

Effets à long terme des prises en charge comportementales intensives et précoces des troubles du spectre autistique Revue de la littérature

Virginie Cruveiller
Pédopsychiatre - Hôpital R. Ballanger
virginie.cruveiller@ch-aulnay.fr

*Article à paraître fin 2016 aux éditions Erès dans le Cahier de PREAUT n°13
« Approches plurielles des autismes »*

Résumé

Les interventions comportementales intensives et précoces (Early Intensive Behavioral Intervention, ou EIBI) sont souvent présentées comme les plus efficaces pour traiter les enfants atteints de troubles du spectre autistique (TSA). Si leurs effets à court terme sont aujourd'hui bien documentés, leurs effets à long terme sont moins connus. Nous proposons une revue de la littérature sur ces derniers, à partir de la base de données Pubmed. Les résultats montrent que les données sur l'évolution post-traitement à long terme sont rares. Certaines études traitant du sujet montrent que les effets positifs de l'EIBI sont susceptibles de perdurer après plusieurs années. Mais plusieurs réserves s'imposent. Les critères d'évaluation et les outils utilisés ne font pas consensus et limitent la portée et la comparabilité de ces études. Les effets des traitements sont hétérogènes et variables selon les enfants, de même que leur stabilité à long terme. Tous les enfants n'en bénéficient pas, et pas aussi durablement. Pourquoi ? Les facteurs influençant l'évolution à long terme des enfants traités par EIBI tiennent à la fois aux modalités thérapeutiques (durée, intensivité), aux caractéristiques cliniques des patients (âge, compétences cognitives et adaptatives), mais aussi et surtout, semble-t-il, à la place des parents dans les soins, c'est-à-dire à un facteur pronostique non spécifique à l'EIBI.

Mots-clés : autisme, TSA, EIBI, ABA, long terme

Summary

Early Intensive Behavioral Intervention (EIBI) is often presented as the most efficient treatment for TSA children. If its short-term efficiency is now well documented, its long-term effects are less known. We have reviewed the literature concerning the latter, using the Pubmed database. Our results show that the data dealing with long-term post-treatment evolution is rare. Certain studies show that EIBI's positive effects can carry on for several years. But several reservations are necessary. The evaluation criteria and tools used do not meet general consensus and limit these studies' strength and comparability. EIBI's long-term effects are heterogeneous and vary among children; patients don't all durably benefit from them, if at all. How can we account for these limits to EIBI's efficiency? Among the factors that influence the long-term evolution of children who were treated with EIBI, one must consider the therapeutic modalities (duration, intensiveness), and the children's characteristics (age, cognitive and adaptative skills). Moreover, it seems that the most important factor is the parents' implication in the program, i.e. a prognostic factor that is not specific to EIBI.

Keywords : autism, ASD, EIBI, ABA, long term

Introduction

Il est aujourd'hui communément admis que les soins aux enfants présentant des troubles du spectre autistique doivent être mis en œuvre le plus précocement possible. Une fois posé ce principe, reste à définir en quoi doivent consister ces soins, qualitativement et quantitativement.

Les interventions comportementales intensives et précoces (EIBI : *Early Intensive Behavioral Intervention*) sont couramment présentées comme les plus efficaces dans le traitement des TSA et les seules dont l'efficacité soit démontrée empiriquement par des études scientifiques. C'est sur cet argument de scientificité qu'est parfois prônée une prise en charge exclusivement comportementale et intensive des TSA (Larsson, 2013).

Les données sur lesquelles se fonde cet argument concernent le plus souvent les effets immédiats de l'EIBI. Mais qu'en est-il de la pérennité de ces effets ? Que savons-nous aujourd'hui, après plus d'une quarantaine d'années d'utilisation de l'EIBI outre-Atlantique, concernant l'évolution à long-terme des enfants inclus dans ces programmes ? Notre revue de la littérature internationale, sans prétendre à l'exhaustivité, se propose de synthétiser les principales données disponibles sur le sujet.

Nous avons utilisé la base de données Pubmed, en croisant les mots clés « autisme », « Applied Behavioral Analysis », « EIBI », « early intervention », « early intensive intervention », « outcome », « long-term », « efficiency » de façon à faire apparaître les études cliniques, revues et méta-analyses traitant des effets à long terme de l'EIBI (sans critère de date).

Les effets à long terme ont été définis comme persistants au moins 1 an après la fin de la prise en charge. Pour définir l'EIBI, nous nous sommes appuyés sur la revue de la littérature proposée par Matson (2014). Ce dernier montre que les programmes thérapeutiques désignés par EIBI dans la littérature s'adressent à des enfants de 15 mois à 7 ans, pris en charge dans des établissements sanitaires, scolaires ou à domicile selon les principes de Lovaas, au moins 10 heures par semaine (le plus souvent entre 20 et 30 heures). Nous entendons donc par EIBI une intervention précoce (avant 7 ans), intensive (au minimum 10 heures par semaine) et comportementales au sens où le comportement est à la fois la fin (faire apparaître ou disparaître un comportement) et le moyen (techniques d'apprentissage comportementales), selon des méthodes directement inspirées de l'ABA. Nous avons ensuite collecté parmi les références restantes, les données concernant les effets de l'EIBI à long terme.

Des données trop rares

Le premier constat que l'on peut faire lorsqu'on parcourt la littérature sur les effets de l'EIBI est celui du contraste entre l'abondance de données sur les effets immédiats de ces prises en charge, et le peu de données sur leurs effets à long terme.

