

NATIONAL COLLABORATING CENTRE
FOR ABORIGINAL HEALTH



CENTRE DE COLLABORATION NATIONALE
DE LA SANTÉ AUTOCHTONE

SYNDROME D'ALCOOLISATION FŒTALE ET ENSEMBLE DES TROUBLES CAUSÉS
PAR L'ALCOOLISATION FŒTALE CHEZ LES PEUPLES AUTOCHTONES



**UNE ANALYSE DOCUMENTAIRE DE LA
PRÉVALENCE**

PRÉPARÉE PAR
M. MICHAEL PACEY

FÉVRIER 2008
PUBLIÉE EN SEPTEMBRE 2009

NATIONAL COLLABORATING CENTRE
FOR ABORIGINAL HEALTH



CENTRE DE COLLABORATION NATIONALE
DE LA SANTÉ AUTOCHTONE

© Centre de collaboration nationale de la santé autochtone, CCNSA, 2009-2010.

Le Centre de collaboration nationale de la santé autochtone soutient le renouveau du réseau de santé publique du Canada qui est inclusif et respectueux des divers peuples des Premières Nations, des Inuits et des Métis. Le CCNSA est financé par l'Agence de la santé publique du Canada et est basé à l'University of Northern British Columbia, à Prince George, en Colombie-Britannique. La production du présent rapport a été rendue possible grâce à la contribution financière de l'Agence de la santé publique du Canada. Les opinions exprimées ici ne représentent pas nécessairement le point de vue de l'Agence de la santé publique du Canada.

Centre de collaboration nationale de la santé autochtone
University of Northern British Columbia
3333, University Way
Prince George C.-B. V2N 4Z9

Pour de plus amples renseignements :

Courriel : nccah@unbc.ca
Site Web : www.nccah.ca
Bureau : 1 250 960-5250



National Collaborating Centre
for Aboriginal Health

Centre de Collaboration Nationale
de la Santé Autochtone

Table des matières

1.0 Résumé	i.
2.0 Portée du présent rapport	ii.
3.0 Prévalence	1
4.0 Prévalence dans les populations autochtones	14
5.0 Estimation de l'ampleur et des coûts	20
6.0 Conclusions	22
7.0 Annexes	25
8.0 Références	27



National Collaborating Centre
for Aboriginal Health

Centre de Collaboration Nationale
de la Santé Autochtone

Le CCNSA fait appel à une méthode externe d'examen à l'aveugle pour les documents axés sur la recherche, qui font intervenir des analyses documentaires ou une synthèse de connaissances, ou qui entreprennent une évaluation des lacunes au chapitre des connaissances. Nous aimerions reconnaître la contribution de nos analystes dont les commentaires constructifs nous ont aidés à améliorer la qualité de ce manuscrit.

La présente publication a été financée par le Centre de la collaboration nationale de la santé autochtone et tous les droits sont réservés au CCNSA. Les opinions exprimées dans la présente publication, toutefois, sont celles de l'auteur et ne reflètent pas nécessairement celles du CCNSA.

Pour de plus amples renseignements, veuillez communiquer avec le :

Centre de la collaboration nationale de la santé autochtone
University of Northern British Columbia
3333, University Way, Prince George C.-B. V2M 4R8 Canada
Téléphone : 250 960-5250
Courriel : nccah@unbc.ca

Il est possible de télécharger la présente publication à l'adresse suivante : www.nccah.ca.



1.0 Résumé

Dans certains cas, les enfants issus des femmes qui ont consommé de l'alcool durant leur grossesse peuvent en subir des effets néfastes toute leur vie. Ce peut être un problème de croissance, certaines caractéristiques du visage et des complications du système nerveux central qui se traduisent par des troubles d'apprentissage, des difficultés à socialiser ou des problèmes de comportement. Ces conséquences ont été regroupées sous une même appellation, soit l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foetale (ETCAF) qui comprend le syndrome de l'alcoolisation foetale (SAF).

Comme Tait (2003) le suggère, une grande proportion des recherches canadiennes sur le SAF portent sur les peuples autochtones et appuient une croyance répandue selon laquelle la consommation abusive de substances toxiques durant la grossesse est plus fréquente chez les femmes autochtones que chez les autres. Toutefois, on ne connaît pas la véritable ampleur du SAF et de l'ETCAF dans les populations autochtones et non autochtones et, par conséquent, il n'est pas possible de déterminer si la prévalence est plus élevée.

Le présent rapport porte exclusivement sur la documentation publiée sur le SAF et l'ETCAF, et met en lumière un certain nombre de constatations :

- » Les estimations publiées sur la prévalence et l'incidence de l'ETCAF et du SAF sont trop diversifiées sur le plan de la méthodologie pour fournir des taux de référence propres aux Autochtones.

- » Il peut y avoir une importante discordance entre les estimations publiées et ce que nous apprennent les collectivités autochtones et les cliniciens.
- » Certaines études canadiennes publiées portant tout particulièrement sur les Autochtones concernent des collectivités soumises à un risque élevé et peuvent laisser croire que l'ETCAF est plus répandu chez les Autochtones.
- » Étant donné que la population autochtone constitue une proportion relativement petite de la population canadienne, en termes absolus, la plupart des cas de SAF/ETCAF se retrouvent probablement dans la population non autochtone.

2.0 Portée du présent rapport

Le présent rapport offre un aperçu de la documentation qui existe sur la prévalence ou l'incidence de l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation fœtale (ETCAF) et le syndrome de l'alcoolisation fœtale (SAF) chez les peuples autochtones du Canada. Plutôt que d'offrir une analyse documentaire systématique qui suppose une question de recherche clinique précise, et qui recherche, détermine et résume les indices probants à notre disposition (Montori, Wilczynski, Morgan et Haynes, 2003), le présent aperçu se veut narratif. La raison pour laquelle c'est surtout la prévalence qui retient notre attention est qu'il est nécessaire de se pencher d'abord sur les caractéristiques épidémiologiques du SAF/ETCAF avant de considérer toute autre tâche, et de recourir sans cesse à la documentation en vue de justifier la politique et de poursuivre la recherche.

