

PETITE
ENFANCE

SURVEILLANCE DES TROUBLES CAUSÉS PAR L'ALCOOLISATION FŒTALE: ANALYSE DES DONNÉES DU PROGRAMME DE MÉDICALISATION DES SYSTÈMES D'INFORMATION EN FRANCE ENTRE 2006 ET 2013

POINTS CLÉS :

- Entre 2006 et 2013, 3 207 enfants ont, lors de leur séjour hospitalier, eu un diagnostic pour troubles causés par l'alcoolisation fœtale (TCAF) durant la période néonatale, soit 0,48 cas pour 1 000 naissances, incluant 0,07 cas de syndrome d'alcoolisation fœtale (SAF) pour 1 000 naissances.
- Au niveau régional, la proportion d'enfants diagnostiqués pour TCAF était plus fréquente à La Réunion (1,22‰), en Haute-Normandie (1,02‰), en Champagne-Ardenne (0,90‰), et dans le Nord-Pas-de-Calais (0,90‰).
- On observait, entre les périodes 2006-2009 et 2010-2013, une diminution significative du nombre d'enfants diagnostiqués pour un SAF mais une augmentation du nombre des autres conséquences liées à une alcoolisation fœtale (aCAF).
- Ces résultats sous-estiment l'importance des TCAF, notamment du fait de la difficulté à repérer les enfants présentant de tels troubles et de l'absence de données au delà de la période néonatale.
- Ces résultats sont difficilement comparables avec les études françaises antérieures car les méthodologies sont différentes : ici, l'étape du codage hospitalier ajoute probablement un niveau de sous-estimation supplémentaire, qui peut être variable selon les régions.

INTRODUCTION

Bien que les ventes de boissons alcoolisées aient diminué de près de moitié depuis 1960 en France [1], la prévalence des épisodes d'alcoolisation ponctuelle importante (API, correspondant au fait d'avoir bu 6 verres ou plus en une seule occasion) est de plus en plus répandue, notamment chez les jeunes filles [2]. En 2010, entre 3% et 7% (selon le groupe d'âge) des femmes âgées de 15 à 44 ans avaient une consommation d'alcool jugée à risque chronique ou de dépendance selon l'Audit-C [3]. Chez les femmes enceintes plus spécifiquement, dans l'Enquête nationale périnatale de 2010, 3,2% déclaraient avoir consommé de l'alcool avant de se savoir enceinte, 17,2% rapportaient une consommation durant la grossesse inférieure ou égale à une fois par mois et 2,5% plus d'une fois par mois [4].

Pourtant, l'alcool est un agent tératogène et fœto-toxique connu. Sa consommation durant la grossesse a été associée à un risque accru de prématurité, de retard de croissance intra-utérine mais également au risque de perte fœtale et de naissance d'un enfant mort-né [5]. Les répercussions cliniques d'une exposition prénatale à l'alcool se répartissent selon un continuum de gravité. Dans les cas les plus sévères, les enfants naissent avec un syndrome d'alcoolisation fœtale caractérisé (SAF) [6]. Ils présentent alors des anomalies physiques (dysmorphie craniofaciale, retard de croissance, malformations) et neuro-développementales (retard mental, déficit de l'attention, problèmes de mémoire, difficultés d'apprentissage...) qui relèvent du handicap. Ainsi, le SAF est la première cause de handicap mental non génétique à

la naissance et d'inadaptation sociale de l'enfant et il est entièrement évitable [7]. Les enfants qui souffrent de formes non syndromiques, présentent fréquemment des troubles d'apprentissage et d'adaptation sociale [8]. Les études internationales rapportent qu'en moyenne, les formes plus mineures seraient 10 fois plus fréquentes que le SAF [9].

Malgré l'impact sanitaire et social de ces affections, aucune étude en France ne permettait d'évaluer l'importance du SAF ni des aCAF (autres conséquences de l'alcoolisation foetale) au niveau national. En effet, les rares études menées en France sur le sujet étaient locales [10,11,12]. Ainsi l'objectif de cette étude était de décrire la fréquence des codes associés à un SAF ou aCAF dans les séjours hospitaliers des enfants durant la période néonatale aux niveaux national et régional. Les données d'hospitalisations du Programme de médicalisation des systèmes d'information en médecine, chirurgie et obstétrique (PMSI-MCO) présentent en effet l'avantage de couvrir l'intégralité du territoire français et permettent ainsi des comparaisons régionales.

MATÉRIELS ET MÉTHODES

Sources de données

Les données d'hospitalisation de France métropolitaine et des départements et régions d'outre-mer (DROM, hors Mayotte) ont été extraites des bases nationales du PMSI-MCO pour les années 2006 à 2013. Cette base de données inclut l'ensemble des séjours hospitaliers qui se sont déroulés dans un établissement français aussi bien public que privé. Chaque séjour fait l'objet d'un résumé de sortie anonyme (RSA) comportant des données administratives telles que l'âge, le sexe, le mode d'entrée et de sortie, le département de résidence du patient, et des informations médicales incluant le diagnostic principal (DP) et les diagnostics associés (DAS) et reliés (DR), codés selon la classification internationale des maladies, dixième révision (CIM- 10) [13].

Sélection des séjours

Pour chaque année, nous avons identifié les RSA des séjours survenus durant la période néonatale (c'est-à-dire entre la naissance et les 28 premiers jours de vie) dont le DP ou le DAS incluait un des codes suivants : Q860 (Syndrome d'alcoolisme foetal avec dysmorphie) ou P043 (Fœtus et nouveau-né affectés par l'alcoolisme de la mère). La restriction aux hospitalisations de la période néonatale s'explique par le fait que l'objectif de l'étude était

de décrire la fréquence des codes TCAF à la naissance ou lors d'un éventuel transfert. Lorsque l'enfant avait eu plusieurs séjours comportant un de ces codes dans la période néonatale, seul le premier séjour était retenu.

