H. (1982). The availability of useful information to the right of fixation in reading. *Perception & Psychophysics*, *31*(6), 537–550. https://doi.org/10.3758/BF03204186

Rayner, K., White, S. J., Kambe, G., Miller, B., & Liversedge, S. (2003). On the processing of meaning from parafoveal vision during eye fixations in reading. In J. Hyönä, R. Radach, & H. Deubel (Eds). *The Mind's Eye: Cognitive and Applied Aspects of Eye Movement Research*, 213–234.

Reichle, E. D., Pollatsek, A., Fisher, D. L., & Rayner, K. (1998). Toward a model of eye movement control in reading. *Psychological Review*, *105*(1), 125–157. https://doi.org/10.1037/0033-295X.105.1.125

Reichle, E. D., Pollatsek, A., & Rayner, K. (2006). E–Z Reader: A cognitive-control, serial-attention model of eye-movement behavior during reading. *Cognitive Systems Research*, *7*(1), 4–22. https://doi.org/10.1016/j.cogsys.2005.07.002

Reiter, A., Tucha, O., & Lange, K. W. (2005). Executive functions in children with dyslexia. *Dyslexia*, *11*(2), 116–131. https://doi.org/10.1002/dys.289

Remigereau, C., Roy, A., Costini, O., Barbarot, S., Bru, M., & Le Gall, D. (2018). Praxis skills and executive function in children with neurofibromatosis type 1. *Applied Neuropsychology: Child*, *7*(3), 224–234. https://doi.org/10.1080/21622965.2017.1295856

Ribeiro, M. J., D'Almeida, O. C., Ramos, F., Saraiva, J., Silva, E. D., & Castelo-Branco, M. (2014). Abnormal late visual responses and alpha oscillations in neurofibromatosis type 1: a link to visual and attention deficits. *Journal of Neurodevelopmental Disorders*, *6*(1). https://doi.org/10.1186/1866-1955-6-4

Ribeiro, M. J., Violante, I. R., Bernardino, I., Edden, R. A. E., & Castelo-Branco, M. (2015). Abnormal relationship between GABA, neurophysiology and impulsive behavior in neurofibromatosis type 1. *Cortex*, *64*, 194–208. https://doi.org/10.1016/j.cortex.2014.10.019

Ribeiro, M. J., Violante, I. R., Ribeiro, I., Bernardino, I., Ramos, F., Saraiva, J., Reviriego, P., Upadhyaya, M., Silva, E. D., & Castelo-Branco, M. (2012). Abnormal achromatic and chromatic contrast sensitivity in neurofibromatosis type 1. *Investigative Ophthalmology and Visual Science*, *53*(1), 287–293. https://doi.org/10.1167/iovs.11-8225

Richman, J. E. (2009). Developmental Eye Movement Test, Examiner's manual, version 2.0. *South Bend, IN: Bernell Corp*.

Riva, D., Vago, C., Erbetta, A., Saletti, V., Esposito, S., Micheli, R., & Bulgheroni, S. (2017). The Key Search Subtest of the Behavioural Assessment of the Dysexecutive Syndrome in Children (BADS-C) Instrument Reveals Impaired Planning Without External Constraints in Children With Neurofibromatosis Type 1. *Journal of Child Neurology*, *32*(4), 387–396. https://doi.org/10.1177/0883073816683322

Roy-Charland, A., Saint-Aubin, J., & Evans, M. A. (2007). Eye movements in shared book reading with children from kindergarten to Grade 4. *Reading and Writing*, *20*(9), 909–931. https://doi.org/10.1007/s11145-007-9059-9

Roy, A. (2007). *Fonctions exécutives chez les enfants atteints d'une neurofibromatose de type 1 approche clinique et critique*. Thèse de doctorat, Université d'Angers.

Roy, A., Barbarot, S., Charbonnier, V., Gayet-Delacroix, M., Stalder, J. F., Roulin, J. L., & Le Gall, D. (2015). Examining the frontal subcortical brain vulnerability hypothesis in children with neurofibromatosis type 1: Are T2-weighted hyperintensities related to executive dysfunction? *Neuropsychology*, *29*(3), 473–484. https://doi.org/10.1037/neu0000151

Roy, A., Barbarot, S., Roulin, J.-L., Charbonnier, V., Fasotti, L., Stalder, J.-F., & Le Gall, D. (2014). Is Executive Function Specifically Impaired in Children With Neurofibromatosis Type 1? A Neuropsychological Investigation of Cognitive Flexibility. *Applied Neuropsychology: Child*, *3*(2), 94–102. https://doi.org/10.1080/21622965.2012.704185

Roy, A., Kefi, M.-Z., Bellaj, T., Fournet, N., Le Gall, D., & Roulin, J.-L. (2018). The Stroop test: A developmental study in a French children sample aged 7 to 12 years. *Psychologie Française*, *63*(2), 129–143. https://doi.org/10.1016/j.psfr.2016.08.001

Roy, A., Roulin, J. L., Charbonnier, V., Allain, P., Fasotti, L., Barbarot, S., Stalder, J. F., Terrien, A., & Le Gall, D. (2010). Executive dysfunction in children with neurofibromatosis type 1: A study of action planning. *Journal of the International Neuropsychological Society*, *16*(6), 1056–1063. https://doi.org/10.1017/S135561771000086X

Ruffino, M., Gori, S., Boccardi, D., Molteni, M., & Facoetti, A. (2014). Spatial and temporal attention in developmental dyslexia. *Frontiers in Human Neuroscience*, *8*(MAY), 1–13. https://doi.org/10.3389/fnhum.2014.00331

Ruffino, M., Trussardi, A. N., Gori, S., Finzi, A., Giovagnoli, S., Menghini, D., Benassi, M., Molteni, M., Bolzani, R., Vicari, S., & Facoetti, A. (2010). Attentional engagement deficits in dyslexic children. *Neuropsychologia*, *48*(13), 3793–3801. https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2010.09.002

Sabol, Z., Rešić, B., Gjergja Juraški, R., Sabol, F., Kovač Šižgorić, M., Oršolić, K., Ozretić, D., & Šepić-Grahovac, D. (2011). Clinical sensitivity and specificity of multiple T2-hyperintensities on brain magnetic resonance imaging in diagnosis of neurofibromatosis type 1 in children: diagnostic accuracy study. *Croatian Medical Journal*, *52*(4), 488–496. https://doi.org/10.3325/cmj.2011.52.488

Saksida, A., Iannuzzi, S., Bogliotti, C., Chaix, Y., Démonet, J.-F., Bricout, L., Billard, C., Nguyen-Morel, M.-A., Le Heuzey, M.-F., Soares-Boucaud, I., George, F., Ziegler, J. C., & Ramus, F. (2016). Phonological skills, visual attention span, and visual stress in developmental dyslexia. *Developmental Psychology*, *52*(10), 1503–1516. https://doi.org/10.1037/dev0000184