Il ne s'agit pas d'une analyse complète de toute la documentation qui existe sur le SAF et l'ETCAF. Ce rapport ne résume pas l'importante recherche en laboratoire effectuée sur le SAF/ETCAF, puisque ce qui nous intéresse, c'est la prévalence, mais pas nécessairement les causes sous-jacentes. En outre, il existe une documentation d'importance primordiale sur le SAF qui ne figure pas dans la présente discussion. L'épidémiologie n'est pas bien outillée pour fournir des explications qui tiennent compte des antécédents historiques ou des dimensions non mesurables du statut socioéconomique. La nature du SAF liée au sexe, en tant que conséquence possible à prévenir liée au comportement des femmes, a fait craindre une « panique morale » concernant la consommation d'alcool durant la grossesse. Comme l'ont prétendu Armstrong et Abel (2000), cela peut avoir détourné l'attention des inégalités sociales et déplacé le blâme sur la mère plutôt que sur la situation sociale. Ces préoccupations sont d'autant plus pertinentes que le double péril d'être femme et autochtone suggère qu'il y aurait du travail à faire « de l'autre côté » du pont méthodologique. Par conséquent, il y aurait bien du travail qualitatif à accomplir sur le SAF, mais cela est hors de propos du présent rapport.

Différents lecteurs consulteront ce rapport. Il s'agit d'un ouvrage épidémiologique mais, à l'intention des lecteurs qui ne seraient pas familiers avec le langage ou la terminologie de cette recherche, certains termes sont accompagnés d'une explication au besoin.

Recherche des indices probants

Les études décrites dans ce rapport proviennent de plusieurs sources, en particulier des bases de données Medline et Web of Science. Nous avons d'abord utilisé la vedette MeSH « fetal alcohol syndrome » (syndrome de l'alcoolisation foetale) pour trouver des articles sur le SAF dans Medline. Il n'existe aucune vedette MeSH pour l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foetale. Pour l'ETCAF, nous avons tout d'abord effectué une recherche par mots-clés dans tous les domaines. Étant donné qu'un grand nombre d'articles de laboratoires biomédicaux sur les effets tératogènes de l'alcool concernaient des études réalisées sur des animaux, nous avons utilisé d'autres mots-clés en vue de nous limiter aux recherches sur les populations. Ces mots-clés concernaient le type d'étude (cas-témoin; cohorte); certaines régions géographiques (Canada; États-Unis); et des populations (Autochtones; Premières Nations; Inuits; Métis; ainsi que le terme « *Indian* » (Amérindiens), surtout pour trouver les recherches effectuées aux États-Unis) et le terme prévalence. À la suggestion d'un analyste, nous avons effectué des recherches complémentaires avec les mots-clés « alcool prénatal » et « alcool et grossesse ».

Nous avons également recherché d'autres articles dans les références des études retenues, et nous avons eu recours à la fonction *cited reference search* (recherche dans les références recensées) de la base de données ISI Web of Knowledge pour trouver une documentation complémentaire citant des articles précis trouvés aux premières étapes de la recherche. Nous mentionnons également dans le présent rapport la littérature grise des administrations fédérales et provinciales de la santé, tout en leur conférant un caractère strictement informatif. En raison du nombre relativement modeste d'études sur les populations portant sur le SAF/ETCAF, la fenêtre historique de cette revue est plus profonde qu'elle pourrait l'être pour d'autres résumés de rapports d'études cliniques.

3.0 Prévalence

Puisqu'on ne connaît pas la véritable prévalence de l'ETCAF dans la population, autochtone ou autre, on rencontre un certain nombre de paradoxes dans les taux rapportés. Par exemple, dans le contexte américain, les femmes américaines consomment beaucoup moins d'alcool comparativement au reste du monde. Pourtant, l'incidence du syndrome de l'alcoolisation foetale (SAF) aux États-Unis est peut-être la plus élevée du monde (Abel, 1998a). Par ailleurs, le SAF présente un autre paradoxe. D'une part, on s'entend à dire dans les collectivités autochtones et dans la communauté d'intervenants en santé de la population que le SAF est prévalent et représente une grave menace pour la santé dans de nombreuses collectivités autochtones (Stout, Kipling et Stout, 2001)¹. Les femmes inuites, en particulier, ont mentionné le besoin d'études sur la prévalence du SAF, avec des outils de prévention et d'éducation élaborés sur place, parmi les besoins prioritaires d'information en matière de santé (Stout, et coll., 2001). D'autre part, la preuve épidémiologique n'est pas concluante, non seulement en ce qui concerne l'incidence du SAF et l'ensemble plus large des troubles causés par l'alcoolisation foetale (ETCAF) dans les collectivités autochtones, mais également dans l'ensemble de la population canadienne. Par conséquent, il y a une « épidémie de SAF » (Robinson, 1992) et, en raison de l'absence de données comparatives sûres dans la population non autochtone, une opinion divergente à celle voulant que la prévalence soit plus élevée chez les peuples autochtones est impossible à déterminer (MacMillan, MacMillan, Offord et Dingle, 1996).

Il est probable que les deux situations soient plus ou moins justes. Les données non scientifiques sur l'ampleur du problème concernant le SAF reflètent probablement une prévalence non dénombrée sous-jacente. Dans un contexte épidémiologique, toutefois, les données probantes ne proviennent que d'études soigneusement conçues pour réduire les biais au minimum, ou à partir de données administratives de qualité connue. La connaissance directe du SAF ne respecte pas les critères épidémiologiques; la connaissance épidémiologique ne respecte pas le savoir expérientiel. Ces deux formes de connaissances peuvent se rejoindre jusqu'à un certain point, mais il faut approfondir la recherche dans les deux domaines avant de pouvoir disposer d'un ensemble d'indices probants clairs et au-dessus de tout soupçon.

La présente analyse documentaire porte surtout sur la documentation de recherche qui existe sur le SAF et l'ETCAF chez les peuples autochtones du Canada. Notre analyse documentaire commence par un aperçu des définitions actuellement acceptées pour passer ensuite aux critères de diagnostic; à l'essentiel de l'incidence et de la prévalence et aux difficultés de mesurer le SAF et l'ETCAF. Elle se poursuit par la prévalence dans la population générale, pour se terminer par un aperçu de la prévalence dans les populations autochtones. L'analyse prend fin sur une estimation de l'ampleur du SAF/ETCAF et des coûts qui s'y rapportent sur le plan économique.