Nous avons défini trois groupes :

- 1/ le SAF pour syndrome d'alcoolisation foetale correspondant aux enfants ayant un DP ou un DA codés Q860,
- 2/ le groupe aCAF pour autres conséquences de l'alcoolisation foetale incluant les enfants ayant uniquement P043 comme code de diagnostic et
- 3/ le groupe TCAF, regroupant les SAF et aCAF : ensemble des troubles en contexte d'alcoolisation foetale, c'est à dire aussi bien les enfants diagnostiqués Q860 que P043.

Les caractéristiques de l'enfant présentant un code diagnostique de SAF ou aCAF, telles le sexe, le poids de l'enfant, le statut vital, l'âge lors du premier séjour, la région de domicile de l'enfant, ont également été extraites du PMSI-MCO.

Analyses statistiques

Pour chaque groupe pathologique, le nombre de cas enregistrés a été présenté annuellement entre 2006 et 2013 et leurs caractéristiques décrites. La fréquence des codes « SAF » et « aCAF » enregistrés a ensuite été estimée à partir du nombre de cas dans chaque groupe pathologique rapporté au nombre de naissances vivantes édité par l'Insee à partir des bulletins statistiques de l'état civil [14]. La fréquence des codes est exprimée pour 1 000 naissances vivantes. Elle a été calculée aux niveaux national et régional pour la période 2006-2013 pour l'ensemble des TCAF. Les évolutions temporelles de ces fréquences ont été étudiées en comparant deux périodes : 2006-2009 et 2010-2013 et en distinguant les SAF et les aCAF. Les intervalles de confiances à 95% ont tous été calculés en se basant sur la loi de Poisson pour tenir compte du faible nombre d'événements. Ces fréquences ont été comparées en retenant une p-value<0.05. Les données ont été analysées à l'aide du logiciel « SAS Entreprise guide 4.3 ».

RÉSULTATS

Identification des enfants porteurs de SAF, aCAF et TCAF et leurs caractéristiques

Au cours de la période 2006-2013, le code diagnostique relatif au SAF a été retrouvé chez 452 nouveaux-nés,

celui relatif à l'aCAF chez 2 755 ; soit au total, 3 207 enfants présentant au moins un code correspondant au groupe TCAF (Tableau 1).

Parmi les TCAF, 49,9% étaient des filles. Le poids des enfants était plus faible chez les enfants présentant un code relatif au SAF (médiane : 2 070 grammes [1 680-2 500] vs 2 560 grammes [2 050-3 020] pour les codes aCAF). La majorité des enfants de notre étude était diagnostiquée à la naissance : 3,4% des TCAF avaient un âge au diagnostic supérieur ou égal à deux jours sur la période néonatale (Tableau 2).

Fréquence des codes enregistrés aux niveaux national et régional des SAF/aCAF/TCAF sur l'ensemble de la période d'étude

Au niveau national, la fréquence des codes relatifs aux TCAF sur la période 2006-2013 était de 0,48 cas pour 1 000 naissances incluant celle des codes relatifs au SAF, qui était de 0,07 cas pour 1 000 naissances vivantes, et celle des aCAF qui était de 0,41 cas pour 1 000.

Concernant le diagnostic du SAF, les régions présentant les enregistrements les plus fréquents étaient La Réunion, avec 0,36 cas de SAF pour 1 000 naissances, soit plus de cinq fois le taux national, la Haute-Normandie et le Nord-Pas-de-Calais (0,21 cas/1 000 naissances pour chacune des deux régions). Deux régions (Corse et Franche-Comté) n'ont déclaré aucun cas. Une prévalence très faible de 0,01 code SAF/1 000 naissances est rapportée dans la région des Pays de la Loire, soit sept fois moins que le taux national (Tableau 3).

Concernant les codes aCAF, on retrouvait une fréquence plus importante à La Réunion (0,86 code aCAF/1 000 nais.), en Champagne-Ardenne (0,83 code aCAF/1 000 nais.) et en Haute-Normandie (0,81 code aCAF/1 000 nais.) (Tableau 4).

Globalement, en combinant SAF et aCAF, les diagnostics TCAF étaient le plus fréquemment enregistrés à La Réunion (1,22 codes TCAF/1 000 nais.), en Haute-Normandie (1,02 codes TCAF/1 000 nais.), en Champagne-Ardenne et en Nord - Pas-de-Calais (0,90 codes TCAF/1 000 nais. pour chacune des deux régions) (Figure 1).

TABLEAU 1 | Nombre d'enfants ayant eu un séjour avec un code relatif aux troubles en contexte d'alcoolisation fœtale (TCAF*), données du PMSI. France entière hors Mayotte, 2006-2013

ANNÉE DU SÉJOUR	2006	2007	2008	2009	2010	2011	2012	2013	TOTAL 2006-2013
Nombre des naissances vivantes									
Code Q860 (SAF)	67	65	71	59	41	59	46	44	452
Code P043 (aCAF)	278	326	370	353	341	337	355	395	2 755
Codes P043 ou Q860 (TCAF)	345	391	441	412	382	396	401	439	3 207

*Inclut les « SAF » (Q860: Syndrome d'alcoolisme fœtal avec dysmorphie) et les « autres conséquences de l'alcoolisation fœtale » (aCAF, P043 : Fœtus et nouveau-né affectés par l'alcoolisme de la mère).