En 2013, Matson et Konst ont proposé une revue de la littérature sur l'EIBI recensant les études cliniques présentées comme des études de suivi, comportant le terme "*follow up*". Sur les 32 études incluses, 19 ont de vraies données post-test. C'est évidemment très peu. Mais surtout, ce ne sont pas réellement des études de suivi à long terme : seules 3 études suivent les enfants après la fin du traitement (Richards, 2009 ; Khovshoff, 2011, Akshoomoff,

2010). Les durées de suivi, la nature des prises en charge et les outils de mesure utilisés sont très variables. Ceci, ajouté au faible nombre d'études, rend leur comparabilité difficile.

Une étude, celle de Richards, Walstab, Wright-Rossi, Simpson, et Reddihough (2009) a évalué durant un an les effets post-traitement d'un programme de soins à domicile proposé en Australie. Les outils utilisés étaient la BSID (*Bailey Scale of Infant Development*) pour les étapes développementales, la WPPSI-R (*Wechsler Preschool and Primary Scale of Intelligence-Revised*) pour le quotient intellectuel, ainsi que la *Preschool Behaviour Checklist*, la *Bayley Behaviour Rating Scale*, and le *Behaviour Screening Questionnaire*. Des mesures du stress et de l'ajustement familial ont également été conduites. L'étude de Kovshoff, Hastings, & Remington (2011) ressemble, dans son design, à la précédente, mais diffère par sa durée de suivi (2 ans). Enfin, l'étude d'Akshoomoff et coll. (2010) a suivi 29 enfants durant des périodes allant de 1 à 9 ans, après un traitement par EIBI conduit à l'âge de 2 ou 3 ans. Les critères d'évaluation concernaient la socialisation, la cognition, le langage et le stress parental. Dans chacune de ces études, les progrès ont été montrés, mais pas pour tous les enfants.

Les auteurs concluent que le peu d'informations sur les effets à long terme de l'EIBI est un problème majeur. « *La mauvaise nouvelle, écrivent-ils, est qu'une vaste majorité d'études sont à tort présentées comme des études de suivi alors qu'elles sont en fait des données post-test. Ces deux termes signifient des choses fort différentes. Trois vraies études de suivi ont été recensées. Il se peut qu'il y en ait quelques autres, mais il n'en reste pas moins que les données sur le sujet sont, au mieux, éparses. De plus, parmi les papiers recensés, certaines données ont été collectées rétrospectivement tandis que d'autres étaient incluses dans le design expérimental initial. Ce dernier cas est préférable, car cela permet un meilleur contrôle des méthodes et des procédures, ainsi que des variables externes qui pourraient altérer les résultats. L'affirmation selon laquelle les applications intensives de l'ABA sont efficaces pour améliorer de façon marquée la plupart des enfants avec TSA et les problèmes comorbides qui accompagnent souvent ce diagnostic est valide. En revanche, les données actuelles ne prouvent pas que l'on soigne ou que l'on obtienne des effets à long terme. Il en résulte qu'une des principales, si ce n'est la principale priorité dans la recherche en EIBI actuellement devrait être de mieux établir, davantage et à plus long terme les données étudiées au départ d'une étude* »¹.

Ce constat rejoint celui de Warren et coll. qui, en 2011 ont publié une revue de 159 études parues de janvier 2000 à mai 2010 sur les différentes modalités de prise en charge des TSA aux Etats-Unis. Parmi elles, 90 ont été jugées de mauvaise qualité méthodologique, et seulement 13 de bonne qualité, avec un niveau de preuve satisfaisant. Parmi les questions clés identifiées par les investigateurs, figure notamment celle de savoir si les effets à long terme des prises en charge comportementales sont connus. La réponse est non ; il n'est fait aucune mention de ce point dans l'analyse des données qui portent donc toutes sur les résultats à court terme. Les auteurs en concluent que la durée de suivi est le plus souvent courte, trop peu d'études fournissant des données à long terme après la fin du traitement. Ils invitent la recherche future à étendre les durées de suivi et à préciser dans quelle mesure les effets des soins perdurent.

Geraldine Dawson (2013), dans un article qui fait le point sur la prise en charge précoce des TSA ces 25 dernières années, ne recense quant à elle que 7 études portant sur les effets de l'EIBI à long terme : Magiati et coll. (2011), portant sur une cohorte de 36 enfants suivis durant 6 à 7 ans, Magiati, Charman et Howlin (2007) qui ont suivi 44 enfants durant 2 ans, Sallows & Gaupner (2005, 23 enfants suivis sur 4 ans), Harris & Handleman (2000, 27 enfants suivis 4 à 5 ans) et enfin Smith, Groen et Wynn (2000, 28 enfants suivis 4 à 5 ans). De

¹ Matson & Konst, 2013, p.478

même, Ospina et coll. (2008) ont conduit une recherche de grande ampleur sur 22 bases de données scientifiques, qui pointe elle aussi le manque de données sur les effets à long terme. Les résultats varient selon la durée de suivi post-intervention.

Citons enfin la revue de Lydon et coll. parue en 2014 qui, sans porter directement sur l'EIBI, recense les études sur les effets à long terme des techniques de renforcement négatif utilisées en ABA (autrement dit, des punitions). Sur les 368 articles publiés entre 1967 et 2013 sur les effets de la punition utilisée dans l'ABA auprès de personnes avec troubles développementaux, seulement 18,5% des articles étudient la persistance des effets au-delà de 1 an.

Les travaux de Patricia Howlin (2014) auraient pu nous renseigner : elle étudie l'évolution de 60 personnes autistes environ 40 ans après le diagnostic et s'intéresse à leur évolution sur le plan cognitif et langagier en cherchant à définir des facteurs prédictifs de cette évolution. Mais assez curieusement, la nature et l'intensité des soins reçus par ces patients ne sont pas prises en compte dans cette étude qui ne donne donc pas d'information sur les effets à long terme de tel ou tel type de thérapie. Baird (2014) commente cette étude en ces termes : "la prédiction individuelle reste une science très imprécise qui doit être manipulée avec précaution".