Salem, T., Elsherif, M., Mourad, M., Abdou, R., & Hamouda, N. (2022). Eye movements and visual perception in dyslexic children. *Hearing, Balance and Communication*, *20*(2), 109–119. https://doi.org/10.1080/21695717.2022.2028496

Sanagoo, A., Jouybari, L., Koohi, F., & Sayehmiri, F. (2019). Evaluation of QoL in neurofibromatosis patients: A systematic review and meta-analysis study. *BMC Neurology*, *19*(1), 1–13. https://doi.org/10.1186/s12883-019-1338-y

Sangster, J., Shores, E. A., Watt, S., & North, K. N. (2011). The cognitive profile of preschool-aged children with neurofibromatosis type 1. *Child Neuropsychology*, *17*(1), 1–16. https://doi.org/10.1080/09297041003761993

Schatschneider, C., Fletcher, J. M., Francis, D. J., Carlson, C. D., & Foorman, B. R. (2004). Kindergarten prediction of reading skills: A longitudinal comparative analysis. *Journal of Educational Psychology*, *96*(2), 265–282. https://doi.org/10.1037/0022-0663.96.2.265

Schattka, K. I., Radach, R., & Huber, W. (2010). Eye movement correlates of acquired central dyslexia. *Neuropsychologia*, *48*(10), 2959–2973. https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2010.06.005

Schiller, P. H. (1966). Developmental study of color-word interference. *Journal of Experimental Psychology*, *72*(1), 105–108. https://doi.org/10.1037/h0023358

Schmitt, A., Lachmann, T., & van Leeuwen, C. (2019). Lost in the forest? Global to local interference depends on children's reading skills. *Acta Psychologica*, *193*(December 2018), 11–17. https://doi.org/10.1016/j.actpsy.2018.12.003

Schneps, M. H., Thomson, J. M., Sonnert, G., Pomplun, M., Chen, C., & Heffner-Wong, A. (2013). Shorter Lines Facilitate Reading in Those Who Struggle. *PLoS ONE*, *8*(8). https://doi.org/10.1371/journal.pone.0071161

Schotter, E. R., Angele, B., & Rayner, K. (2012). Parafoveal processing in reading. *Attention, Perception, and Psychophysics*, *74*(1), 5–35. https://doi.org/10.3758/s13414-011-0219-2

Schrimsher, G. W., Billingsley, R. L., Jackson, E. F., & Moore, B. D. (2002). Caudate Nucleus Volume Asymmetry Predicts Attention-Deficit Hyperactivity Disorder (ADHD) Symptomatology in Children. *Journal of Child Neurology*, *17*(12), 877–884. https://doi.org/10.1177/08830738020170122001

Schrimsher, G. W., Billingsley, R. L., Slopis, J. M., & Moore, B. D. (2003). Visual-spatial performance deficits in children with neurofibromatosis type-1. *American Journal of Medical Genetics*, *120A*(3), 326–330. https://doi.org/10.1002/ajmg.a.20048

Senechal, M., & LeFevre, J.-A. (2002). Parental Involvement in the Development of Children's Reading Skill: A Five-Year Longitudinal Study. *Child Development*, *73*(2), 445–460. https://doi.org/10.1111/1467-8624.00417

Share, D. L. (1995). Phonological recoding and self-teaching: sine qua non of reading acquisition. *Cognition*, *55*(2), 151–218. https://doi.org/10.1016/0010-0277(94)00645-2

Shareef, Z., Östberg, P., & Hedenius, M. (2019). Verbal fluency in relation to reading ability in students with and without dyslexia. *Applied Psycholinguistics*, *40*(2), 445–472. https://doi.org/10.1017/S0142716418000644

Shilyansky, C., Lee, Y. S., & Silva. (2011). Molecular and Cellular Mechanisms of Learning Disabilities: A focus on NF1. *Annual Review of Neuroscience*, *33*, 221–243. https://doi.org/10.1146/annurev-neuro-060909-153215.Molecular

Siéroff, E., Dahmen, R., & Fagard, J. (2012). Mechanisms of attention in reading parafoveal words: A cross-linguistic study in children. *Neuropsychology*, *26*(3), 334–346. https://doi.org/10.1037/a0027572

Siéroff, E., & Haehnel-Benoliel, N. (2015). Environmental script affects lateral asymmetry of word recognition: A study of French–Hebrew bilinguals tested in Israel and in France. *Laterality: Asymmetries of Body, Brain and Cognition*, *20*(4), 389–417. https://doi.org/10.1080/1357650X.2014.988220

Siéroff, E., & Riva, M. (2011). Attention and the identification of parafoveal words in school-age children and adults. *Journal of Neurolinguistics*, *24*(4), 420–434. https://doi.org/10.1016/j.jneuroling.2011.01.003

Siéroff, E., & Slama, Y. (2018). Influence of script direction on word processing modes in left and right visual fields. *Laterality: Asymmetries of Body, Brain and Cognition*, *23*(4), 479–500. https://doi.org/10.1080/1357650X.2017.1402916

Silva, G., Ribeiro, M. J., Costa, G. N., Violante, I., Ramos, F., Saraiva, J., & Castelo-Branco, M. (2016). Peripheral attentional targets under covert attention lead to paradoxically enhanced alpha desynchronization in neurofibromatosis type 1. *PLoS ONE*, *11*(2), 1–15. https://doi.org/10.1371/journal.pone.0148600

Silva, S., Faísca, L., Araújo, S., Casaca, L., Carvalho, L., Petersson, K. M., & Reis, A. (2016). Too little or too much? Parafoveal preview benefits and parafoveal load costs in dyslexic adults. *Annals of Dyslexia*, *66*(2), 187–201. https://doi.org/10.1007/s11881-015-0113-z

Simola, J., Holmqvist, K., & Lindgren, M. (2009). Right visual field advantage in parafoveal processing: Evidence from eye-fixation-related potentials. *Brain and Language*, *111*(2), 101–113. https://doi.org/10.1016/j.bandl.2009.08.004

Skottun, B. C. (2000). The magnocellular deficit theory of dyslexia: the evidence from contrast sensitivity. *Vision Research*, *40*(1), 111–127. https://doi.org/10.1016/S0042-6989(99)00170-4

Slattery, T. J., & Vasilev, M. R. (2019). An eye-movement exploration into return-sweep targeting during reading. *Attention, Perception, & Psychophysics*, *81*(5), 1197–1203. https://doi.org/10.3758/s13414-019-01742-3

Snell, J., & Grainger, J. (2018). Parallel word processing in the flanker paradigm has a rightward bias. *Attention, Perception, & Psychophysics*, *80*(6), 1512–1519. https://doi.org/10.3758/s13414-018-1547-2