1 Le terme « collectivité » dans ce rapport fait référence aux personnes du groupe. En référence aux populations autochtones, le terme « collectivité » peut s'utiliser d'un certain nombre de façons. Il peut faire référence à une Première nation ou à une collectivité inuite ou métisse donnée, ou il peut s'appliquer à un sous-groupe au sein d'une population autochtone dans laquelle il peut y avoir des différences distinctes dans la nature ou l'ampleur des cas de SAF/ETCAF. Par exemple, il peut y avoir d'importantes différences entre les populations autochtones urbaines et rurales au regard de la prévalence du SAF/ETCAF, quoique cet aspect n'ait pas été beaucoup exploré. En général, le terme « collectivité » réfère dans le présent rapport à une Première Nation. Notons que le terme « Autochtone » comprend non seulement les Premières Nations, mais également les peuples métis et inuits qui font face à un grand nombre des mêmes enjeux au chapitre de l'ETCAF.

Définitions

On trouvera les définitions de base de certains termes utilisés dans le présent rapport dans le tableau 1. Les critères canadiens de diagnostic actuels (décrits plus en détail ultérieurement) qui y figurent concernent l'ETCAF, le SAF, le TNDLA et le SAFp. Ils concernent également les effets de l'alcoolisme foetal (EAF) et les anomalies congénitales liées à l'alcool (ACLA), car certaines études antérieures y font référence.

Tableau 1. Définitions de certains termes utilisés dans le présent rapport

Ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foetale (ETCAF)	Le sigle ETCAF est un terme général désignant tout un éventail d'effets qui peuvent se manifester chez un sujet dont la mère a consommé de l'alcool durant la grossesse (Chudley, Conry, Cook, Loock, Rosales & LeBlanc, 2005). Ce n'est pas un diagnostic clinique en soi.
Syndrome de l'alcoolisation foetale (SAF)	Le SAF fait partie de l'ETCAF. Les critères de diagnostic canadiens les plus récents du SAF requièrent l'exposition confirmée du fœtus à l'alcool et trois anomalies générales : retard de croissance prénatal ou postnatal; dysmorphies caractéristiques, y compris un aspect particulier du visage; et des indices d'anomalie du système nerveux central (SNC) (Chudley, et. al., 2005). Même si on a élaboré divers critères de diagnostic en vue de mieux quantifier ces relations, les éléments de base du SAF n'ont pas changé depuis l'élaboration des premiers critères durant les années 1970 (Riley & McGee, 2005).
SAF partiel (SAFp)	Le diagnostic du SAFp comprend les mêmes troubles que celui du SAF, mais sans critère relatif à la croissance et avec moins d'anomalies du visage requises.
Trouble neurologique du développement lié à l'alcool (TNDLA)	Pour le TNDLA, la liste de critères diminue encore davantage. Son diagnostic nécessite les mêmes anomalies du SNC que le SAF et le SAFp ainsi que l'exposition prénatale confirmée à l'alcool, mais sans trouble de la croissance ni anomalie faciale (Chudley, et. al., 2005). Les critères de diagnostic du SAF, du SAFp et du TNDLA sont décrits plus en détail ci-dessous et à l'annexe A.

Effets de l'alcoolisme foetal (EAF)

Les EAF sont une « manifestation moins complète » du SAF. Dans une définition pratique, une personne ayant deux troubles de la croissance, une dysmorphie faciale ou une anomalie du système nerveux central (Spohr, Willms et Steinhausen, 2007). L'appellation EAF a fait l'objet de critiques comme étant inappropriée du fait qu'elle suppose un lien causal entre l'exposition et la conséquence, et est souvent mal définie (Sampson, et coll., 1997).

Anomalies congénitales liées à l'alcoolisme (ACLA)

Les ACLA font généralement référence aux affections cliniques pour lesquelles la recherche chez l'humain ou chez l'animal a établi un lien entre la consommation d'alcool par la mère et une conséquence observée, avec antécédents de consommation d'alcool (Chudley, et coll., 2005). Alors que le TNDLA fait référence aux anomalies du SNC ou du comportement, les ACLA sont des conséquences physiques. Toutefois, les ACLA ne constituent pas une catégorie diagnostique en soi dans les lignes directrices canadiennes sur l'ETCAF.

Le premier à avoir suggéré un ensemble d'anomalies congénitales associées à l'exposition *in utero* à l'alcool est Lemoine dans un exposé de cas en 1968 (Lemoine, 2003), qui a été suivi par celui de Jones, Smith, Ulleland et Streissguth en 1973. L'article de Lemoine est fondamental et compte beaucoup plus de cas (n=127), mais a été publié dans la francophonie et n'a pas attiré beaucoup d'attention. L'article ne tire guère de conclusions sur le syndrome observé et ne présente pas de critères de diagnostic (Hoyme, et coll., 2005). L'article de Jones et coll. résume huit cas d'enfants de mères alcooliques de Seattle, dans l'État de Washington, qui présentaient un ensemble d'effets semblable, y compris la dysmorphie craniofaciale, de même que les anomalies des membres et du système cardiovasculaire liées au trouble de croissance et au retard de développement ayant débuté avant la naissance.