TABLEAU 2 | Caractéristiques des enfants présentant des codes de diagnostics relatifs au SAF, aCAF et TCAF, données du PMSI. France entière hors Mayotte, 2006-2013

CARACTÉRISTIQUES DE L'ENFANT	SAF - CODE Q860 (N=452)	ACAF - CODE P043 (N=2 755)	TCAF - CODES Q860 OU P043 (N=3 207)
	N (%) OU MÉDIANE [Q25-Q75]		
Sexe (Fille)	212 (46,9%)	1 387 (50,3%)	1 599 (49,9%)
Poids de l'enfant (gr)	2 070 [1 680-2 500]	2 560 [2 050-3 020]	2 490 [1 990-2 980]
Âge au diagnostic (jours)			
0	409 (90,5%)	2 629 (95,4%)	3 038 (94,7%)
1	15 (3,3%)	43 (1,6%)	58 (1,8%)
2-7	10 (2,1%)	39 (1,4%)	49 (1,5%)
8 jours et plus	18 (4,0%)	44 (1,6%)	62 (1,9%)

TABLEAU 3 | Évolution de la fréquence des codes de diagnostics relatifs au SAF (code Q860), données du PMSI. France entière hors Mayotte, 2006-2013

RÉGION	FRÉQUENCES DES CAS DE SAF ENREGISTRÉS (‰)			TAUX DE VARIATION (%)	RAPPORT DE PRÉVALENCE	P
	2006-2009	2010-2013	TOTAL			
Alsace	0,17	0,16	0,16	-5,4	0,946	0,88
Aquitaine	0,12	0,03	0,08	-76,6	0,234	0,01
Auvergne	0,09	0,29	0,19	225,4	3,254	0,02
Basse-Normandie	0,07	0,06	0,07	-15,8	0,842	0,80
Bourgogne	0,01	0,06	0,04	311,7	4,117	0,21
Bretagne	0,03	0,05	0,04	63,9	1,639	0,39
Centre	0,09	0,04	0,07	-54,1	0,459	0,15
Champagne-Ardenne	0,08	0,06	0,07	-17,2	0,828	0,78
Corse	0	0	0	-	-	-
Franche-Comté	0	0	0	-	-	-
Guadeloupe	0,04	0,10	0,07	132,9	2,329	0,49
Guyane	0	0,08	0,04	-	-	-
Haute-Normandie	0,34	0,08	0,21	-75,0	0,250	<0,001
Île-de-France	0,03	0,03	0,03	8,1	1,081	0,79
La Réunion	0,36	0,35	0,36	-1,4	0,986	0,96
Languedoc-Roussillon	0,06	0,04	0,05	-29,9	0,701	0,55
Limousin	0,10	0,04	0,07	-65,6	0,344	0,36
Lorraine	0,07	0,04	0,06	-48,0	0,520	0,29
Martinique	0	0,06	0,03	-	-	-
Midi-Pyrénées	0,05	0,01	0,03	-83,6	0,164	0,09
Nord - Pas-de-Calais	0,25	0,17	0,21	-33,4	0,666	0,06
Pays de la Loire	0,01	0,02	0,01	203,3	3,033	0,34
Picardie	0,15	0,03	0,09	-79,7	0,203	0,01
Poitou-Charentes	0,09	0,08	0,09	-12,8	0,872	0,81
Provence - Alpes - Côte d'Azur	0,03	0,02	0,03	-30,4	0,696	0,54
Rhône-Alpes	0,03	0,02	0,02	-23,8	0,762	0,59
TOTAL GÉNÉRAL	0,08	0,06	0,07	-27,0	0,730	0,001

Évolution temporelle de la fréquence des codes relatifs aux SAF/aCAF/TCAF entre les périodes 2006-2009 et 2010-2013

L'analyse de l'évolution nationale de la fréquence des codes relatifs aux TCAF entre 2006-2009 (0,48/1 000 naissances) et 2010-2013 (0,49/1 000 naissances) suggérerait une stabilité entre les deux périodes, la différence de fréquence étant non significative ($p=0,6$). Ainsi, en 2006-2009, le nombre de codes TCAF était de 1 577, soit une moyenne annuelle de 394 alors que pour 2010-2013, ce nombre était de 1 603 soit 401 cas annuels moyens.

Cependant, l'analyse distincte des codes SAF et aCAF suggérerait, elle, deux dynamiques d'évolution différentes. On observait d'une part, au niveau national, une diminution significative ($p<0,001$) du nombre d'enfants dont le séjour comportait un code relatif au

SAF entre 2006-2009 et 2010-2013, correspondant à une moyenne de 65 cas codés annuellement (soit 0,08 code SAF/1 000 naissances) sur la période 2006-2009 et de 47 cas en 2010-2013 (soit 0,06 code SAF pour 1 000 naissances) (Tableau 3). Cette tendance était plus accentuée en Haute-Normandie avec un total de 32 enfants dont le séjour comportait un code relatif au SAF en 2006-2009 (soit 8 cas annuels moyens) et de 8 cas (soit 2 cas annuels moyens) en 2010-2013 (0,34 à 0,08 SAF/1 000 nais.), ou encore en Picardie et en Aquitaine. L'Auvergne présentait un taux en augmentation de 0,09/1 000 naissances en 2006-2009 à 0,29 en 2010-2013 (Tableau 3).