Snell, J., Mathôt, S., Mirault, J., & Grainger, J. (2018b). Parallel graded attention in reading: A pupillometric study. *Scientific Reports*, *8*(1), 3743. https://doi.org/10.1038/s41598-018-22138-7

Snell, J., van Leipsig, S., Grainger, J., & Meeter, M. (2018a). OB1-reader: A model of word recognition and eye movements in text reading. *Psychological Review*, *125*(6), 969–984. https://doi.org/10.1037/rev0000119

Snowling, M. J., Muter, V., & Carroll, J. (2007). Children at family risk of dyslexia: a follow-up in early adolescence. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, *48*(6), 609–618. https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2006.01725.x

Son, S.-H., & Meisels, S. J. (2006). The Relationship of Young Children's Motor Skills to Later School Achievement. *Merrill-Palmer Quarterly*, *52*(4), 755–778. https://doi.org/10.1353/mpq.2006.0033

Soucy, E. A., Gao, F., Gutmann, D. H., & Dunn, C. M. (2012). Developmental delays in children with neurofibromatosis type 1. *Journal of Child Neurology*, *27*(5), 641–644. https://doi.org/10.1177/0883073811423974

Sperlich, A., Meixner, J., & Laubrock, J. (2016). Development of the perceptual span in reading: A longitudinal study. *Journal of Experimental Child Psychology*, *146*, 181–201. https://doi.org/10.1016/j.jecp.2016.02.007

Spinelli, D., De Luca, M., Judica, A., & Zoccolotti, P. (2002). Crowding effects on word identification in developmental dyslexia. *Cortex*, *38*(2), 179–200. https://doi.org/10.1016/S0010-9452(08)70649-X

Sprenger-Charolles, L., Siegel, L. S., Jiménez, J. E., & Ziegler, J. C. (2011). Prevalence and reliability of phonological, surface, and mixed profiles in dyslexia: A review of studies conducted in languages varying in orthographic depth. *Scientific Studies of Reading*, *15*(6), 498–521. https://doi.org/10.1080/10888438.2010.524463

Stanovich, K. E. (1986). Matthew Effects in Reading: Some Consequences of Individual Differences in the Acquisition of Literacy. *Reading Research Quarterly*, *21*(4), 360–407. https://doi.org/10.1598/RRQ.21.4.1

Stanovich, K. E., & Cunningham, A. E. (1993). Where does knowledge come from? Specific associations between print exposure and information acquisition. *Journal of Educational Psychology*, *85*(2), 211–229. https://doi.org/10.1037/0022-0663.85.2.211

Stanovich, K. E., West, R. F., & Harrison, M. R. (1995). Knowledge growth and maintenance across the life span: The role of print exposure. *Developmental Psychology*, *31*(5), 811–826. https://doi.org/10.1037/0012-1649.31.5.811

Stein, J. F. (2001). The magnocellular theory of developmental dyslexia. *Dyslexia*, *7*(1), 12–36. https://doi.org/10.1002/dys.186

Stein, J. F. (2019). The current status of the magnocellular theory of developmental dyslexia. *Neuropsychologia*, *130*, 66–77. https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2018.03.022

Stein, J. F. (2022). Developmental Dyslexia — a useful concept? *Asia Pacific Journal of Developmental Differences*, *9*(2), 158–171. https://doi.org/10.3850/S2345734122000109

Stroop, J. R. (1935). Studies of interference in serial verbal reactions. *Journal of Experimental Psychology*, *18*(6), 643–662. https://doi.org/10.1037/h0054651

Suggate, S., Pufke, E., & Stoeger, H. (2018). Do fine motor skills contribute to early reading development? *Journal of Research in Reading*, *41*(1), 1–19. https://doi.org/10.1111/1467-9817.12081

Talcott, J. B., Hansen, P. C., Willis-Owen, C., McKinnell, I. W., Richardson, A. J., & Stein, J. F. (1998). Visual magnocellular impairment in adult developmental dyslexics. *Neuro-Ophthalmology*, *20*(4), 187–201. https://doi.org/10.1076/noph.20.4.187.3931

Tanke, N., Barsingerhorn, A. D., Boonstra, F. N., & Goossens, J. (2021). Visual fixations rather than saccades dominate the developmental eye movement test. *Scientific Reports*, *11*(1). https://doi.org/10.1038/s41598-020-80870-5

Taran, N., Farah, R., DiFrancesco, M., Altaye, M., Vannest, J., Holland, S., Rosch, K., Schlaggar, B. L., & Horowitz-Kraus, T. (2022). The role of visual attention in dyslexia: Behavioral and neurobiological evidence. *Human Brain Mapping*, *43*(5), 1720–1737. https://doi.org/10.31234/osf.io/n8xer

Taylor, J. N., & Perfetti, C. A. (2016). Eye movements reveal readers' lexical quality and reading experience. *Reading and Writing*, *29*(6), 1069–1103. https://doi.org/10.1007/s11145-015-9616-6

Thibault, M. P., Helloin, M. C., & Croteau, B. (2010). *Exalang 5/8, batterie informatisée d'examen du langage oral et écrit chez des enfants de 5 à 8 ans* (Motus Édit).

Thibault, M. P., Lenfant, M., & Helloin, M. C. (2012). *Exalang 8/11, bilan informatisé pour l'examen du langage et des compétences transversales chez l'enfant de 8 à 11 ans (ou scolarisé du CE2 au CM2)* (Motus Édit).

Thompson, H. L., Viskochil, D. H., Stevenson, D. a., & Chapman, K. L. (2010). Speech-language characteristics of children with neurofibromatosis type 1. *American Journal of Medical Genetics, Part A*, *152*(2), 284–290. https://doi.org/10.1002/ajmg.a.33235

Tiadi, A., Gérard, C.-L., Peyre, H., Bui-Quoc, E., & Bucci, M. P. (2016). Immaturity of Visual Fixations in Dyslexic Children. *Frontiers in Human Neuroscience*, *10*(FEB2016), 1–7. https://doi.org/10.3389/fnhum.2016.00058

Tiffin-Richards, S. P., & Schroeder, S. (2015). Children's and adults' parafoveal processes in German: Phonological and orthographic effects. *Journal of Cognitive Psychology*, *27*(5), 531–548. https://doi.org/10.1080/20445911.2014.999076

Tomson, S. N., Schreiner, M. J., Narayan, M., Rosser, T., Enrique, N., Silva, A. J., Allen, G. I., Bookheimer, S. Y., & Bearden, C. E. (2015). Resting state functional MRI reveals abnormal network connectivity in neurofibromatosis 1. *Human Brain Mapping*, *36*(11), 4566–4581. https://doi.org/10.1002/hbm.22937

Torgesen, J. K. (2004). Avoiding the devastating downward spiral: The evidence that early intervention prevents reading failure. *American Educator*, *28*(3), 6–19.