Les cuites d'un soir semblent jouer un rôle important dans le développement de l'ETCAF. Dans une étude secondaire menée par Barr et Streissguth (2001) et liée à une étude longitudinale de plus grande envergure sur 1 439 accouchements simples dans l'État de Washington en 1974-1975, 38,4 % des femmes ayant mentionné boire au moins cinq verres d'alcool par mois et prendre des cuites d'un soir (n=73) avaient des enfants atteints d'un ETCAF (n=28). Les femmes ayant mentionné boire quotidiennement ou presque, mais sans prendre de cuites d'un soir (n=99), avaient proportionnellement moins d'enfants atteints d'un ETCAF (n=8; 8,1 %), ce qui suggère que les cuites d'un soir et le volume total peuvent jouer un rôle dans le SAF. Il existe un débat, toutefois, à savoir s'il existe un taux « sécuritaire » de consommation d'alcool². Dans une méta-analyse de vingt-quatre études, Polygenis, Wharton, Malmberg, Sherman, Kennedy, Koren, et Einarson (1998) n'ont trouvé aucun indice probant d'augmentation des malformations congénitales associée à une consommation modérée (plus

² Les médecins, par exemple, reçoivent parfois des réponses contradictoires lorsqu'ils veulent savoir si une consommation faible ou modérée est dommageable. Dans une étude des manuels d'obstétriques publiés depuis 1990, 24 % d'entre eux recommandaient toujours l'abstinence durant la grossesse, et 52 % d'entre eux se contredisaient, admettant une certaine consommation dans des sections tout en recommandant l'abstinence dans d'autres (Loop, K., et Nettleman, M. (2002), cité dans Clarke et coll., 2005).

de deux verres par semaine jusqu'à un maximum de deux verres par jour) d'alcool et un groupe important de malformations physiques à la naissance. Le rapport de cotes des malformations chez les consommateurs modérés était de 1,01 (IC à 95 % : 0,94 à 1,08). La présence de malformations à la naissance ne confirme pas nécessairement un SAF, mais ces résultats suggèrent un seuil potentiel pour l'alcool, après lequel la relation dose-effet s'applique. Il y a des indices probants d'une relation dose-effet sans seuil pour les conséquences sur le comportement neurologique. Plutôt que d'utiliser le diagnostic d'EAF ou SAF comme principale variable, Sampson, Streissuth, Bookstein et Barr (2000) ont examiné la relation continue entre diverses mesures d'exposition et les conséquences, en utilisant des données de l'étude longitudinale de Seattle, dans l'État de Washington. Dans leur analyse, c'est le volume quotidien de consommation d'alcool qui variait le plus, mais pour ce qui est du nombre moyen de verres par occasion, les résultats révèlent toujours une diminution régulière des conséquences sur le comportement neurologique avec l'augmentation de la consommation.

Pour ce qui est du développement mental du bébé, une méta-analyse semblable de Testa, Quigley et Eiden (2003) a révélé un effet linéaire négatif entre le taux d'exposition et les scores à l'indice de développement mental chez les bébés de 12 et 13 mois, mais pas à d'autres âges. L'ampleur des effets dans les études diminuait après la prise en compte de covariables, qui varient selon les études considérées. Du point de vue de l'auteur, la conclusion la plus frappante de cette méta-analyse est que l'ensemble des recherches pertinentes n'est pas aussi vaste ni aussi concluant qu'on pourrait s'y attendre, en particulier à la lumière de l'incidence exercée par la documentation sur la consommation d'alcool durant la grossesse sur la politique et les normes sociales.

Critères de diagnostic

On trouvera à l'annexe 1 une série de critères potentiels de diagnostic récemment suggérée par un sous-comité du Comité consultatif national sur l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation fœtale de l'Agence de la santé publique du Canada (Chudley et coll., 2005). Le SAF, le SAFp et le TNDLA font l'objet de sections séparées. En vertu de ces critères, le SAF se caractérise par l'exposition de la mère à l'alcool, en l'absence de tout autre diagnostic :

- » Une dysmorphie distinctive ou un ensemble d'anomalies physiques associé au SAF, y compris des caractéristiques du visage comme l'aplatissement de la région située entre la lèvre supérieure et le nez (sillon sous-nasal), l'amincissement de la lèvre supérieure, des brides épicanthiques, et une fente palpébrale étroite, ou la longueur de l'espace entre les bords des paupières.
- » Effets sur le système nerveux central (SNC) qui s'expriment par un ensemble particulier de comportements potentiels décrits plus en détail dans l'annexe.
- » Indices de retard de croissance prénatals et postnatals touchant le poids ou la longueur à la naissance; la taille ou le poids actuel; le rapport entre le poids et la taille au 10^e ou inférieur au 10^e percentile pour l'âge.

Le SAF partiel se rapproche de la définition du SAF, mais comporte moins d'anomalies faciales et ne comporte aucun critère relatif au retard de croissance. Comme dans le cas du SAF et du SAFp, un diagnostic de trouble neurologique du développement lié à l'alcool (TNDLA) nécessite la présence de troubles du SNC tels que décrits à l'annexe A, mais sans la dysmorphie ni les troubles de croissance. Bien qu'on ait aussi utilisé les anomalies congénitales liées à l'alcool (ACLA) pour décrire une grande variété de conséquences de l'exposition prénatale à l'alcool, ces lignes directrices suggèrent qu'il faut les utiliser avec prudence et non comme terme diagnostique ou générique.

Ces critères ressemblent à d'autres critères élaborés en vue de diagnostiquer l'ETCAF, mais ne sont pas identiques. Aux États-Unis, l'Institute of Medicine (IOM) a publié en 1996 des lignes directrices pour diagnostiquer le SAF et les effets de l'alcoolisation chez les enfants (Stratton, Howe et Battaglia, 1996). Ces lignes directrices, toutefois, ne sont pas suffisamment détaillées pour assurer la précision du diagnostic et comprennent des catégories qui ne nécessitent pas de confirmer la consommation d'alcool par la mère. S'ils comprennent les éléments généraux du SAF, ils ne comprennent pas de repères quantitatifs propres à son évaluation. Pour y remédier, Astley et Clarren (2000) ont publié un ensemble de critères qui fait appel à un code diagnostique à 4 chiffres en vue d'aider les cliniciens. Ces critères ont été incorporés aux plus récentes lignes directrices des Centers for Disease Control (2005) afin de déterminer qui est atteint du SAF³, et on fait la promotion d'une version harmonisée dans les lignes directrices canadiennes de 2005.

Les critères de diagnostic pour les troubles liés à l'ETCAF comportent d'importantes ambiguïtés qui pourraient mener à des évaluations divergentes selon la population à l'étude et la période de temps couverte par l'étude. Bien que le SAF puisse se situer à la toute dernière extrémité de la courbe de gravité des effets potentiels sur l'enfant de la consommation d'alcool par la mère (Canadian Perinatal Surveillance System, 1998), les conséquences sur la croissance et le SNC coûtent probablement plus cher à la personne ou à sa collectivité. Du point de vue autochtone, les caractéristiques faciales associées au SAF ne sont pas nécessairement applicables (Bray et Anderson, 1989). Le phénotype peut s'appliquer aux populations caucasiennes et afro-américaines, mais il n'existe aucune norme pour les autres populations (Chudley, et coll., 2005). Les présentations du SAF partiel sans ces marqueurs sont toutefois plus difficiles à classer et les personnes dont le diagnostic de SAF n'a pas été confirmé pour cette raison risquent plus que les autres de ne pas recevoir les soins adéquats (Astley, 1997).