Les données existantes sont donc trop rares au regard de l'enjeu thérapeutique de la question. Partant de ce constat, nous allons à présent examiner les résultats des publications disponibles.

Données en faveur d'une efficacité de l'EIBI à long terme

Plusieurs études tendent à montrer que l'EIBI produit des effets durables dans le temps.

La toute première est celle de Mc Eachin et Lovaas (1993), reprenant la cohorte *princeps* de Lovaas (1987) : *Long-term outcome for children with autism who received early intensive behavioral treatment*. Elle porte sur un groupe de 19 enfants d'âge préscolaire, ayant bénéficié d'un traitement par EIBI, et comparés à un groupe contrôle. A l'issue du programme, à l'âge de 7 ans, le groupe EIBI était mieux intégré scolairement et présentait un QI supérieur. Mais il ne s'agissait pas là d'effets à long terme. Pour évaluer ces derniers, les mêmes enfants ont été réévalués à un âge moyen de 11 ans 6 mois.

Les résultats montrent que le groupe expérimental a mieux conservé ses acquis que le groupe contrôle. Parmi les 9 enfants du groupe EIBI qui présentaient les meilleurs résultats à l'âge de 7 ans, 8 étaient, selon les auteurs non-distinguables d'enfants ordinaires en termes d'intelligence et de comportements adaptatifs. Il semble donc qu'un traitement comportemental précoce et intensif puisse produire des effets durables et bénéfiques.

Mais deux réserves s'imposent sur ce point. D'une part, ce constat de réussite à long terme concerne les enfants les plus performants du groupe EIBI. Quid des autres ? Et pourquoi certains enfants tirent-ils plus de bénéfices que d'autres d'un même programme ? Nous évoquerons cette question un peu plus loin. D'autre part, les critères d'évaluation sont le QI et les comportements adaptatifs, et non les symptômes autistiques eux-mêmes. Or l'autisme est un trouble des interactions sociales et de la communication avant d'être un déficit intellectuel ou un trouble des comportements adaptatifs ; les résultats de cette étude sont donc basés sur des troubles associés plus que sur l'autisme lui-même.

La même remarque peut être faite à propos des travaux de Howard et coll. parus en 2005 puis en 2014. De manière concordante avec McEachin et Lovaas, ils obtiennent des résultats en faveur de la pérennité des effets de l'EIBI. La première étude, en 2005, montrait que le groupe de 29 enfants traités par EIBI obtenait de meilleurs résultats en fin de traitement

que deux autres groupes ayant bénéficié d'interventions dites "éclectiques" (l'une intensive et spécifiquement conçue pour les TSA, mais n'appliquant pas l'ABA ; l'autre intensive mais non spécifique des TSA). Majoritairement, les enfants du groupe EIBI parvenaient deux fois plus que les autres à des scores normaux aux tests de QI et de comportements adaptatifs, et davantage d'enfants du premier groupe augmentaient leurs performances cognitives d'au moins une déviation standard. La seconde étude (2014) a réévalué les mêmes enfants après 2 ans puis 3 ans de traitement. Les bénéfices de l'EIBI ont été confirmés. Bien que les progrès les plus importants se soient produits durant la première année d'EIBI, plusieurs enfants qui présentaient encore un retard intellectuel à l'issue d'un an de traitement avaient rejoint la normale après 2 ou 3 ans. Il ne s'agit toutefois pas là d'une étude de suivi post-traitement stricto sensu, mais d'une comparaison entre les effets du traitement à 1 an et ses effets après prolongation. Les effets après la fin de l'intervention ne sont pas évalués.

Les études recensées par G. Dawson (2013) obtiennent des résultats analogues (Magiati et coll., 2011 ; Magiati, Charman et Howlin, 2007 ; Sallow & Gaupner, 2005 ; Harris & Handleman, 2000 ; Smith, Groen et Wynn, 2000). Pour chacune de ces études, les résultats présentés sont favorables à l'EIBI. Systématiquement, les critères utilisés sont le QI et le comportement adaptatif.

Plus récemment encore, Estes et coll. (2015) obtiennent des résultats analogues concernant l'ESDM (*Early Start Denver Model*, qui fait partie des pratiques désignées comme EIBI). Leurs travaux portent sur 39 enfants avec TSA traités par ESDM entre 18 et 30 mois, à domicile, de manière intensive, durant 2 ans et comparés à un groupe contrôle. Deux ans après la fin de l'intervention, des cliniciens ont réévalué ces enfants en aveugle. En moyenne, le groupe ESDM a conservé ses gains en termes de compétences intellectuelles, adaptatives, mais aussi de sévérité du syndrome autistique et de troubles du comportement. De manière intéressante, si aucune différence n'est apparue immédiatement à la fin du traitement sur le plan des signes autistiques proprement dits, en revanche après deux ans le syndrome autistique était moins sévère dans le groupe ESDM que dans le groupe contrôle. Notons aussi que le groupe ESDM a, certes, gardé ses acquis sur le plan intellectuel, mais cela est vrai aussi du groupe contrôle. Les deux groupes n'étaient pas significativement différents en termes de QI lors de la réévaluation à 2 ans. Il n'en reste pas moins que cette étude montre la durabilité des effets de l'ESDM précoce.

Il semble donc exister des arguments empiriques attestant une efficacité durable de l'EIBI. Toutefois il convient d'émettre un certain nombre de réserves concernant ces données.

Des résultats hétérogènes, variables d'un enfant à l'autre

La littérature montre que tous les enfants ne bénéficient pas autant des soins, et tous ne conservent pas à long terme ces éventuels bénéfices.