Ullrich, N. J., Ayr, L., Leaffer, E., Irons, M. B., & Rey-Casserly, C. (2010). Pilot study of a novel computerized task to assess spatial learning in children and adolescents with neurofibromatosis type i. *Journal of Child Neurology*, *25*(10), 1195–1202. https://doi.org/10.1177/0883073809358454

Uusitalo, E., Leppävirta, J., Koffert, A., Suominen, S., Vahtera, J., Vahlberg, T., Pöyhönen, M., Peltonen, J., & Peltonen, S. (2015). Incidence and mortality of neurofibromatosis: A total population study in Finland. *Journal of Investigative Dermatology*, *135*(3), 904–906. https://doi.org/10.1038/jid.2014.465

Vagge, A., Cavanna, M., Traverso, C. E., & Iester, M. (2015). Evaluation of ocular movements in patients with dyslexia. *Annals of Dyslexia*, *65*(1), 24–32. https://doi.org/10.1007/s11881-015-0098-7

Valdois, S., Guinet, E., & Embs, J. L. (2014). *EVADYS: logiciel d'évaluation de l'empan visuo-attentionnel chez les personnes dyslexique* (Isbergues:).

Valdois, S., Peyrin, C., Lassus-Sangosse, D., Lallier, M., Démonet, J.-F., & Kandel, S. (2014). Dyslexia in a French–Spanish bilingual girl: Behavioural and neural modulations following a visual attention span intervention. *Cortex*, *53*(1), 120–145. https://doi.org/10.1016/j.cortex.2013.11.006

Valdois, S., Phénix, T., Fort, M., & Diard, J. (2021). Atypical viewing position effect in developmental dyslexia: A behavioural and modelling investigation. *Cognitive Neuropsychology*, *38*(5), 319–335. https://doi.org/10.1080/02643294.2021.2004107

Valdois, S., Roulin, J.-L., & Line Bosse, M. (2019). Visual attention modulates reading acquisition. *Vision Research*, *165*(October), 152–161. https://doi.org/10.1016/j.visres.2019.10.011

Van Bergen, E., van Zuijen, T., Bishop, D., & de Jong, P. F. (2017). Why Are Home Literacy Environment and Children's Reading Skills Associated? What Parental Skills Reveal. *Reading Research Quarterly*, *52*(2), 147–160. https://doi.org/10.1002/rrq.160

Van Eylen, L., Plasschaert, E., Wagemans, J., Boets, B., Legius, E., Steyaert, J., & Noens, I. (2017). Visuoperceptual processing in children with neurofibromatosis type 1: True deficit or artefact? *American Journal of Medical Genetics Part B: Neuropsychiatric Genetics*, *174*(4), 342–358. https://doi.org/10.1002/ajmg.b.32522

Van Zoest, W., & Donk, M. (2005). The effects of salience on saccadic target selection. *Visual Cognition*, *12*(2), 353–375. https://doi.org/10.1080/13506280444000229

Varvara, P., Varuzza, C., Sorrentino, A. C. P., Vicari, S., & Menghini, D. (2014). Executive functions in developmental dyslexia. *Frontiers in Human Neuroscience*, *8*(MAR), 1–8. https://doi.org/10.3389/fnhum.2014.00120

Vaucheret Paz, E., López Ballent, A., Puga, C., García Basalo, M. J., Baliarda, F., Ekonen, C., Ilari, R., & Agosta, G. (2019). Cognitive profile and disorders affecting higher brain functions in paediatric patients with neurofibromatosis type 1. *Neurología (English Edition)*, *34*(6), 353–359. https://doi.org/10.1016/j.nrleng.2017.02.009

Veldre, A., & Andrews, S. (2014). Lexical Quality and Eye Movements: Individual Differences in the Perceptual Span of Skilled Adult Readers. *Quarterly Journal of Experimental Psychology*, *67*(4), 703–727. https://doi.org/10.1080/17470218.2013.826258

Vernet, M., Bellocchi, S., Leibnitz, L., Chaix, Y., & Ducrot, S. (2022a). Predicting future poor readers from pre-reading visual skills: A longitudinal study. *Applied Neuropsychology: Child*, *11*(3), 480–494. https://doi.org/10.1080/21622965.2021.1895790

Vernet, M., Chaix, Y., Meiss, E., & Ducrot, S. (2020). A computarized Tool for predicting future reading abilities in Pre-Readers Children [Poster presentation]. *International Conference on Trends in Developmental Cognitive Neuroscience, Amsterdam*.

Vernet, M., Muneaux, M., Meiss, E., Chaix, Y., & Ducrot, S. (2022b). DiagLECT : un logiciel d'évaluation des processus visuels pour le dépistage des troubles de la lecture [Communication orale]. *14ème Édition Du RIPSYDEVE, Montpellier*, 60.

Viarouge, A., Houdé, O., & Borst, G. (2019). Evidence for the role of inhibition in numerical comparison: A negative priming study in 7- to 8-year-olds and adults. *Journal of Experimental Child Psychology*, *186*, 131–141. https://doi.org/10.1016/j.jecp.2019.05.011

Vikesdal, G. H., Falkenberg, H. K., Mon-Williams, M., Riddell, P., & Langaas, T. (2021). Normal saccades but decreased fixation stability in a population of children with dyslexia. *Scandinavian Journal of Optometry and Visual Science*, *14*(2), 1–7. https://doi.org/10.5384/sjovs.v14i2.137

Vinuela-Navarro, V., Erichsen, J. T., Williams, C., & Woodhouse, J. M. (2017). Saccades and fixations in children with delayed reading skills. *Ophthalmic and Physiological Optics*, *37*(4), 531–541. https://doi.org/10.1111/opo.12392

Violante, I. R., Patricio, M., Bernardino, I., Rebola, J., Abrunhosa, A. J., Ferreira, N., & Castelo-Branco, M. (2016). GABA deficiency in NF1. *Neurology*, *87*(9), 897–904. https://doi.org/10.1212/WNL.0000000000003044

Violante, I. R., Ribeiro, M. J., Cunha, G., Bernardino, I., Duarte, J. V., Ramos, F., Saraiva, J., Silva, E., & Castelo-Branco, M. (2012). Abnormal brain activation in Neurofibromatosis type 1: A link between visual processing and the default mode network. *PLoS ONE*, *7*(6). https://doi.org/10.1371/journal.pone.0038785

Violante, I. R., Ribeiro, M. J., Edden, R. A. E., Guimarães, P., Bernardino, I., Rebola, J., Cunha, G., Silva, E., & Castelo-Branco, M. (2013b). GABA deficit in the visual cortex of patients with neurofibromatosis type 1: genotype–phenotype correlations and functional impact. *Brain*, *136*(3), 918–925. https://doi.org/10.1093/brain/aws368