Bien que les caractéristiques de base du SAF figurent dans les critères de diagnostic tels que ceux mentionnés ci-dessus, certaines caractéristiques du SAF/ETCAF conduisent à des définitions générales ambiguës. Cela s'explique en partie par le fait que les caractéristiques associées au SAF, y compris les conséquences sur l'aspect du visage, la croissance et le SNC, varient au cours du développement (Abel, 1998b). Les caractéristiques faciales peuvent également faire penser aux phénotypes propres à l'origine ethnique, ce qui peut mener à une surestimation de la prévalence dans certaines populations (Abel, 1995). Les caractéristiques liées au comportement ne sont pas nécessairement apparentes à la naissance et peuvent se manifester

3 Les lignes directrices de CDC n'indiquent pas, toutefois, que la dysmorphie faciale typique associée au SAF ne puisse pas s'appliquer aux populations autochtones. Les critères de diagnostics suggèrent plutôt au clinicien d'effectuer l'évaluation en fonction de « normes raciales » (c.-à-d. celles appropriées à la race du sujet) sans préciser quelles pourraient être ces normes (CDC, 2005).

graduellement pendant les premières années de vie jusqu'aux premières années du primaire (Aase, 1994). En outre, les lignes directrices concernant l'ETCAF reposent sur la compétence de l'observateur, ce qui risque d'entraîner des biais. Le recours à un code pour effectuer le diagnostic peut toutefois contribuer à réduire ce type de variabilité.

La validité et la fiabilité sont des éléments essentiels de la conception d'une étude. La validité dans ce contexte est jusqu'à quel point un instrument parvient à mesurer ce qu'il est supposé mesurer. La fiabilité est jusqu'à quel point on peut reproduire les résultats d'une méthode de mesure (Kelsey, Whittemore, Evans et Thompson, 1996). Dans le cas du SAF, Abel (1998a) a remarqué qu'on n'a publié aucune étude de la fiabilité des paradigmes de diagnostic du SAF. Au moment de rédiger ces pages, un seul article semble vérifier la fiabilité du diagnostic de SAF.

Dans leur première présentation des critères de classification à 4 chiffres de l'ETCAF, Astley et Clarren (2000) ont réexaminé 454 patients à une clinique de SAF de l'University of Washington. Tous les sujets ont d'abord été classés selon l'évaluation qualitative qui repose sur les critères relatifs à la morphologie, à la croissance et au SNC, soit sur une « *gestalt* »⁴ plutôt que sur une méthode systématique. Par comparaison, on a repris l'évaluation des mêmes personnes, mais au moyen du code diagnostique à 4 chiffres. Ce code reflète l'ampleur de l'expression du trouble de croissance, de l'exposition à l'alcool durant la grossesse, du dysfonctionnement cérébral et des caractéristiques faciales typiques du SAF. Avec les premières données, on a diagnostiqué le SAF chez 69 personnes. Lorsqu'on a repris l'examen, onze personnes correspondaient aux critères du SAF selon le code à 4 chiffres. Effets possibles de l'alcoolisme fœtal, une catégorie beaucoup plus générale qui se caractérise surtout par l'absence de troubles de la croissance, un léger phénotype facial et la « possibilité » de lésions cérébrales, a été révélée de façon semblable par les deux méthodes de diagnostic (*gestalt*=344; 4 chiffres=365) (Astley et Clarren, 2000).

Dans un essai de fiabilité interne, Astley et Clarren (2000) ont repris l'évaluation de 20 cas choisis au hasard dans le groupe. Chacun de ces cas avait été antérieurement évalué selon le code à 4 chiffres. Sans connaître les résultats de la première évaluation, les auteurs ont obtenu les mêmes résultats pour les 20 sujets. Dans cet exemple, bien que les deux méthodes couvrent des catégories générales, la reproductibilité entre les deux mesures était minime. Malgré la fiabilité du code à 4 chiffres à l'interne, les équipes qui ont participé aux évaluations et aux reprises d'évaluations avaient participé directement à l'élaboration du code à 4 chiffres. Il faudrait procéder à d'autres essais de fiabilité effectués par des cliniciens de l'extérieur. En outre, l'étude ne valide pas la méthode à 4 chiffres. Même si cette méthode est plus cohérente à l'interne, il est difficile d'évaluer si elle a vraiment détecté les cas de SAF avec plus de précision que la méthode moins structurée.

Hoyme et coll. (2005) ont remarqué que les caractéristiques relatives au comportement neurologique et aux encéphalopathies du code à 4 chiffres ne sont pas précisément définies dans ces critères, et ne se retrouvent pas uniquement dans les effets prénatals de l'alcool sur le développement du fœtus. Les antécédents familiaux et génétiques ne sont pas non plus adéquatement incorporés à ces critères. Hoyme et coll. ont constaté que la possibilité de faux

4 Astley, Clarren et Abel (1998) ont recours à une *gestalt* diagnostique voulant que la somme soit plus grande que l'ensemble de ses parties. Comme l'explique Abel (1998), chaque élément pris isolément peut être inhabituel, mais c'est seulement lorsqu'ils se manifestent en même temps que ces éléments disparates prennent la forme d'un syndrome.

positifs est supérieure avec cette méthode, car un enfant ayant une déficience qui a été exposé à l'alcool avant sa naissance pourrait être classé parmi les cas diagnostiqués, même si la cause de sa déficience est génétique (Hoyme, 2005).