A contrario, on observait au niveau national une augmentation significative ($p<0,05$) du nombre d'aCAF au cours du temps. Le nombre de codes aCAF variait de 1 317 en 2006-2009 (329 cas annuels moyens) à 1 414 (354 cas annuels moyens) en 2010-2013, soit une augmentation de 0,40 à 0,43 aCAF pour 1 000

TABEAU 4 | Évolution de la fréquence codes de diagnostics relatifs aux autres conséquences de l'alcoolisation foetale (code P043), données du PMSI. France entière hors Mayotte, 2006-2013

RÉGION	FRÉQUENCES DES CAS DE ACAF ENREGISTRÉS (‰)			TAUX DE VARIATION (%)	RAPPORT DE PRÉVALENCE	P
	2006-2009	2010-2013	TOTAL			
Alsace	0,66	0,52	0,59	-21,0	0,790	0,23
Aquitaine	0,38	0,34	0,36	-10,2	0,898	0,59
Auvergne	0,59	0,55	0,57	-7,6	0,924	0,76
Basse-Normandie	0,41	0,51	0,46	24,0	1,240	0,40
Bourgogne	0,35	0,30	0,33	-13,5	0,865	0,62
Bretagne	0,39	0,56	0,47	44,9	1,449	0,03
Centre	0,79	0,54	0,67	-31,6	0,684	0,02
Champagne-Ardenne	0,77	0,89	0,83	15,9	1,159	0,45
Corse	0,17	0,17	0,17	-3,4	0,966	0,97
Franche-Comté	0,39	0,43	0,41	9,2	1,092	0,76
Guadeloupe	0,16	1,14	0,62	598,8	6,988	<0,001
Guyane	0,16	0,35	0,26	121,9	2,219	0,19
Haute-Normandie	1,04	0,58	0,81	-44,0	0,560	0,00
Île-de-France	0,26	0,29	0,27	11,1	1,111	0,30
La Réunion	0,80	0,92	0,86	14,5	1,145	0,50
Languedoc-Roussillon	0,57	0,64	0,61	11,0	1,110	0,53
Limousin	0,17	0,54	0,35	209,8	3,098	0,03
Lorraine	0,63	0,82	0,72	30,0	1,300	0,11
Martinique	0,09	0,11	0,10	18,1	1,181	0,87
Midi-Pyrénées	0,19	0,41	0,30	117,0	2,170	0,00
Nord - Pas-de-Calais	0,62	0,77	0,70	24,5	1,245	0,05
Pays de la Loire	0,23	0,31	0,27	34,8	1,348	0,14
Picardie	0,39	0,26	0,33	-32,4	0,676	0,12
Poitou-Charentes	0,52	0,33	0,43	-37,4	0,626	0,07
Provence – Alpes – Côte d'Azur	0,25	0,34	0,29	36,8	1,368	0,07
Rhône-Alpes	0,20	0,20	0,20	-0,6	0,994	0,97
TOTAL GÉNÉRAL	0,40	0,43	0,41	7,8	1,078	0,05

naissances ($p < 0,05$) (Tableau 4). L'augmentation de la fréquence de ces codes semblait plus particulièrement importante en Guadeloupe (de 0,16/1 000 naissances en 2006-2009 à 1,14 en 2010-2013) et dans le Limousin (de 0,17/1 000 naissances à 0,54).