Violante, I. R., Ribeiro, M. J., Silva, E. D., & Castelo-Branco, M. (2013a). Gyrification, cortical and subcortical morphometry in neurofibromatosis type 1: An uneven profile of developmental abnormalities. *Journal of Neurodevelopmental Disorders*, *5*(3), 1–13. https://doi.org/10.1186/1866-1955-5-3

Vitu, F., O'Regan, J. K., Inhoff, A. W., & Topolski, R. (1995). Mindless reading: Eye-movement characteristics are similar in scanning letter strings and reading texts. *Perception & Psychophysics*, *57*(3), 352–364. https://doi.org/10.3758/BF03213060

Vitu, F., O'Regan, J. K., & Mittau, M. (1990). Optimal landing position in reading isolated words and continuous text. *Perception & Psychophysics*, *47*(6), 583–600. https://doi.org/10.3758/BF03203111

Vorstius, C., Radach, R., & Lonigan, C. J. (2014). Eye movements in developing readers: A comparison of silent and oral sentence reading. *Visual Cognition*, *22*(3–4), 458–485. https://doi.org/10.1080/13506285.2014.881445

Wanzek, J., & Vaughn, S. (2007). Research-Based Implications From Extensive Early Reading Interventions. *School Psychology Review*, *36*(4), 541–561. https://doi.org/10.1080/02796015.2007.12087917

Watt, S. E., Shores, E. A., & North, K. N. (2008). An examination of lexical and sublexical reading skills in children with neurofibromatosis type 1. *Child Neuropsychology*, *14*(5), 401–418. https://doi.org/10.1080/09297040701595505

Webber, A., Wood, J., Gole, G., & Brown, B. (2011). DEM test, visagraph eye movement recordings, and reading ability in children. *Optometry and Vision Science*, *88*(2), 295–302. https://doi.org/10.1097/OPX.0b013e31820846c0

White, A. L., Boynton, G. M., & Yeatman, J. D. (2019). The link between reading ability and visual spatial attention across development. *Cortex*, *121*, 44–59. https://doi.org/10.1016/j.cortex.2019.08.011

White, S. J. (2008). Eye movement control during reading: Effects of word frequency and orthographic familiarity. *Journal of Experimental Psychology: Human Perception and Performance*, *34*(1), 205–223. https://doi.org/10.1037/0096-1523.34.1.205

White, S. J., & Liversedge, S. (2004). Orthographic familiarity influences initial eye fixation positions in reading. *European Journal of Cognitive Psychology*, *16*(1–2), 52–78. https://doi.org/10.1080/09541440340000204

Wilcockson, T. D. W., Mardanbegi, D., Sawyer, P., Gellersen, H., Xia, B., & Crawford, T. J. (2019). Oculomotor and Inhibitory Control in Dyslexia. *Frontiers in Systems Neuroscience*, *12*(January), 1–10. https://doi.org/10.3389/fnsys.2018.00066

Willemin, J., Hausmann, M., Brysbaert, M., Dael, N., Chmetz, F., Fioravera, A., Gieruc, K., & Mohr, C. (2016). Stability of right visual field advantage in an international lateralized lexical decision task irrespective of participants' sex, handedness or bilingualism. *Laterality: Asymmetries of Body, Brain and Cognition*, *21*(4–6), 502–524. https://doi.org/10.1080/1357650X.2015.1130716

Wolkenstein, P., Rodriguez, D., Ferkal, S., Gravier, H., Buret, V., Algans, N., Simeoni, M.-C., & Bastuji-Garin, S. (2009). Impact of neurofibromatosis 1 upon quality of life in childhood: a cross-sectional study of 79 cases. *British Journal of Dermatology*, *160*(4), 844–848. https://doi.org/10.1111/j.1365-2133.2008.08949.x

World Health Organisation. (2008). *59th general assembly* (A. WM (ed.)). WHO.

Zhou, W., Wang, A., & Yan, M. (2021). Eye movements and the perceptual span among skilled Uighur readers. *Vision Research*, *182*(June 2020), 20–26. https://doi.org/10.1016/j.visres.2021.01.005

Zimmermann, P., Gondan, M., & Fimm, B. (2005). kiTAP. Test d'évaluation de l'attention. Version pour enfants. *PsyTest, Herzogenrath, Germany*.

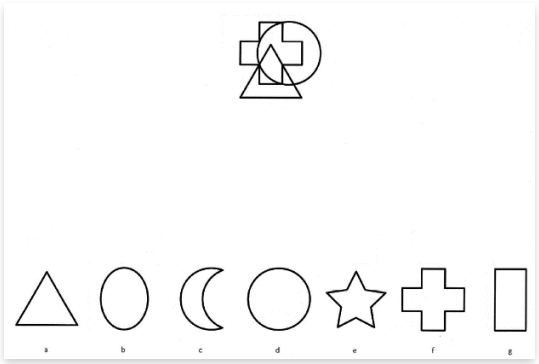
Zorzi, M., Barbiero, C., Facoetti, A., Lonciari, I., Carrozzi, M., Montico, M., Bravar, L., George, F., Pech-Georgel, C., & Ziegler, J. C. (2012). Extra-large letter spacing improves reading in dyslexia. *Proceedings of the National Academy of Sciences of the United States of America*, *109*(28), 11455–11459. https://doi.org/10.1073/pnas.1205566109

Zoubrinetzky, R., Collet, G., Nguyen-Morel, M.-A., Valdois, S., & Serniclaes, W. (2019). Remediation of Allophonic Perception and Visual Attention Span in Developmental Dyslexia: A Joint Assay. *Frontiers in Psychology*, *10*, 1–16. https://doi.org/10.3389/fpsyg.2019.01502

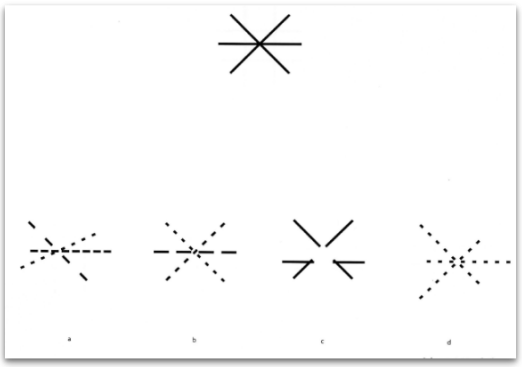
Annexes

Annexe 1. Illustration des épreuves du DTVP-3 (Hammill et al., 2014)

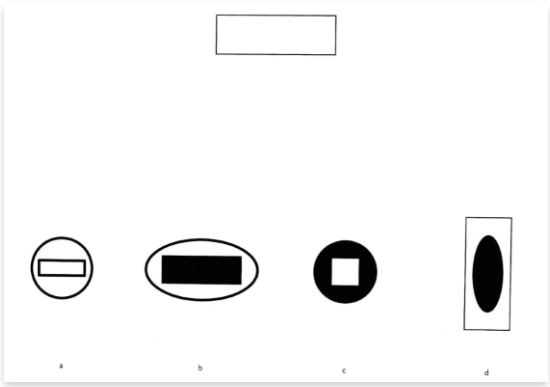
Épreuve discrimination figure-fond
Figure-Ground