En pratique, les médecins peuvent se croire compétents pour évaluer les cas d'ETCAF, mais ne pas tous avoir la même habileté ou la même compréhension des critères de diagnostic. Clarke, Tough, Hicks et Clarren (2005) ont effectué un sondage auprès des praticiens du Canada, dans le dessein d'évaluer leur connaissance de l'ETCAF et leur attitude par rapport au diagnostic de l'ETCAF. Les auteurs ont constitué, au hasard, un échantillon de médecins de famille (n=2 378), de pédiatres (1 396), de psychiatres (1 439), de sages-femmes (197) et d'obstétriciens (539). Peu d'entre eux ont répondu (41,3 %)⁵. Mis à part les sages-femmes, la plupart (75 %) des praticiens se disaient que le diagnostic du SAF ou d'EAF faisait partie de leurs attributions, et une bonne majorité d'entre eux (94 %) considéraient le SAF comme un syndrome identifiable. Une petite majorité (56,4 %) était d'avis que leur difficulté à poser le diagnostic était attribuable à un manque de formation. Une majorité était également d'avis qu'une certaine forme d'aide serait utile, comme des spécialistes à consulter (61,8 %) et des lignes directrices de pratique pour le SAF (60,8 %). Moins de 60 % des répondants à ce sondage ont mentionné la combinaison des troubles de la croissance et des anomalies cérébrales et faciales comme meilleur moyen d'évaluer le SAF.

Bien qu'on observe une constance quant aux éléments du syndrome, de petites variations dans les définitions peuvent conduire à d'importantes sous-estimations et sur-estimations de la constatation des cas, ce qui peut avoir une incidence sur l'estimation de la prévalence du SAF. Les études de recherche ont peut-être une plus grande maîtrise de l'application des critères. Pour les peuples autochtones, il pourrait être nécessaire de revoir les critères de diagnostic si l'application de critères phénotypiques non validés pour ces populations provoque des erreurs de classification. Bien qu'on n'en parle pas beaucoup dans la documentation, la validation du critère relatif au SNC pour les populations autochtones pourrait aussi s'avérer importante.

Incidence et prévalence

L'incidence et la prévalence sont les composantes de base de l'épidémiologie. L'incidence fait référence à la manifestation d'une nouvelle maladie à un moment donné. On obtient le taux d'incidence en divisant le nombre de nouveau cas d'une maladie pendant, disons, un an, par la population à risque pour cette maladie. La prévalence fait référence à la proportion des personnes à risque qui ont la maladie, y compris les cas existants et les nouveaux cas. Comme l'incidence, la prévalence s'exprime sous forme de taux (Rothman et Greenland, 1998).

La distinction entre l'incidence et la prévalence peut être quelque peu artéfactuelle dans le contexte du SAF/ETCAF. Rothman et Greenland (1998) prétendent que la manifestation de malformations congénitales ne peut être considérée comme une incidence puisque le point de référence est la naissance. Il n'y a pas de « nouveaux cas » qui risqueraient de se déclarer dans

⁵ Le biais potentiel est que les non répondants ont peut-être une différente attitude concernant l'importance du SAF/EAF, leur champ de pratique ou leur connaissance des critères de diagnostic.

une population, puisque la population à risque est constituée des nouveau-nés. À moins que l'incidence change avec le temps, les taux de prévalence et d'incidence demeurent les mêmes pour ce qui est des affections congénitales. Dans le cas du SAF/ETCAF, il est probable que plus les gens seront au courant des effets de la consommation d'alcool durant la grossesse, plus on assistera à une diminution des cas ce qui, pour l'instant, ne semble guère se produire. En ce qui a trait au SAF/ETCAF et pour la suite de ce propos, les taux feront référence à la prévalence à moins que la documentation parle expressément d'incidence.

L'estimation des taux de SAF et d'ETCAF s'est faite à partir d'un certain nombre de modèles d'étude. Les études de surveillance passive recensent les cas à partir de données administratives ou de registres. En second lieu, les études cliniques (ou effectuées dans les hôpitaux) peuvent être rétrospectives ou prospectives et dépendre de la fréquentation de cliniques spécialisées ou du nombre d'admissions dans les hôpitaux pour la constatation des cas. Troisièmement, les études de population portent sur une collectivité ou une population donnée et consistent à rechercher activement les cas par des méthodes de dépistage ou d'autres mesures. En examinant les estimations de la prévalence par modèle d'étude, May et Gossage (2001) se sont aperçus que les études de surveillance passive recensaient constamment des taux inférieurs de SAF, en particulier par rapport aux études actives qui ciblaient des populations connues pour être à risque. Dans certaines études examinées par May et Gossage, les taux de SAF obtenus par les études passives variaient de 0,26 à 2,29 par 1 000 naissances vivantes par rapport à une variation de 1,4 à 9,8 par 1 000 pour les études actives de constatation des cas.

Difficultés à estimer la prévalence

En principe, les taux de prévalence reposent sur deux données : un nombre de cas et un dénominateur de la population à risque. En pratique, l'estimation de la prévalence est entravée par la difficulté de définir les cas et les biais inhérents aux modèles d'étude. La liste suivante n'est pas complète, mais énumère des problèmes mentionnés dans la documentation concernant l'estimation des taux de SAF/ETCAF en particulier. Certains sont d'ordre plus général et d'autres concernent tout particulièrement la prévalence du SAF/ETCAF dans les populations autochtones.

CONSTATATION DES CAS (SUR-ESTIMATION ET SOUS-ESTIMATION) : La façon de définir le SAF et l'ETCAF est d'importance primordiale pour l'estimation de l'incidence. Comme la comparaison des méthodes de la *gestalt* et du code à 4 chiffres le suggère dans l'étude d'Astley et Clarren (2000), une grande variation dans le nombre d'enfants dont le diagnostic de SAF/ETCAF a été confirmé peut découler de l'utilisation de méthodes différentes d'inclusion. Dans le cas de l'ETCAF, l'éventail des effets possibles peut faire en sorte que des cas véritables ne soient jamais diagnostiqués. Dans certains cas, des sur-estimations des cas de SAF peuvent résulter d'une ambiguïté clinique, car on a des raisons de croire que les cliniciens peuvent interpréter les signes de SAF sans faire le lien avec l'exposition à l'alcool consommé par la mère.