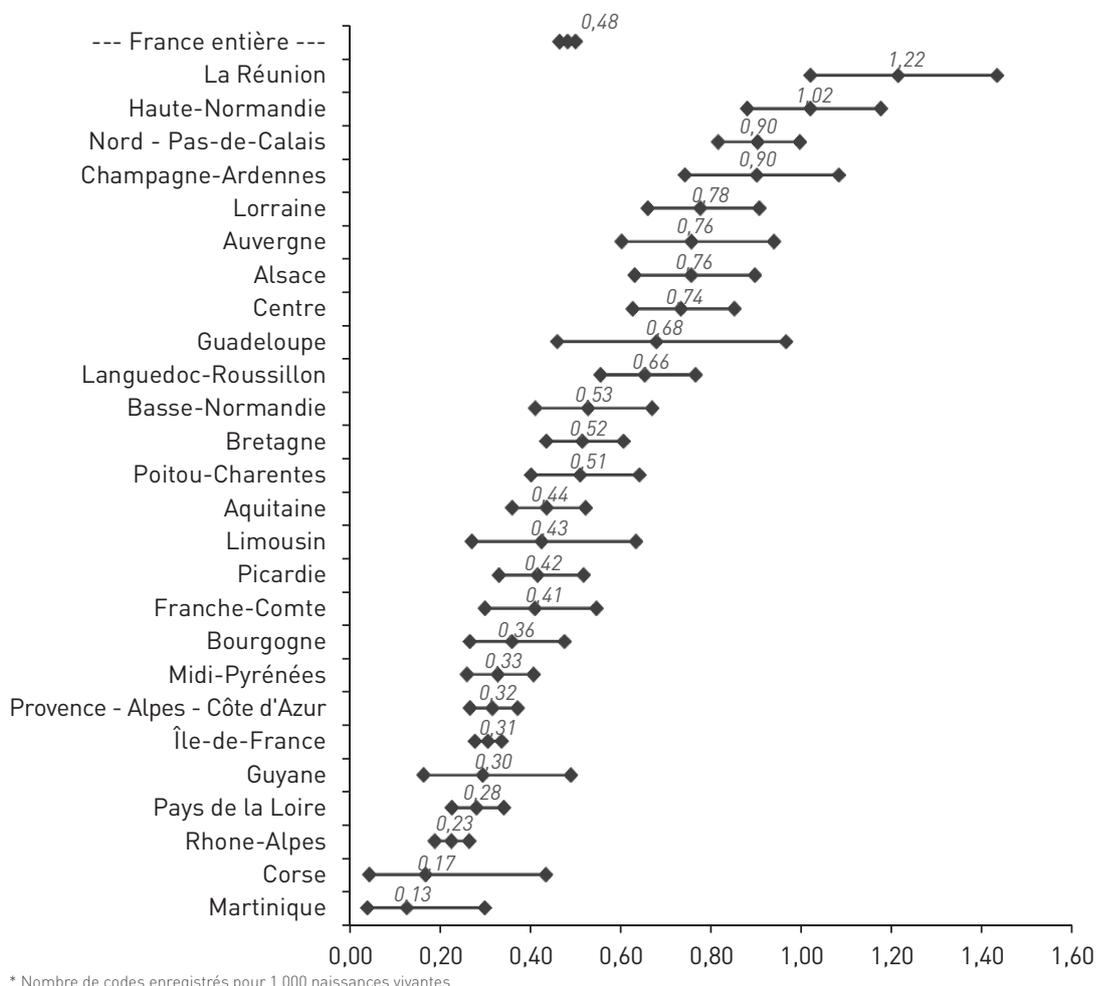
DISCUSSION

Sur la période 2006 et 2013, la fréquence des codes enregistrés correspondant à des troubles causés par l'alcoolisation foetale était égale à 0,49 pour 1 000 naissances dont 0,07‰ correspondaient à des codes relatifs au SAF et 0,41‰ à des codes relatifs aux autres conséquences de l'alcoolisation foetale. La comparaison des deux périodes 2006-2009 et 2010-2013 montrait une tendance significative à la diminution des cas présentant des codes relatifs au SAF et une tendance à l'augmentation des codes d'ACAF. Du fait de ces deux dynamiques inverses,

notre estimation de la fréquence des codes correspondant au groupe TCAF restait, elle, stable entre les deux périodes d'étude.

Des estimations de la prévalence du SAF en Europe

Une méta-analyse publiée en 2017 par Popova *et al.* [9] a estimé la prévalence de la consommation d'alcool pendant la grossesse, quelle que soit la quantité d'alcool consommée, à 9,8% au niveau mondial et la prévalence du SAF à près de 1,5 cas pour 1 000 naissances. Cependant, cette estimation globale recouvre des situations extrêmement différentes, allant de zones où la consommation d'alcool et la prévalence du SAF sont extrêmement faibles, tel le Moyen-Orient (0,02 pour 1 000 naissances) à d'autres zones où l'alcoolisation des femmes est un problème majeur de santé publique. La région Europe, qui dans ce travail s'étend jusqu'à la Biélorussie et

FIGURE 1 | Fréquence* des codes de diagnostics signant une alcoolisation foetale incluant les SAF (codes Q860) et les autres conséquences de l'alcoolisation foetale (aCAF, P043) par régions, données du PMSI. France entière hors Mayotte, 2006-2013

l'Ukraine, présente la prévalence la plus élevée au niveau mondial à la fois de consommation d'alcool durant la grossesse (25,2%) et de SAF (3,7 pour 1 000 naissances), le taux estimé pour la France étant de 4 pour 1 000 naissances. Cette estimation repose toutefois sur peu de données disponibles, notamment des données de La Réunion où la prévalence est particulièrement élevée ou d'autres données localisées, anciennes et sur de faibles effectifs. Cela explique la forte imprécision de cette estimation avec un large intervalle de confiance (0,0 - 11,1). Les estimations élevées observées en France et dans d'autres pays européens et les disparités entre pays ne s'expliquent pas seulement par une consommation d'alcool plus importante mais également par la variabilité des critères de diagnostic utilisés, par la capacité du système de santé à repérer ces SAF et par le type de système de surveillance en place [15]).

Une prévalence du SAF très probablement sous-estimée

Aucune étude antérieure n'avait été réalisée à l'échelon national en France. Les quelques études effectuées dans des territoires français spécifiques [10, 11,12], bien qu'ayant produit des estimations très variables, suggèrent une prévalence globalement plus élevée que celle observée ou estimée dans notre étude. Ceci s'explique par la combinaison de plusieurs facteurs. D'une part, notre étude s'appuie sur une source de surveillance « passive », le PMSI-MCO, créée initialement à des fins de suivi de l'activité hospitalière, qui comprend pour chaque année l'ensemble des séjours ayant eu lieu sur le territoire français. A contrario, les études antérieures ont utilisé une approche plus active avec retour aux dossiers médicaux. Or, comme le soulignent Germanaud et Toutain [15], la sous-estimation des taux de prévalence est

toujours plus importante lorsque des systèmes de surveillance passifs sont utilisés.

Notre étude est centrée sur la naissance et le premier mois de vie. Or, du fait de la difficulté à connaître et à caractériser l'exposition prénatale à l'alcool, le diagnostic de SAF n'est pas toujours posé à cet âge. De plus, lorsqu'il s'agit de formes incomplètes certains symptômes, en particulier développementaux, n'apparaissent que dans les années suivant la naissance. Ainsi, le diagnostic peut n'être posé que plus tard, en particulier lors de la scolarité pour ce qui concerne les troubles des apprentissages. D'autre part, même en cas de suspicion, le soignant peut ne pas faire figurer les codes de diagnostics correspondants dans le PMSI.

Des disparités régionales de survenue des TCAF

Nos résultats mettent en évidence des disparités importantes qui ont déjà été suggérées dans des études antérieures. L'étude de Bloch and coll., réalisée dans cinq départements français en 2006 et 2007, mais suivant une autre méthodologie, avait estimé des taux de prévalence du SAF qui variaient fortement d'un département à l'autre et d'une année à l'autre [10]. En Alsace, elle avait observé une prévalence de 0,53‰ (0,25-0,97). Nous trouvons dans cette même région, une fréquence des codes SAF de 0,16‰. Dans le Rhône, la prévalence était de 0,06‰ proche de la fréquence des codes retrouvée dans notre étude qui était de 0,02‰ (0,01-0,18). En revanche, la prévalence du SAF montrée par Dehaene en 1991 dans une maternité de Haute-Normandie était bien supérieure à la nôtre (1,2‰ vs 0,21‰) [11]. Une autre étude a été réalisée dans des maternités d'Auvergne et a révélé un taux de prévalence du SAF de 1,8‰ alors que notre étude montrait une fréquence de codage de 0,18‰ [12]. La variation de fréquence des codes SAF et aCAF d'une région à l'autre peut suggérer de véritables disparités territoriales d'exposition. L'expertise collective de l'Inserm « Alcool, effets sur la santé », publiée en 2001 [6], avait, de plus, déjà indiqué une incidence plus élevée de SAF sur l'île de La Réunion, dans le Nord-Pas-de-Calais et en Normandie. Ces disparités pourraient également refléter des pratiques régionales de diagnostic et de codage différenciées. Ceci pourrait être dû à des différences en termes d'investissement et de formation des professionnels de santé dans le diagnostic. Ceci s'explique souvent par un contexte historique local-régional particulier, notamment dans les régions où les soignants ont déjà dû diagnostiquer ou prendre en charge ce type de cas [15] et sont sensibilisés à cette problématique. Ainsi, dans plusieurs régions avec un fort taux historique d'enfants porteurs de SAF, on