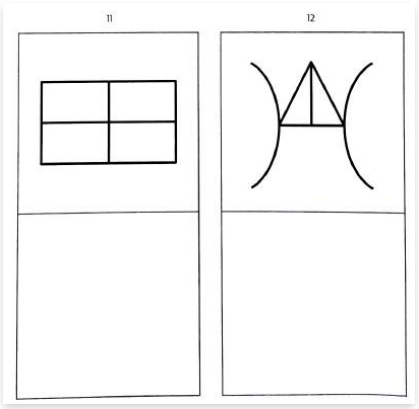
Épreuve complétion visuelle
Visual-Closure



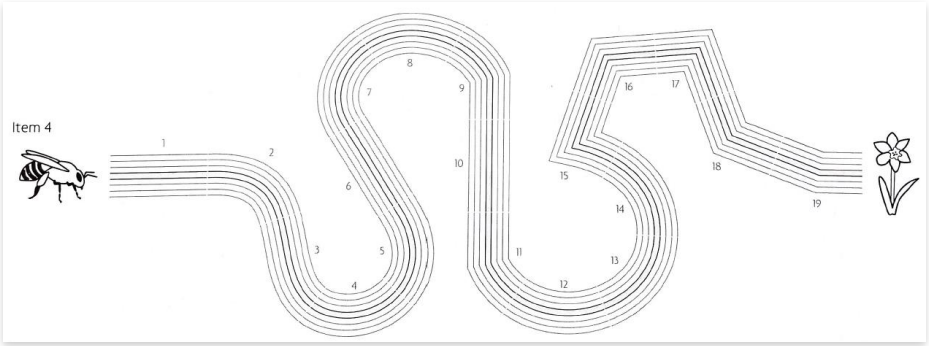
Épreuve constance de forme
Form Constancy



Épreuve de copie
Copying

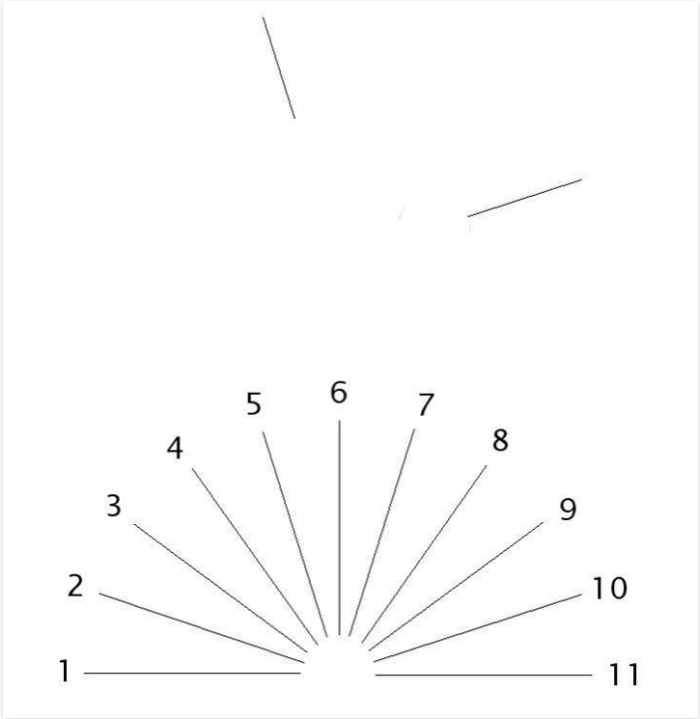


Épreuve coordination visuo-motrice
Eye-Hand coordination

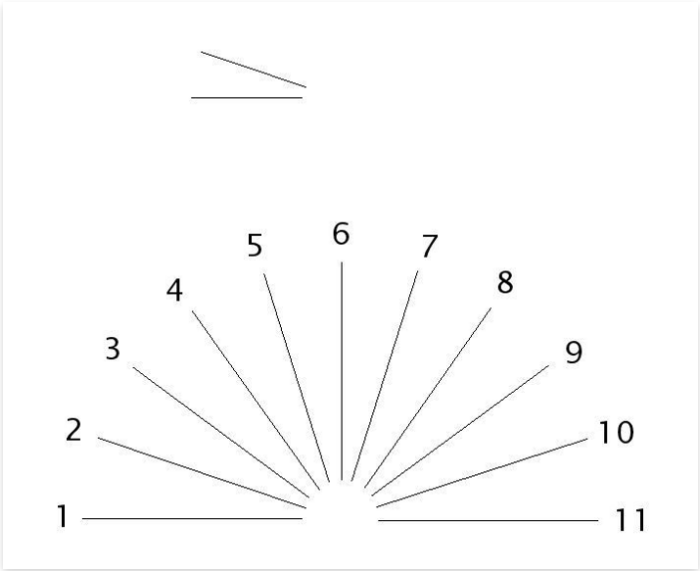


Annexe 2. Exemple de planches de test à la tâche du JLO (Benton, 1978)

Exemple 1



Exemple 2



Annexe 3. Illustration des planches du DEM-test (Garzia et al., 1990; Richman, 2009)

TEST A

3	4
7	5
5	2
9	1
8	7
2	5
5	3
7	7
4	4
6	8
1	7
4	4
7	6
6	5
3	2
7	9
9	2
3	3
9	6
2	4

TEST C

3		7	5			9			8
2	5			7		4			6
1			4		7		6		3
7		9		3		9			2
4	5				2			1	7
5			3		7		4		8
7	4		6	5					2
9		2			3		6		4
6	3	2		9					1
7				4		6	5		2
5		3	7			4			8
4			5		2			1	7
7	9	3			9				2
1			4			7		6	3
2		5		7			4		6
3	7		5			9			8

Annexe 4. Stimuli utilisés dans la tâche de bissection oculaire présenté dans la partie 1 du chapitre 5

Propriétés des items			Items		
Champ visuel	Longueur	Fréquence du mot	Mot	Séquence de dièses	Segment
CVG	5	Fréquent	jouet	#####	————
CVG	5	Fréquent	mardi	#####	————
CVG	5	Rare	gorge	#####	————
CVG	5	Rare	lèvre	#####	————
CVG	5	Rare	maçon	#####	————
CVG	6	Fréquent	cheval	######	————
CVG	6	Fréquent	étoile	######	————
CVG	6	Fréquent	légume	######	————
CVG	6	Rare	malade	######	————
CVG	6	Rare	nageur	######	————
CVD	5	Fréquent	route	#####	————
CVD	5	Fréquent	tarte	#####	————
CVD	5	Fréquent	bisou	#####	————
CVD	5	Rare	bûche	#####	————
CVD	5	Rare	talon	#####	————
CVD	6	Fréquent	minute	######	————
CVD	6	Fréquent	lavage	######	————
CVD	6	Rare	regard	######	————
CVD	6	Rare	régime	######	————
CVD	6	Rare	volcan	######	————

Annexe 5. Illustration de la planche du test du test OURA LEC (Billard et al., 2013)

Dino, où es-tu ? crie papa.