D'une part, toutes les études de suivi à long terme post-EIBI n'obtiennent pas des résultats aussi positifs. Par exemple, les travaux d'Akshoomov et coll. (2010) montrent au contraire une stabilité des troubles à long terme. Il s'agit d'un suivi de 29 enfants ayant bénéficié d'une PEC précoce de type comportemental (*Children's Toddler School Program*) entre 2 et 3 ans et réévalués à long terme (entre 1 et 9 ans plus tard). L'étude montre que le diagnostic d'autisme reste stable chez ces enfants. Les compétences sociales restent faibles et le stress parental lié à l'enfant reste élevé. Tous les enfants continuent à avoir besoin d'une prise en charge spécialisée, ce qui va à l'encontre de certains résultats présentés précédemment.

D'autre part, lorsqu'on examine plus en détail les résultats favorables à l'EIBI, il apparaît que derrière des scores moyens globalement meilleurs, la variabilité individuelle des résultats est très importante. Les effets durent pour certains enfants, mais pas pour tous. Fernell, (2011) dans une étude prospective menée sur 2 ans portant sur 208 enfants autistes suédois d'âge préscolaire, insiste sur cette variabilité inter et intra-individuelle très importante au sein de chaque groupe (EIBI et contrôle). De même, Magiati (2011) montre une stabilité globale des effets de l'EIBI à long terme mais une forte variabilité individuelle : certains enfants conservent leurs acquis, d'autres régressent, sans que les auteurs parviennent à savoir pourquoi. Les résultats de Khovshoff (2011) sont comparables par leur hétérogénéité.

Comme le rappelaient récemment L. Fava et K. Strauss (2014), citant Ramey et Ramey (1998), « *certaines enfants montrent des bénéfices plus importants que d'autres (...). Un programme individualisé ajusté aux besoins individuels est nécessaire* »².

L'étude de O'Connor (2010) propose une analyse détaillée de l'évolution à long terme de 5 patients ayant réussi à intégrer le circuit scolaire ordinaire après une prise en charge en EIBI en école spécialisée. Ce travail, bien que mené sur un très petit nombre de cas, a l'avantage de permettre une comparaison détaillée et individualisée de l'évolution post-traitement. Les résultats sont hétérogènes. Lors de la réévaluation, tous continuaient à présenter un syndrome autistique. Pour l'un des participants la sévérité du syndrome avait diminué ; à l'inverse elle avait augmenté pour deux d'entre eux. Ces deux patients ne conservaient pas les progrès qu'ils avaient faits à l'issue du programme EIBI ; tous deux avaient régressé sur le plan du QI et des comportements adaptatifs. Les stéréotypies comportementales avaient augmenté pour 4 des 5 participants.

Le problème des outils de mesure et du choix des critères d'évaluation

Les études qui entendent démontrer la rémission (« *recovery* ») de l'autisme par l'EIBI reposent sur des données partielles liées à des outils de mesure et à des critères d'évaluation contestables, comme le montrent Olsson et coll. (2015). Les auteurs se sont intéressés à 17 enfants issus d'un groupe de 208 patients considérés comme « guéris de l'autisme », diagnostiqués avant l'âge de 4 ans. Durant les deux années qui ont suivi le diagnostic, ils ont été traités par ABA intensive. Au bout de deux ans, ils ne remplissaient plus les critères de TSA. Vers l'âge de 10 ans, Olsson et coll. ont réévalué ces patients au moyen d'un entretien semi-structuré avec leurs parents, concernant le fonctionnement de l'enfant au quotidien, sa situation scolaire, et ses besoins. Les outils utilisés étaient la *Vineland Adaptive Behavior Scale* (VABS), et *l'Autism – Tics, Attention-deficit/hyperactivity disorder* (AD/HD), *and other Comorbidities* (A-TAC). Les résultats montrent qu'une large majorité de patients conservaient des difficultés sévères d'attention et de régulation de l'activité, de langage, de comportement et d'interactions sociales. Une majorité d'enfants avaient régressé à la VABS. Une substantielle minorité (près de 30%) correspondait en fait toujours aux critères diagnostiques de TSA. D'autres instruments d'évaluation produisent d'autres résultats montrant que l'évolution des patients dits guéris est en fait bien plus complexe qu'il n'y paraît ; le terme de guérison paraît alors inapproprié.

En outre, il n'est pas évident que la comparaison des scores aux mêmes tests d'évaluation durant la petite enfance et à l'âge adulte soit pertinente, comme l'ont montré Bishop, Farmer et Thurm (2014). Sans porter directement sur l'EIBI, leur étude montre un exemple de biais méthodologique possible lié à l'utilisation des mêmes outils à différents âges, notamment pour des patients présentant un retard mental important.

² Fava, 2014, p.53

De même, l'étude de McEachin et Lovaas (1993), dont se réclame la majorité des études ultérieures sur le sujet, a fait l'objet d'une critique méthodologique approfondie par Gresham (1998) qui montre que ses résultats doivent être interprétés avec précaution en raison du choix des critères et des instruments d'évaluation. En effet, les outils de mesure du QI et des comportements adaptatifs n'étaient pas les mêmes à la sortie du programme et lors de la réévaluation à long terme, ce qui compromet la comparabilité des résultats. De plus, les résultats pré-test et post-test n'ont pas été recueillis dans les mêmes conditions expérimentales (renforcement de la compliance dans un cas, passation standard dans l'autre).

Or, comme le note Gresham, les auteurs passent sous silence tout élément susceptible de limiter ou de nuancer leurs résultats, contrairement à la démarche scientifique qui consiste à proposer des points de discussion ouvrant une critique possible. La reconnaissance de la falsifiabilité d'un résultat empirique est pourtant une condition *sine qua non* pour pouvoir lui reconnaître une valeur scientifique (Popper, 1973). Gresham constate qu'au contraire, Lovaas et McEachin non seulement ne proposent aucun élément d'autocritique dans leur article, mais accusent ceux qui émettent des réserves de répandre la désinformation (Smith et Lovaas 1997). Cette réaction sème le doute sur la scientificité de travaux qui constituent pourtant la pierre de touche de toute la littérature ultérieure sur le sujet, revendiquant l'EIBI comme la seule méthode dont les résultats soient scientifiquement prouvés.