ERREUR DE CLASSIFICATION DE L'EXPOSITION ET DU RISQUE : En vertu des lignes directrices du Journal de l'Association médicale canadienne décrites ci-dessus, on ne peut poser le diagnostic de SAF que si la consommation d'alcool par la mère durant la grossesse a été confirmée. La mère ne fournira peut-être pas ce renseignement immédiatement, en particulier si elle est au courant de la tare sociale associée au fait de consommer de l'alcool durant la grossesse, ce qui conduit à un dénombrement incomplet au regard de l'incidence. Les marqueurs biologiques pour l'exposition à l'alcool chez les nourrissons sont en voie d'élaboration, mais des problèmes d'ordre éthique concernant le dépistage à la naissance et la possibilité que les taux de consentement varient pour de tels essais chez les femmes susceptibles d'avoir consommé de l'alcool durant leur grossesse risquent de biaiser les résultats, encore une fois en sous-estimant l'exposition. Les erreurs de classification peuvent être encore plus nombreuses dans le cas des études sur le TNDLA, car les effets associés ne sont pas propres au SAF et pourraient être liés à d'autres expositions. En guise de référence, le texte complet des lignes directrices du Journal de l'Association médicale canadienne énumère neuf autres affections qui pourraient être confondues avec le SAF pour ce qui est de la présentation clinique. Bien qu'aucune de ces affections ne soit identique au SAF, une certaine expertise clinique est nécessaire pour les différencier du SAF.

DÉNOMINATEUR OU POPULATION À RISQUE (SUR-ESTIMATION ET SOUS-ESTIMATION) : Les études axées sur une population géographique donnée pourraient ne pas générer des taux de prévalence applicables à des populations plus grandes. C'est le cas en particulier des estimations chez les Premières Nations, puisqu'un certain nombre d'études portent sur certaines réserves en particulier. Il est probable qu'une réserve donnée ne représente pas la population des Premières Nations dans son ensemble et que chacune puisse connaître des expériences bien différentes quant à la consommation d'alcool et au statut socioéconomique, qu'on peut associer à la consommation d'alcool par les futures mères. Par conséquent, l'application de ces taux à la population autochtone en général pourrait mener à une surestimation du risque de SAF.

SOURCE DES DONNÉES : Bien que certaines études aient utilisé des données administratives ou des registres pour examiner de façon rétrospective les cas d'enfants atteints de SAF, on ne peut utiliser de telles études pour estimer l'incidence réelle dans une population (Fox et Druschel, 2003). Les registres spécialisés ne représentent pas nécessairement la population et, comme on l'a mentionné précédemment, risquent d'entraîner une sous-estimation des taux par rapport aux études de population.

MOMENT DE LA CONSTATATION DES CAS : Même si la naissance peut être le bon moment pour détecter les cas, seuls les cas les plus graves de SAF seront diagnostiqués. Les taux fondés sur les données à la naissance entraîneront une sous-estimation des cas de SAF dans une population. Dans la population en général, le SAF est plutôt décelé chez les enfants de deux à onze ans (Fox et Druschel, 2003). Dans le réseau FASSNet (décrit plus loin dans le présent rapport), la grande majorité des enfants de la cohorte de 1995 à 1997 n'étaient pas d'âge scolaire au moment de la publication. Les effets sur le SNC et les troubles d'apprentissage se manifestent

de façon plus évidente lorsque l'enfant entre à l'école. Par conséquent, si on effectue les études avant l'entrée scolaire, on risque de ne pas dénombrer tous les cas (Center for Disease Control, 2002). D'autre part, des indices probants révèlent que le critère phénotypique du SAF/ETCAF est moins prononcé à mesure que l'enfant vieillit, en particulier après la puberté. Les études restreintes aux sujets plus âgés risquent d'entraîner des erreurs de classification de l'exposition en raison des difficultés de la mère de se rappeler si elle a consommé de l'alcool durant la grossesse.

TAILLE DE L'ÉCHANTILLON : La taille relativement petite de certaines études a des répercussions sur les estimations des cas de SAF. Dans certaines études, pour lesquelles on a utilisé des données administratives ou des registres, y compris Lumley (1985); Sokol (1980); et Sokol (1993) (toutes citées dans Abel, 1995), l'échantillon était supérieur à 10 000 sujets⁶. Dans d'autres, toutefois, le nombre de cas considérés était plus petit, ce qui est problématique puisque le SAF et l'ETCAF sont encore relativement rares dans la plupart des circonstances. Dans l'une des études citées par Sampson et coll. (1997), on a examiné 322 nourrissons dans un hôpital du noyau central de la ville de Boston. Sur les 58 bébés exposés à l'alcool *in utero*, 42 ont été examinés. On n'a posé le diagnostic de SAF chez aucun d'entre eux. L'incidence était donc de zéro. Après un an, un enfant qui avait fait partie de l'étude s'est vu confirmer le diagnostic de SAF. L'incidence a donc augmenté de 3,1 par 1 000 (Sampson et al., 1997). Dans les études dont l'échantillon est petit, l'émergence d'un seul cas peut avoir un effet important sur les estimations, bien que les intervalles de confiance des estimations reflètent la taille de l'échantillon considéré.

PUBLICATION ET BIAIS GÉOGRAPHIQUES, ET L'HYPOTHÈSE DE L'HOMOGENÉITÉ : Certaines études sur le SAF au Canada étaient axées sur les collectivités autochtones où on craint un problème de santé publique, cette préoccupation dérivant du fait qu'on s'attend à des taux de SAF élevés. En conséquence, la prévalence élevée de ces études peut être interprétée à tort comme représentative des collectivités autochtones en général, alors qu'en réalité, ces collectivités sont très variées et diversifiées.

En outre, il existe dans la documentation un biais démographique évident dans les études canadiennes sur le SAF au sein des collectivités autochtones. Il ne semble pas y avoir beaucoup d'articles, s'il y en a, sur des études effectuées dans les collectivités autochtones ailleurs que dans les Prairies ou les provinces de l'Ouest. D'un point de vue culturel, l'absence de recherches effectuées dans l'Est canadien peut signifier que de nombreux groupes culturels et des Premières Nations, y compris les Algonquins, les Ojibwés, les Micmacs et les Haudenosaunees, sont sous-estimés dans les estimations générales de cas de SAF et d'ETCAF dans la documentation médicale.