Ici, dans la mare.

Depuis une heure, Dino, le petit dinosaure, se débat pour se dégager de la boue profonde. Il pleut, de grands oiseaux noirs volent dans le ciel sombre. Ils se préparent à attaquer Dino. Dino pose sa grande patte droite sur le bord de la mare et il essaie de sortir son corps de la boue. Son père arrive entre les arbres de la forêt qui borde la mare. Il attrape le cou de Dino entre ses dents et d'un coup, il soulève Dino. Il le pose sur la terre ferme.

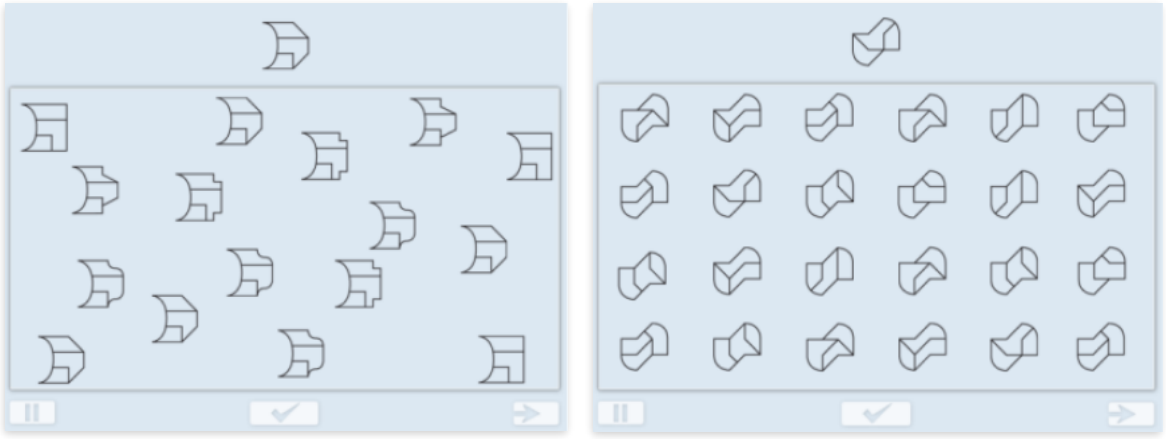
Sauvé ! crie Dino.

Fiche de lecture juin

Annexe 6. Illustration des tâches du logiciel VISA-kids (Leibnitz, 2015b, 2016)

Exemple pour l'épreuve visuo-attentionnelle

Condition aléatoire *Condition ordonnée*



Exemple pour de traitement analytique



Annexe 7. Stimuli utilisés pour l'étude de l'outil d'aide à la lecture présenté dans la partie 2 du chapitre 6

Liste des mots

Item	Fréquence	U	Taille	Item	Fréquence	U	Taille
amour	Rare	29	5	malin	Rare	25	5
arbre	Fréquent	666	5	maman	Fréquent	2333	5
balai	Fréquent	108	5	mardi	Fréquent	102	5
banane	Fréquent	213	6	matin	Fréquent	716	5
barbu	Rare	5	5	matou	Rare	10	5
bazar	Rare	29	5	melon	Rare	32	5
besoin	Fréquent	247	6	ménage	Rare	29	6
bisou	Rare	19	5	mètre	Rare	29	5
bocal	Rare	14	5	milieu	Fréquent	238	6
cabine	Rare	23	6	minute	Fréquent	145	6
câlin	Rare	5	5	montre	Fréquent	119	6
calme	Rare	4	5	nageur	Rare	11	6
camion	Fréquent	171	6	narine	Rare	16	6
canif	Rare	11	5	nuage	Fréquent	150	5
canon	Rare	8	5	panier	Fréquent	203	6
carafe	Rare	16	6	papier	Fréquent	350	6
carte	Fréquent	216	5	partir	Fréquent	1086	6
carton	Fréquent	155	6	patate	Rare	7	6
centre	Rare	15	6	photo	Fréquent	278	5
chéri	Rare	8	5	piéton	Rare	11	6
cheval	Fréquent	354	6	pilule	Rare	25	6
chèvre	Rare	16	6	piste	Fréquent	156	5
chien	Fréquent	851	5	place	Fréquent	346	5
cigale	Rare	5	6	plume	Fréquent	248	5
cirage	Rare	4	6	poche	Fréquent	174	5
citron	Fréquent	126	6	poison	Rare	29	6
colère	Fréquent	177	6	porte	Fréquent	616	5
course	Fréquent	350	6	poste	Fréquent	163	5
dormir	Fréquent	463	6	potage	Rare	4	6
école	Fréquent	1096	5	préau	Rare	10	5
écrire	Fréquent	524	6	prénom	Rare	26	6
écrou	Rare	5	5	prison	Rare	13	6
étoile	Fréquent	315	6	racine	Rare	29	6
fable	Rare	12	5	rasoir	Rare	20	6
farine	Fréquent	230	6	rature	Rare	10	6
finir	Fréquent	330	5	ravin	Rare	15	5
flacon	Rare	5	6	régime	Rare	20	6
fluor	Rare	8	5	région	Rare	29	6
forêt	Fréquent	531	5	remède	Rare	14	6
frère	Fréquent	348	5	retour	Fréquent	167	6
gamin	Rare	27	5	route	Fréquent	472	5
garçon	Fréquent	618	6	salade	Fréquent	326	6
gifle	Rare	8	5	samedi	Fréquent	141	6
givre	Rare	11	5	sapin	Fréquent	232	5
glace	Fréquent	398	5	séjour	Rare	13	6
gorge	Rare	4	5	simple	Rare	11	6
jardin	Fréquent	1107	6	soirée	Rare	16	6
jouet	Fréquent	250	5	soleil	Fréquent	599	6

lapin	Fréquent	483	5	souci	Rare	24	5
lavage	Rare	4	6	sucre	Fréquent	308	5
laveur	Rare	9	6	table	Fréquent	499	5
leçon	Fréquent	123	5	talon	Rare	25	5
légume	Fréquent	195	6	tarif	Rare	23	5
lèvre	Rare	29	5	tarte	Fréquent	258	5
limace	Rare	22	6	vache	Fréquent	213	5
livre	Fréquent	775	5	venir	Fréquent	1159	5
maçon	Rare	11	5	virage	Rare	23	6
madame	Fréquent	304	6	voisin	Fréquent	183	6
maître	Fréquent	525	6	volcan	Rare	12	6
malade	Rare	26	6	zèbre	Fréquent	138	5

Notes. U : Occurrences par million définis dans la base de données lexicales pour le CP de Manulex (Lété et al., 2004) ; Taille : Nombre de caractères.