Quels sont les facteurs d'efficacité de l'EIBI à long terme ?

Comment savoir ce qui va fonctionner ? Pour quels enfants l'EIBI est-elle la plus efficace ? Comment poser l'indication et concevoir les modalités thérapeutiques d'une telle prise en charge ? Nous proposons ici plusieurs pistes de réponse à partir de la littérature.

Facteurs propres au programme EIBI

Les caractéristiques quantitatives de l'EIBI (durée, intensivité) sont-elles un facteur d'efficacité à long terme ? Le manque de données ne permet pas de répondre de façon définitive à cette question. Les études se contredisent.

En effet Makrygianni et coll. (2010) montrent que la durée de la prise en charge en EIBI ne modifie pas son efficacité. On s'attendrait à ce que la durée des soins soit un prédicteur important d'efficacité, c'est-à-dire à ce qu'un enfant soigné plus longtemps fasse davantage de progrès. Or la seule corrélation significative entre durée des soins et efficacité concerne dans cette étude les comportements adaptatifs. Pour tous les autres aspects cliniques, la durée ne modifie pas les effets des soins. Les auteurs en concluent que le fait de prolonger un programme d'intervention en EIBI durant plusieurs années n'améliore probablement pas son efficacité, et que celle-ci varie indépendamment de ce paramètre.

Concernant l'intensivité, Fernell (2011), dans une étude prospective conduite sur 2 ans portant sur 208 enfants autistes suédois d'âge préscolaire, ne retrouve pas de différence d'efficacité entre l'EIBI et les prises en charge ABA précoces moins intensives. Autrement dit l'intensivité des soins ABA précoces ne semble pas non plus modifier significativement leurs effets thérapeutiques.

Mais Granpeesheh et coll. (2009) obtiennent des résultats contraires. Selon cette étude portant sur 245 enfants de 2 à 7 ans suivis en EIBI, l'âge et le nombre d'heures de soins par mois apparaissent comme des facteurs prédictifs de l'évolution des enfants. Plus un enfant est jeune plus il progresse ; plus le nombre d'heures mensuelles est élevé, plus il progresse ; et plus le patient est jeune, plus l'intensité du suivi est un facteur qui pèse pour son pronostic.

Ces données divergentes invitent à la prudence. Il est probable que d'autres facteurs, extérieurs au programme lui-même, entrent en compte, avec davantage de poids.

Facteurs liés au patient

Il est aujourd'hui largement établi dans la littérature qu'au moins quatre facteurs d'efficacité liés au patient modifient l'efficacité de la prise en charge en EIBI : l'âge au début de la prise en charge (inférieur à 4 ans), le QI, les scores aux échelles évaluant les comportements adaptatifs et, quoique dans une moindre mesure, la sévérité initiale de l'autisme. Citons notamment : Perry 2011, 2008, 2013, Eikeseth et coll., 2002, 2007; Harris & Handleman, 2000; Hayward et coll., 2009; Sallows & Graupner, 2005 ; Anderson et coll., 1987; Bibby, Eikeseth, Martin, Mudford, & Reeves, 2002; Fenske et coll., 1985 ; Fava & Strauss, 2014. Ces différentes études concordent sur ce point : les enfants qui bénéficient le plus de l'EIBI sont les plus jeunes, les moins sévèrement autistes et les plus performants sur le plan intellectuel.

L'étude de Perry (2011) fait ce constat mais va plus loin : elle montre que les enfants n'ayant pas ou faiblement progressé ne présentent pas de caractéristiques différentes de ceux qui progressent de manière modérée. Ceux qui ne font pas de progrès ne diffèrent pas des autres à l'entrée, du moins dans les 4 critères prédictifs d'évolution favorable : il est donc impossible de prédire selon ces critères quels enfants ne bénéficieront pas de l'EIBI. Sur le plan du QI, de l'âge, des comportements adaptatifs et de la sévérité du syndrome, les enfants qui ne progressent pas ne diffèrent pas de ceux qui progressent modérément. Autrement dit, on sait pour quels enfants l'EIBI fonctionnera probablement le mieux, mais pour les autres, on ne sait pas.

On peut en conclure que les effets de l'EIBI, à court comme à long terme, sont influencés par d'autres paramètres que les modalités du traitement, les caractéristiques cliniques ou l'âge du patient.

Facteurs contextuels et familiaux

Plusieurs travaux montrent que le contexte familial et la manière dont les parents sont impliqués dans les soins constituent des facteurs cruciaux de réussite ou d'échec de l'EIBI à long terme.

Ainsi dans l'étude de Khovshoff (2011) qui suit 41 enfants autistes 2 ans après la fin d'un programme EIBI, le groupe EIBI évolue certes mieux et plus durablement que le groupe contrôle dans l'ensemble, mais ce n'est pas le cas de tous les enfants du groupe. Pourquoi ? Lorsqu'on regarde le détail des résultats, il apparaît que le rôle tenu par les parents dans la prise en charge influence significativement la durabilité des effets à long terme. En effet, le groupe EIBI se divise en 2 sous-groupes : dans l'un des deux, ce sont les parents qui, formés et supervisés par des thérapeutes, ont mis en œuvre les soins ; dans l'autre, les enfants ont été pris en charge directement par des thérapeutes, supervisés par une équipe universitaire. Or, le groupe dans lequel les parents interviennent conserve davantage les acquis de la thérapie. Le groupe EIBI pris en charge uniquement par des thérapeutes a, quant à lui, régressé après 2 ans. Autrement dit, former et encadrer les parents pour pratiquer (et probablement ajuster au quotidien) l'EIBI à domicile permet d'obtenir des résultats durables, contrairement au suivi uniquement pratiqué par des professionnels.