observe la mise en place d'actions spécifiques régionales (Haute-Normandie [16]), en particulier la mise en place d'étude de repérage du SAF (Bretagne ou Auvergne [17]), ou encore la mise en place d'une structure spécialisée dans le repérage et le suivi de cette pathologie (La Réunion et Aquitaine) qui favorise de fait l'identification et l'enregistrement des cas.

Des tendances opposées dans l'évolution de la fréquence des codes SAF et aCAF

Les évolutions que nous montrons peuvent correspondre à de véritables variations dans la fréquence des cas si l'on fait l'hypothèse forte que les pratiques de codage sont restées relativement stables sur la période d'étude. Une telle évolution n'a pas été documentée et aucune étude nationale ne permet de corroborer ou d'infirmer nos résultats. Cependant, la diminution de la fréquence des codes correspondants à des formes complètes ou sévères depuis le début des années 1990 a été rapportée dans deux articles américains [18,19]. Dans notre étude également, la fréquence des codes SAF est en diminution entre les deux périodes étudiées. Cependant, à l'heure actuelle, aucun élément ne permet de déterminer si l'augmentation relative des codes aCAF en France pourrait être expliquée par une amélioration des pratiques de diagnostic ou être liée à des évolutions des comportements d'alcoolisation maternelle.

Consommation d'alcool des femmes enceintes en France : des estimations très variables

La consommation d'alcool des femmes enceintes et l'évolution au cours du temps de ces consommations restent difficiles à estimer. Dans l'enquête nationale périnatale de 2010, 23% des femmes interrogées déclaraient avoir consommé de l'alcool durant la grossesse [4]. Dans la revue de Popova et coll. précédemment citée, la consommation d'alcool durant la grossesse (quelle que soit la quantité) en France, était estimée à 27% (IC 95% : [13,5%-43,0%]) [9]. Dans une synthèse de la littérature datant de 2014, Dumas et coll. présentent l'ensemble des études portant sur la consommation d'alcool des femmes réalisées en France entre 2001 et 2010. Ces études rapportaient des taux très variables allant de 12,2% à 63,0% de femmes ayant consommé de l'alcool au moins une fois durant la grossesse [20]. Dans l'enquête Baromètre santé 2017, parmi les mères d'enfant de cinq ans ou moins, 11,7% (IC [9,9%-13,8%]) déclaraient avoir consommé de l'alcool au cours de leur dernière grossesse : 10,7% déclaraient l'avoir fait uniquement pour les grandes occasions, moins d'1% déclaraient avoir consommé plus d'une fois

par mois mais moins d'une fois par semaine et enfin, moins d'1% également déclaraient avoir consommé de l'alcool une fois par semaine ou plus [21].

Consommation d'alcool des femmes enceintes en France : le problème de la sous-déclaration

La grande variabilité des estimations issues de ces différentes études s'explique par des différences méthodologiques, qu'il s'agisse de l'échelon (national versus local), de l'effectif, ou du mode et des instruments de recueil des données. Le mode de recueil est très important dans un contexte où les femmes sont amenées à sous-déclarer leur consommation pour des raisons de désirabilité sociale. Cette sous-déclaration de la consommation d'alcool durant la grossesse est bien décrite et a été confirmée par la confrontation de données biologiques (méconium, cheveux) et de données déclaratives. Ainsi, une étude récente menée sur 153 femmes à l'accouchement en Espagne montre que seulement 2,6% des femmes déclarent avoir consommé de l'alcool plus d'une fois durant la grossesse, alors que l'analyse de l'éthylglucuronide dans leurs cheveux suggère que 63% ont en réalité eu une consommation non négligeable d'alcool et 2% une consommation excessive [22].

En ce qui concerne la population générale, la comparaison des quantités d'alcool que déclarent consommer les personnes interrogées dans les enquêtes aux quantités d'alcool effectivement mises sur le marché suggère une forte sous-déclaration (d'un facteur multiplicatif situé entre deux et trois) [23,24]. L'ampleur de la sous-déclaration dans la période particulière de la grossesse reste à quantifier en France. En effet, les normes sociales relatives à l'alcool variant d'un pays à l'autre, la transposition des estimations peut être limitée. Une enquête de Santé publique France réalisée en 2015 sur les connaissances et la perception des risques de la consommation d'alcool pendant la grossesse a montré que 18% des Français pensaient qu'une femme enceinte peut boire quelques gorgées d'alcool de temps en temps sans prendre de risque pour son bébé ; 37% estimaient que les risques apparaissent pour le bébé seulement à partir d'une consommation quotidienne d'alcool [25].

Parler de l'alcool aux femmes enceintes : un sujet tabou ?

Toute consommation d'alcool pendant la grossesse est susceptible de présenter un risque pour le fœtus pouvant entraîner des malformations, un retard de croissance et des atteintes du système nerveux central irréversibles.