Liste des pseudo-mots

Item	**Taille**	**Item**	**Taille**	**Item**	**Taille**	**Item**	**Taille**
agante	6	curpet	6	lurçom	6	soche	5
aivron	6	daile	5	mable	5	solare	6
andau	5	daire	5	majon	5	sômoie	6
balité	6	dande	5	marole	6	sonfe	5
balmon	6	dappe	5	miano	5	sonto	5
balta	5	darpe	5	modan	5	sopon	5
banze	5	datoir	6	monle	5	soque	5
bereur	6	dirche	6	mulare	6	stipe	5
birade	6	ducle	5	mulide	6	sulche	6
birde	5	dumari	6	naile	5	tagin	5
boder	5	famire	6	napli	5	tandir	6
boile	5	ficopo	6	norche	6	tanèpe	6
bonge	5	filore	6	nupane	6	teuron	6
borate	6	firole	6	palore	6	tilba	5
bracho	6	frame	5	panfe	5	tillos	6
bucobe	6	frile	5	penfe	5	tirbul	6
bunne	5	fudin	5	pilpe	5	toucir	6
caldon	6	fuile	5	pline	5	trane	5
calgé	5	furpe	5	ploime	6	trège	5
canou	5	glain	5	plour	5	trepo	5
carile	6	golite	6	ponfe	5	tulba	5
casine	6	gonste	6	porode	6	turave	6
châlin	6	guire	5	poulan	6	turche	6
chompe	6	hupidé	6	priche	6	tutipe	6
cirate	6	linou	5	pronte	6	vique	5
cirpe	5	linte	5	pucle	5	vonde	5
clupot	6	loipe	5	qonche	6	vonge	5
conto	5	lorper	6	ruldon	6	vonsir	6
copage	6	lotate	6	rupout	6	vorile	6
crale	5	ludoue	6	siche	5	vulle	5

Notes. Taille : Nombre de caractères.

RÉSUMÉ

Implication des processus perceptifs, visuo-attentionnels et oculomoteurs dans les difficultés d'apprentissage de la lecture chez les enfants atteints de neurofibromatose de type 1

La neurofibromatose de type 1 (NF1) est une maladie neurogénétique qui affecte environ une naissance sur 2 500 et dans laquelle près de la moitié des enfants présentent des difficultés d'apprentissage de la lecture. Une question centrale dans la NF1 est celle des processus cognitifs impliqués dans cette forte prévalence des difficultés de lecture, ces dernières pouvant avoir d'importantes répercussions sur la scolarité et la qualité de vie des enfants. La littérature s'accorde sur la contribution déterminante des déficits de conscience phonologique pour expliquer ces difficultés. Mais la lecture dépend également des contraintes du système visuel nécessitant le développement de capacités visuo-attentionnelles spécifiques, comme l'orientation de l'attention, le contrôle des mouvements des yeux, ou encore le déploiement du focus attentionnel. Après avoir réalisé une revue systématique des études évaluant les processus visuels dans la NF1, nous avons mené trois études afin d'examiner le rôle des processus perceptifs, visuo-attentionnels et oculomoteurs dans la genèse des difficultés de lecture fréquemment rapportées dans cette population : deux études transversales auprès de 16 enfants de 6 à 9 ans et de 42 enfants de 8 à 12 ans, et une étude longitudinale suivant 8 enfants de la maternelle jusqu'au CP. Les résultats de ces études nous ont permis de mettre en lumière le lien entre ces processus visuels et les aptitudes de lecture, les profils neuropsychologiques des enfants présentant une NF1 isolée ou avec un déficit de lecture comorbide étant différents. Les enfants NF1 avec des difficultés de lecture associées présentaient plus fréquemment un déficit des processus visuels. Ils utilisaient des stratégies de programmation saccadique immatures, comparables à celles observées chez les lecteurs débutants et dyslexiques, et se sont révélés sensibles à un outil d'aide à l'automatisation de la lecture favorisant la précision de la programmation saccadique. Les enfants NF1 sans difficulté de lecture présentaient quant à eux un fort déficit d'inhibition cognitive et pour 1/3 d'entre eux un comportement oculaire erratique. L'influence des facteurs environnementaux sur la trajectoire développementale des enfants constitue un élément plausible pour expliquer les différences de profils cliniques. Ce travail de thèse apporte ainsi de nouvelles pistes pour la pratique clinique dans le dépistage et la prise en charge des difficultés de lecture des enfants atteints de cette maladie.

Mots clés : *Neurofibromatose de type 1 ; Apprentissage de la lecture ; Processus perceptifs et visuo-attentionnels ; Contrôle oculaire ; Dépistage et remédiation.*

ABSTRACT

Implication of perceptual, visuo-attentional, and oculomotor processes in the learning-to-read deficits experienced by children with neurofibromatosis type 1

Neurofibromatosis type 1 (NF1) is a neurogenetic disorder affecting approximately one in 2,500 births, and in which nearly half of children experience reading difficulties. One important issue in NF1 relates to the cognitive processes involved in the high prevalence of reading difficulties, as these can significantly impact children's schooling and quality of life. In the literature, a clear consensus is established regarding the contribution of phonological awareness deficits to these difficulties. However, reading also depends on the limitations of the visual system. Thus, this requires the development of specific visuo-attentional skills, such as the orientation of attention, the control of eye movements and, the deployment of attentional focus. In this context, after performing a systematic review of studies assessing visual processes in NF1, we conducted three studies to examine the role of perceptual, visual-attentional and oculomotor processes in the development of reading difficulties frequently observed in this population. More specifically, two cross-sectional studies of 16 children from 6 to 9 years old and 42 children from 8 to 12 years old, and one longitudinal study following 8 children from kindergarten to first grade were carried out. The results of these studies provided insight into the relationship between these visual processes and reading skills, as the neuropsychological profiles of children with NF1 alone and with comorbid reading deficits were different. NF1 children with comorbid reading difficulties presented more frequent deficits in the visual processes than children without difficulties. They used immature saccadic programming strategies like those used by beginning readers and dyslexics and were particularly sensitive to a reading automation tool that promoted accurate saccadic computation. NF1 children without reading deficits presented a strong cognitive inhibition deficit and for 1/3 of them erratic eye-movement behaviour. The influence of environmental factors on the developmental trajectory of children provides a plausible explanation for the differences observed in clinical profiles. This thesis thus provides new leads for clinical practice in the screening and management of reading deficits in children suffering from this disease.

Keywords: *Neurofibromatosis type 1; Reading acquisition; Perceptual and visuo-attentional processes; Eye-movement control; Clinical screening and remediation.*