Ceci se vérifie dans l'étude conduite par Strauss et coll. en 2012. Il s'agissait d'examiner les interactions entre les facteurs susceptibles d'affecter les progrès des enfants, dont l'implication des parents et l'intensité du travail à domicile, leur fidélité au programme, et leur niveau de stress. 24 enfants ont été pris en charge en EIBI à domicile par des professionnels et par leurs parents, encadrés par ces derniers. 20 enfants constituaient un

groupe contrôle ayant reçu une intervention éclectique. Après 6 mois, le groupe EIBI obtient de meilleurs résultats en termes de sévérité, de compétences verbales et de développement. L'étude montre que la formation des parents et leur accompagnement constant par des professionnels sont corrélés à une diminution des troubles du comportement, et à une meilleure fidélité au programme. L'implication des parents semble donc influencer l'efficacité de l'EIBI. Plus encore, il existe une corrélation entre le stress parental et l'efficacité : plus le niveau de stress parental est élevé, moins bonne est leur coopération et moins bons sont les résultats.

Le reste de la littérature confirme assez largement ce point, comme le montre la synthèse proposée par Strauss et coll. (2013), portant sur 6 méta-analyses publiées entre 2009 et 2011. Les auteurs montrent que, certes, les effets thérapeutiques de l'EIBI dépendent du QI, du niveau verbal et des comportements adaptatifs, mais seulement dans la mesure où les parents ont été associés à la prise en charge. La place faite aux parents dans les soins est donc un facteur qui prime sur les autres : les programmes incluant les parents sont ceux qui donnent les résultats les plus pérennes. Encore faut-il que les parents soient prêts à se former et à endosser un rôle de thérapeutes. Toutes les familles ne sont pas en mesure ou ne souhaitent tout simplement pas prendre cette place.

Mais d'autres facteurs familiaux modifient le devenir à long terme des enfants autistes, quel que soit le mode de prise en charge, comme le montre Mailick (2016). Cette étude s'intéresse aux facteurs contextuels qui influencent l'évolution clinique des patients, de l'enfance à l'âge adulte. 406 patients et leurs familles ont été inclus dans l'étude. Ils étaient âgés de plus de 10 ans lors de l'inclusion, et ont ensuite été suivis durant 10 ans. Les auteurs identifient des groupes d'individus avec TSA ayant des profils d'évolution similaires sur 10 ans dans trois domaines : les comportements adaptatifs, les signes autistiques et l'autonomie quotidienne. Parmi l'ensemble des paramètres étudiés, les facteurs prédictifs d'évolution les plus puissants qui apparaissent sont le contexte éducatif (notamment l'inclusion scolaire) et le contexte familial (notamment les discours et représentations des mères concernant leur enfant).

Les mères qui ont fait le plus de remarques positives au sujet de leur enfant présentant un TSA au cours d'un entretien proposé en début de prise en charge avaient significativement plus de chance d'avoir, dix ans plus tard, un fils ou une fille adulte ayant suivi une trajectoire globale plus positive que les autres. En revanche, le nombre de remarques négatives exprimées lors de cet entretien n'est pas corrélé à l'évolution ultérieure de l'enfant. Les auteurs en concluent que la positivité des discours et des représentations familiales au sujet de l'enfant influence son évolution. Même plus tard, à l'adolescence et à l'âge adulte, ce paramètre continue à impacter le fonctionnement des personnes autistes.

Par ailleurs, l'inclusion scolaire apparaît comme fortement corrélée à la probabilité d'une trajectoire développementale ultérieure positive, qu'il s'agisse des signes autistiques, des compétences dans la vie quotidienne ou du comportement. Il est toutefois difficile d'interpréter ces corrélations comme des facteurs causaux : comment savoir si les enfants inclus scolairement le sont parce que leur évolution le leur permet, ou si cette évolution est positive parce qu'ils sont inclus à l'école ? Il en va de même pour les discours familiaux autour de l'enfant. Néanmoins, on peut raisonnablement suivre les auteurs lorsqu'ils concluent que le fait d'intervenir à l'école et au domicile pourrait avoir un impact à long terme sur le fonctionnement à l'âge adulte.

Conclusion

En 2013, Eric Larsson³ dans un article publié par le Lovaas Institute, affirmait que « les traitements par EIBI sont les seuls traitements pour enfants autistes dont l'efficacité soit scientifiquement étayée ». Notre revue de la littérature invite à la prudence à l'égard d'une telle affirmation. Les données sur les effets à long terme de l'EIBI restent, à ce jour, rares et contradictoires. Certains de ces effets sont positifs et durables. Mais ils ne le sont pas pour tous les enfants. Le fait que tous les enfants ne tirent pas profit de ces traitements, et que tous n'en conservent pas durablement les bénéfices éventuels, conduit nécessairement à s'interroger sur les facteurs qui influencent l'évolution de ces enfants et les effets thérapeutiques de l'EIBI à long terme. Pourquoi tel enfant conserve-t-il ses progrès plusieurs années après le traitement et pas tel autre ? Cette question est cruciale pour poser l'indication d'une prise en charge par EIBI et en définir les modalités. Or, la rareté des données scientifiques et la multiplicité des facteurs impliqués ne permettent pas, à l'heure actuelle, de réponse simple à cette question. Il semble que l'intensité de la prise en charge et sa durée ne soient pas les facteurs d'efficacité les plus puissants. Les enfants ayant un QI élevé, un syndrome autistique peu sévère et recevant des soins précoces bénéficient davantage et à plus long terme de l'EIBI. Mais reste à savoir si les autres enfants (ceux qui présentent les troubles les plus importants et/ou n'ont pas pu, quelle qu'en soit la raison, être soignés précocement) peuvent en bénéficier aussi ; surtout, comment adapter la prise en charge à leurs besoins ? Une piste de réflexion intéressante sur ce point concerne les facteurs contextuels et familiaux, notamment l'implication des parents dans les soins, et l'impact des représentations familiales sur le devenir de l'enfant. Les enfants qui bénéficient de l'EIBI à long terme sont avant tout ceux dont les parents sont associés au projet thérapeutique et à sa mise en œuvre ; ce facteur n'est pas spécifique des prises en charge comportementales, et son impact est encore largement sous-estimé dans les études cliniques sur l'EIBI.