Dans les données de l'ENP 2016 cependant, seules 29,3% des femmes déclaraient avoir reçu la recommandation de ne pas consommer d'alcool pendant la grossesse [26]. Une étude de la Drees auprès des médecins généralistes indique que 61% des médecins généralistes déclarent systématiquement interroger les femmes enceintes sur leur consommation d'alcool et 77% d'entre eux recommandent l'arrêt total de la consommation pendant la grossesse. Cette étude a cependant également montré que 43% considéraient qu'une consommation occasionnelle d'un verre d'alcool est un risque acceptable et 18% que ce niveau de consommation est sans risque pour la grossesse [27]. Dans le Baromètre santé 2017, parmi les mères d'enfant de cinq ans ou moins, 65,2% [IC : [62,2%-68,1%]] ont déclaré que le médecin ou la sage-femme les ayant suivies lors de leur dernière grossesse les avaient informées des répercussions éventuelles de la consommation d'alcool sur la grossesse et sur leur enfant [21].

Forces, limites et perspectives

Ce travail est le premier à produire une estimation nationale avec des déclinaisons régionales de la fréquence des codes relatifs au SAF. En l'absence d'enregistrement systématique des cas, il s'agit donc de la meilleure approche actuellement disponible pour obtenir de l'information sur l'importance du problème. Cependant, elle présente, en plus de la problématique de sous-estimation déjà mentionnée, un certain nombre de limites. Comme dans toute étude réalisée sur les données du PMSI-MCO, il serait utile d'étudier la spécificité et la valeur prédictive du codage du SAF en comparant les codes enregistrés avec les données des registres d'anomalies congénitales ou du handicap dans les régions couvertes. De plus, notre étude repose sur les codes enregistrés dans le séjour d'hospitalisation de l'enfant dans lequel la consommation maternelle d'alcool n'est pas explicitement codée. Une perspective de ce travail serait de chaîner les séjours d'hospitalisation de la mère avant et pendant la grossesse avec ceux de l'enfant pour rechercher les codes relatifs à la consommation d'alcool (en particulier chronique) chez la mère en plus de ceux identifiés chez l'enfant. Notre étude s'est limitée de plus aux hospitalisations ayant eu lieu lors de la période néonatale, c'est-à-dire la naissance et le premier mois de vie, car son objectif était d'estimer la fréquence des codes TCAF à la naissance. Ainsi, les cas diagnostiqués et mentionnés dans des séjours d'hospitalisation ultérieurs n'ont pas été inclus dans cette analyse. Une étude exploratoire réalisée au cours de notre étude montre qu'étendre la période d'inclusion aux hospitalisations durant la première année de vie permettrait d'identifier 5% de cas supplémentaires.

Le chaînage de chacun des séjours de l'enfant après la période néonatale pourrait donc permettre d'identifier des cas supplémentaires. Cependant, il reste qu'une proportion importante des diagnostics après la période néonatale est possiblement posée en dehors d'une hospitalisation et ne figure donc pas dans le PMSI. Ainsi, il serait souhaitable de tester la faisabilité d'un algorithme basé sur les consommations de soins hors hospitalisation à partir des données du Système national des données de santé (SNDS) et d'inclure lorsque qu'elles seront disponibles sur cette plateforme les informations issues des Maisons départementales des personnes handicapées (MDPH). Cependant, seule la mise en place d'une surveillance active, en particulier des études prospectives menées chez les femmes enceintes ou l'identification active

d'enfants porteurs de TCAF dans des populations à risque permettrait d'obtenir une estimation fiable de la prévalence du SAF et des TCAF non syndromiques, mais cette approche est également plus coûteuse. Néanmoins de tels travaux ont un caractère de priorité indéniable au vu des enjeux de santé publique de ces troubles graves qui entravent le développement des enfants exposés à l'alcool pendant la grossesse et de leur caractère évitable.

Les estimations présentées ici sous-estiment très certainement l'importance de ce problème de santé publique. Néanmoins, en l'absence d'enregistrement exhaustif des cas de SAF, elles permettent de mieux caractériser le fardeau que représentent ces troubles.

RÉFÉRENCES BIBLIOGRAPHIQUES

- [1] Richard J-B, Palle C, Guignard R, Romain Guignard, Viet Nguyen-Thanh, François Beck, Pierre Ardwidson. La consommation d'alcool en France en 2014. *Évolutions*. 2015;1-6.
- [2] Beck F, Guignard R, Richard J-B. Usages de drogues et pratiques addictives en France. *Analyses du Baromètre santé 2010 Inpes*. La Documentation française ; 258 p. (Inpes).
- [3] Bradley KA, DeBenedetti AF, Volk RJ, Williams EC, Frank D, Kivlahan DR. AUDIT-C as a brief screen for alcohol misuse in primary care. *Alcohol Clin Exp Res*. juill 2007;31(7):1208-17.
- [4] Saurel-Cubizolles M, Prunet C, Blondel B. Consommation d'Alcool pendant la grossesse et santé périnatale en France en 2010. *BEH*. 2013.
- [5] Patra J, Bakker R, Irving H, Jaddoe VWV, Malini S, Rehm J. Dose-response relationship between alcohol consumption before and during pregnancy and the risks of low birthweight, preterm birth and small for gestational age (SGA)-a systematic review and meta-analyses. *BJOG*. nov 2011;118(12):1411-21.
- [6] Institut national de la santé et de la recherche médicale. *Alcool. Effets sur la santé*. Paris; 2001. (Expertise collective Inserm).
- [7] Nordmann R. Consommation d'alcool, de tabac ou de cannabis au cours de la grossesse. 2004. 519-521 p.
- [8] Haute Autorité de santé. *Troubles causés par l'alcoolisation fœtale: repérage*. 2013.
- [9] Popova S, Lange S, Probst C, Gmel G, Rehm J. Estimation of national, regional, and global prevalence of alcohol use during pregnancy and fetal alcohol syndrome: a systematic review and meta-analysis. *Lancet Glob Health*. 2017;5(3):e290-9.
- [10] Bloch J, Cans C, de Vigan C, de Brosset L, Doray B, Larroque B, *et al*. Faisabilité de la surveillance du syndrome d'alcoolisation fœtale (SAF). *Archives de Pédiatrie*. 1^{er} juin 2008;15(5):507-9.
- [11] Dehaene P, Samaille-Villette C, Boulanger-Fasquelle P, Subtil D, Delahousse G, Crepin G. Diagnosis and prevalence of fetal alcoholism in maternity. *Presse Med*. Juin 1991;20(21):1002.
- [12] de Chazeron I, Llorca P-M, Ughetto S, Vendittelli F, Boussiron D, Sapin V, *et al*. Is pregnancy the time to change alcohol consumption habits in France? *Alcohol Clin Exp Res*. mai 2008;32(5):868-73.
- [13] CIM-10 FR 2018 à usage PMSI | Publication ATIH [Internet]. [cité 19 juill 2018]. Disponible sur: <https://www.atih.sante.fr/cim-10-fr-2018-usage-pmsi>
- [14] Naissances de 2004 à 2016 | Insee [Internet]. [cité 19 juill 2018]. Disponible sur: <https://www.insee.fr/fr/statistiques/1893255>
- [15] Germanaud D, Toutain S. Exposition prénatale à l'alcool et troubles causés par l'alcoolisation fœtale. *Contraste*. 27 nov 2017;46:39-102.

[16] Troubles causés par l'alcoolisation foetale (TCAF) [Internet]. [cité 19 juill 2018]. Disponible sur: <http://www.normandie.ars.sante.fr/troubles-causes-par-lalcoholisation-foetale-tcaf>

[17] Gallot D, de Chazeron I, Boussiron D, Ughetto S, Vendittelli F, Legros FJ, *et al.* Limits of usual biochemical alcohol markers in cord blood at term: a fetal/maternal population-based study. *Clin Chem Lab Med.* 2007;45(4):546-8.

[18] Pan I-J, Yi H. Prevalence of Hospitalized Live Births Affected by Alcohol and Drugs and Parturient Women Diagnosed with Substance Abuse at Liveborn Delivery: United States, 1999–2008. *Matern Child Health J.* mai 2013;17(4):667-76.

[19] Robbins J, M Bird T, M Tilford J, Alex Reading J, Cleves M, Aitken M, *et al.* Reduction in Newborns With Discharge Coding of In Utero Alcohol Effects in the United States, 1993 to 2002. *Archives of pediatrics & adolescent medicine.* 1 janv 2007;160:1224-31.

[20] Dumas A, Simmat-Durand L, Lejeune C. [Pregnancy and substance use in France: a literature review]. *J Gynecol Obstet Biol Reprod (Paris).* nov 2014;43(9):649-56.

[21] Andler R, Cogordan C, Richard J-B, Demiguel V, Regnault N, Guignard R, Pasquereau A, Nguyen-Thanh V. Consommations d'alcool et de tabac durant la grossesse : résultats du Baromètre santé 2017. *Santé Publique France*; 2018.

[22] Gomez-Roig MD, Marchei E, Sabra S, Busardò FP, Mastrobattista L, Pichini S, *et al.* Maternal hair testing to disclose self-misreporting in drinking and smoking behavior during pregnancy. *Alcohol.* 2018;67:1-6.

[23] Estimating the number of alcohol-attributable deaths: methodological issues and illustration with French data for 2006 - Rey - 2010 - *Addiction* - Wiley Online Library [Internet]. [cité 1 août 2018]. Disponible sur: <https://onlinelibrary.wiley.com/doi/pdf/10.1111/j.1360-0443.2010.02910.x>

[24] Guérin S, Laplanche A, Dunant A, Hill C. Alcohol-attributable mortality in France. *Eur J Public Health.* 1 août 2013;23(4):588-93.

[25] Inpes, Étude réalisée auprès d'un échantillon représentatif de la population française de 1 005 personnes âgées de 15 ans et plus, 2015.

[26] Blondel B, Coulm B, Bonnet C, Goffinet F, Le Ray C, National Coordination Group of the National Perinatal Surveys. Trends in perinatal health in metropolitan France from 1995 to 2016: Results from the French National Perinatal Surveys. *J Gynecol Obstet Hum Reprod.* déc 2017;46(10):701-13.

[27] Andler R, Cogordan C, Pasquereau A, Buyck J-F, Nguyen-Thanh V. The practices of French general practitioners regarding screening and counselling pregnant women for tobacco smoking and alcohol drinking. *Int J Public Health.* juin 2018;63(5):631-40.

AUTEURS

Stella Laporal¹
Virginie Demiguel¹
Chloé Cogordan²
Yaya Barry¹
Irina Guseva Canu¹
Véronique Goulet¹
Nolwenn Regnault¹

1. Santé publique France, direction des maladies non transmissibles et traumatismes, Programme de surveillance de la santé périnatale, Saint-Maurice, France

2. Santé publique France, direction de la prévention et de la promotion de la santé, unité addictions, Saint-Maurice, France

MOTS CLÉS
ALCOOL
GROSSESSE
SAF
PMSI
RÉGIONS

Citation suggérée : Laporal S, Demiguel V, Cogordan C, Barry Y, Guseva Canu I, Goulet V, Regnault N. Surveillance des troubles causés par l'alcoolisation foetale: analyse des données du programme de médicalisation des systèmes d'information en France entre 2006 et 2013. Synthèse. Saint-Maurice : Santé publique France : 2018. 10 p. Disponible à partir de l'URL : <http://www.santepubliquefrance.fr>