Bibliographie

Akshoomoff N, Stahmer AC, Corsello C, Mahrer NE. What Happens Next? Follow-Up From the Children's Toddler School Program. *Journal of Positive Behavior Interventions*. 2010 Oct 1;12(4):245–53.

Anderson SR, Avery DL, DiPietro EK, Edwards GL, Christian WP. Intensive home-based early intervention with autistic children. *Education and Treatment of Children*. 1987;10(4):352–66.

Baird G. Commentary: Diverging trajectories from a similar starting point: the outcome in adults whose autism was diagnosed in childhood - reflections on Howlin et al. (2013). *Journal of Child Psychology and Psychiatry*. 2014 Jan;55(1):59–60.

Bibby P, Eikeseth S, Martin NT, Mudford OC, Reeves D. Progress and outcomes for children with autism receiving parent-managed intensive interventions. *Res Dev Disabil*. 2001 Dec;22(6):425–47.

Bishop SL, Farmer C, Thurm A. Measurement of Nonverbal IQ in Autism Spectrum Disorder: Scores in Young Adulthood Compared to Early Childhood. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2015 Apr;45(4):966–74.

³ Larsson, 2013, p.11

Broderick AA. Autism, “Recovery (to Normalcy),” and the Politics of Hope. *Intellectual and Developmental Disabilities*. 2009 Aug;47(4):263–81.

Dawson G, Bernier R. A quarter century of progress on the early detection and treatment of autism spectrum disorder. *Development and Psychopathology*. 2013 Nov;25(4pt2):1455–72.

Eikeseth S, Smith T, Jahr E, Eldevik S. Outcome for Children with Autism who Began Intensive Behavioral Treatment Between Ages 4 and 7: A Comparison Controlled Study. *Behavior Modification*. 2007 May 1;31(3):264–78.

Eikeseth S, Smith T, Jahr E, Eldevik S. Intensive behavioral treatment at school for 4-to 7-year-old children with autism a 1-year comparison controlled study. *Behavior modification*. 2002;26(1):49–68.

Estes A, Munson J, Rogers SJ, Greenson J, Winter J, Dawson G. Long-Term Outcomes of Early Intervention in 6-Year-Old Children With Autism Spectrum Disorder. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*. 2015 Jul;54(7):580–7.

Fava L, Strauss K. Response to Early Intensive Behavioral Intervention for autism—An umbrella approach to issues critical to treatment individualization. *International Journal of Developmental Neuroscience*. 2014 Dec;39:49–58.

Fenske EC, Zalenski S, Krantz PJ, McClannahan LE. Age at intervention and treatment outcome for autistic children in a comprehensive intervention program. *Analysis and Intervention in Developmental Disabilities*. 1985 Jan;5(1–2):49–58.

Fernell E, Hedvall Å, Westerlund J, Höglund Carlsson L, Eriksson M, Barnevik Olsson M, et al. Early intervention in 208 Swedish preschoolers with autism spectrum disorder. A prospective naturalistic study. *Research in Developmental Disabilities*. 2011 Nov;32(6):2092–101.

Granpeesheh D, Dixon DR, Tarbox J, Kaplan AM, Wilke AE. The effects of age and treatment intensity on behavioral intervention outcomes for children with autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2009 Oct;3(4):1014–22.

Granpeesheh D, Tarbox J, Dixon DR, Carr E, Herbert M. Retrospective analysis of clinical records in 38 cases of recovery from autism. *Ann Clin Psychiatry*. 2009 Dec;21(4):195–204.

Gresham FM, MacMillan DL. Early intervention project: Can its claims be substantiated and its effects replicated? *Journal of autism and developmental disorders*. 1998;28(1):5–13.

Harris SL, Handleman JS. Age and IQ at intake as predictors of placement for young children with autism: a four- to six-year follow-up. *J Autism Dev Disord*. 2000 Apr;30(2):137–42.

Hayward D, Eikeseth S, Gale C, Morgan S. Assessing progress during treatment for young children with autism receiving intensive behavioural interventions. *Autism*. 2009 Nov 1;13(6):613–33.

Howard JS, Sparkman CR, Cohen HG, Green G, Stanislaw H. A comparison of intensive behavior analytic and eclectic treatments for young children with autism. *Res Dev Disabil*. 2005 Aug;26(4):359–83.

Howard JS, Stanislaw H, Green G, Sparkman CR, Cohen HG. Comparison of behavior analytic and eclectic early interventions for young children with autism after three years. *Research in Developmental Disabilities*. 2014 Dec;35(12):3326–44.

Howlin P, Goode S, Hutton J, Rutter M. Adult outcome for children with autism. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*. 2004;45(2):212–229.

Howlin P, Savage S, Moss P, Tempier A, Rutter M. Cognitive and language skills in adults with autism: a 40-year follow-up. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*. 2014 Jan;55(1):49–58.

Kovshoff H, Hastings RP, Remington B. Two-year outcomes for children with autism after the cessation of early intensive behavioral intervention. *Behavior Modification*. 2011;145445511405513.

Larsson EV. Is Applied Behavior Analysis (ABA) and Early Intensive Behavioral Intervention (EIBI) an Effective Treatment for Autism? A Cumulative History of Impartial Independent Reviews. *autism*. 2013;27:168–179.

Lovaas OI, Smith T. The UCLA Young Autism Project: A Reply to Gresham and MacMillan. *Behavioral Disorders*. 1997 Aug 1;22(4):202–18.

Lovaas OI. Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *J Consult Clin Psychol*. 1987 Feb;55(1):3–9.

Lydon S, Healy O, Moran L, Foody C. A quantitative examination of punishment research. *Research in Developmental Disabilities*. 2015 Jan;36:470–84.

Magiati I, Charman T, Howlin P. A two-year prospective follow-up study of community-based early intensive behavioural intervention and specialist nursery provision for children with autism spectrum disorders. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*. 2007 Aug;48(8):803–12.

Magiati I, Moss J, Charman T, Howlin P. Patterns of change in children with Autism Spectrum Disorders who received community based comprehensive interventions in their pre-school years: A seven year follow-up study. *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2011 Jul;5(3):1016–27.

Makrygianni MK, Reed P. A meta-analytic review of the effectiveness of behavioural early intervention programs for children with Autistic Spectrum Disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2010 Oct;4(4):577–93.

Matson JL, Konst MJ. What is the evidence for long term effects of early autism interventions? *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2013 Mar;7(3):475–9.

Matson JL, Konst MJ. Early intervention for autism: Who provides treatment and in what settings. *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2014 Nov;8(11):1585–90.

Matson JL, Turygin NC, Beighley J, Rieske R, Tureck K, Matson ML. Applied behavior analysis in Autism Spectrum Disorders: Recent developments, strengths, and pitfalls. *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2012 Jan;6(1):144–50.

McEachin JJ, Smith T, Lovaas OI. Long-term outcome for children with autism who received early intensive behavioral treatment. *Am J Ment Retard*. 1993 Jan;97(4):359-372-391.

Nahas MS, Valle LB, Oliveira-Filho RM, Issao M. Eugenol improvement due to aging. A laboratory appraisal. *Aust Dent J*. 1975 Oct;20(5):283–6.

O'Connor AB, Healy O. Long-term post-intensive behavioral intervention outcomes for five children with Autism Spectrum Disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2010 Oct;4(4):594–604.

Olsson MB, Westerlund J, Lundström S, Giacobini M, Fernell E, Gillberg C. “Recovery” from the diagnosis of autism - and then? *Neuropsychiatr Dis Treat*. 2015;11:999–1005.

Ospina MB, Krebs Seida J, Clark B, Karkhaneh M, Hartling L, Tjosvold L, et al. Behavioural and Developmental Interventions for Autism Spectrum Disorder: A Clinical Systematic Review. Sampson M, editor. *PLoS ONE*. 2008 Nov 18;3(11):e3755.

Perry A, Blacklock K, Dunn Geier J. The relative importance of age and IQ as predictors of outcomes in Intensive Behavioral Intervention. *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2013 Sep;7(9):1142–50.

Perry A, Cummings A, Dunn Geier J, Freeman NL, Hughes S, LaRose L, et al. Effectiveness of Intensive Behavioral Intervention in a large, community-based program. *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2008 Oct;2(4):621–42.

Perry A, Cummings A, Geier JD, Freeman NL, Hughes S, Managhan T, et al. Predictors of outcome for children receiving intensive behavioral intervention in a large, community-based program. *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2011 Jan;5(1):592–603.

Popper KR, Thyssen-Rutten N, Devaux P. La logique de la découverte scientifique. Paris: Payot; 1973.

Ramey CT, Ramey SL. Early intervention and early experience. *Am Psychol*. 1998 Feb;53(2):109–20.

Richards AL, Walstab JE, Whright-Rossi RA, Simpson J, Reddihough DS. One-year follow-up of the outcome of a randomized controlled trial of a home-based intervention programme for children with autism and developmental delay and their families. *Child: Care, Health and Development*. 35:593–602.

Rothenberg BM, Marbella A, Belinson SE, Samson DJ, Bonnell CJ, Ziegler KM, et al. Therapies for children with autism spectrum disorder. *Effective healthcare program*. 2011;(26):1–145.

Sallows GO, Graupner TD. Intensive behavioral treatment for children with autism: four-year outcome and predictors. *Am J Ment Retard*. 2005 Nov;110(6):417–38.

Smith T, Groen AD, Wynn JW. Randomized Trial of Intensive Early Intervention for Children with Pervasive Developmental Disorder. In: Feldman MA, editor. *Early Intervention* [Internet]. Oxford, UK: Blackwell Publishing Ltd; 2004. p. 153–82.

Strauss K, Mancini F, Fava L. Parent inclusion in early intensive behavior interventions for young children with ASD: A synthesis of meta-analyses from 2009 to 2011. *Research in Developmental Disabilities*. 2013 Sep;34(9):2967–85.

Strauss K, Vicari S, Valeri G, D’Elia L, Arima S, Fava L. Parent inclusion in Early Intensive Behavioral Intervention: The influence of parental stress, parent treatment fidelity and parent-mediated generalization of behavior targets on child outcomes. *Research in Developmental Disabilities*. 2012 Mar;33(2):688–703.

Woodman AC, Smith LE, Greenberg JS, Mailick MR. Contextual Factors Predict Patterns of Change in Functioning over 10 Years Among Adolescents and Adults with Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2016 Jan;46(1):176–89.

Woodman AC, Smith LE, Greenberg JS, Mailick MR. Contextual Factors Predict Patterns of Change in Functioning over 10 Years Among Adolescents and Adults with Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2016 Jan;46(1):176–89.