⁶ Il faut noter que ces études ne déduisent pas d'estimations du dépistage d'une population, mais en examinant des données administratives. Par conséquent, la taille de l'échantillon, bien qu'importante, peut être moins sensible aux cas prévalents comparativement à la vérification proactive des cas.

Prévalence du SAF : Population générale

L'incidence mondiale du SAF a été estimée par Abel (1995) qui a conclu à 0,97 cas par 1000 naissances vivantes⁷. Cette estimation repose sur la mise en commun des résultats de 29 études internationales effectuées de 1977 à 1994. Il y a nettement des différences entre les pays où ces études ont été effectuées. Dans les études étatsuniennes, le taux de SAF était de 1,95 par 1000 naissances vivantes, comparativement à 0,08 par 1 000 pour les autres pays. Le survol d'Abel ne dit rien du modèle des études concernées. Par exemple, Tait (2003) a remarqué que l'étude de Sokol et coll. comprise dans la revue d'Abel (2005) ne fournit pas de critères de diagnostic particuliers ni de détails sur l'exposition à l'alcool. Abel ne fournit pas non plus d'évaluation de la variance de chaque estimation, ni de techniques méta-analytiques autres que les estimations de la moyenne, de la médiane et des taux modaux pour le groupe d'études.

Sampson et coll. (1997) ont entrepris une évaluation plus complexe de la prévalence du SAF et de l'ETCAF, ayant critiqué les études antérieures sur le SAF en ce qui a trait à la constatation des cas et au modèle d'étude. Seulement deux études étatsuniennes se conformaient à leurs critères de détermination d'une prévalence adéquate. Ces deux études étaient des études prospectives de cohorte, dans lesquelles on a effectué un dépistage dans une population de fœtus et suivi les sujets jusqu'à pouvoir évaluer les conséquences à la naissance. Les participants composaient un groupe de nourrissons exposés et un groupe de nourrissons non exposés à l'alcool. Des cliniciens, qui ignoraient lesquels avaient été exposés ou non, ont évalué les nouveau-nés en vue de déterminer s'ils étaient atteints du SAF. Dans l'une de ces études, retenue en raison de son grand échantillon et du grand nombre de données sur le comportement neurologique, on a recueilli les données d'un hôpital de Seattle, dans l'État de Washington, pendant une période d'un an. Sur les 1 439 naissances, deux bébés ont reçu le diagnostic de SAF, pour une incidence de ~1,4 par 1 000 naissances vivantes. Du fait que ce ne sont pas tous les enfants exposés qui ont fait l'objet du dépistage, Sampson et coll. ont calculé un taux rajusté en raison du dépistage incomplet de 2,8 par 1 000. À l'âge de sept ans, on a procédé à cinq vagues d'évaluations psychométriques chez 581 de ces enfants dont le taux d'exposition variait selon la première étude. Les évaluations psychométriques portaient sur l'attention, les troubles neuromoteurs, les troubles mentaux et les troubles d'apprentissage. À partir des données originales, on a défini treize niveaux d'exposition en fonction du moment de la consommation et de la quantité d'alcool consommée par les mères. À partir de ces données, les auteurs ont pu établir un lien entre la quantité consommée et les conséquences de la naissance à sept ans. Les enfants chez qui on a constaté des déficiences constantes dans les mesures des conséquences pendant toute la période, en combinaison avec l'exposition élevée à l'alcool, étaient considérés comme des cas réels de TNDLA. Le taux rajusté en fonction de ces 12 cas est de 8,3 par 1 000 (12/1439).

Fox et Druschel (2003) ont comparé les taux dérivés de divers modèles de registres en comparant les données passives du registre des anomalies congénitales de l'État de New York à un registre conçu spécialement pour dénombrer les cas de SAF. Le registre de SAF, le Fetal Alcohol Syndrome Surveillance Network (FASSNet) est un modèle axé sur la population par

⁷ Pour calculer ce taux, Abel a additionné les cas observés de SAF (95) et a divisé le résultat par la taille totale de l'échantillon. Dans le tableau publié par Abel, le dénominateur est de 97 576, mais après l'addition, les données réelles du tableau totalisent 97 536. L'utilisation de l'un ou l'autre dénominateur donne la même estimation arrondie, soit 0,97 par 1 000 naissances vivantes.

lequel on identifie activement les enfants atteints du SAF ou soupçonnés d'avoir été exposés à l'alcool dans les programmes de diagnostic et de service de l'État. Par contraste, le Congenital Malformation Registry (CMR) de l'État de New York est un registre auquel il est obligatoire de déclarer les enfants ayant une anomalie congénitale, y compris ceux atteints du SAF, jusqu'à l'âge de deux ans. La définition du cas pour le FASSNet se fonde sur les critères de l'Institute of Medicine, alors que le CMR a recours, de façon non spécifique, à la Classification internationale des maladies, version 9 (CIM-9) code 760.71⁸. L'utilisation de ces codes dans les données du CMR explique jusqu'à un certain point pourquoi ces données se traduisent par un nombre important de faux diagnostics positifs lorsqu'on les compare aux données de FASSNet (14/33=42 %). Au total, Fox et Duschel ont réalisé que les 33 cas de SAF du CMR, durant la période d'étude de 1995 à 1998, étaient un nombre de cas très inférieur aux 57 cas dénombrés par le FASSNet. À partir des données sur les naissances de la même période, la prévalence estimée varie de 0,28 par 1 000 pour le CMR à 0,37 par 1 000 pour les données du FASSNet.

Le recours aux codes non spécifiques CIM-9 dans les études antérieures peut être problématique si on veut disposer d'une définition précise des cas. Au début des années 1980, l'American Center for Disease Control a étudié les résumés de cas classés sous le code 760.71 de la CIM-9 dans huit collectivités autochtones de l'Iowa, du Nebraska, du Dakota du Nord et du Dakota du Sud (Center for Disease Control, 1995). Dans leur condensé de ces résumés, le dossier de 74 des 251 cas recensés (29,5 %) ne contenait aucun renseignement sur l'exposition prénatale à l'alcool ou sur la consommation d'alcool par la mère. Le CDC suggère que seulement une petite proportion des cas recensés durant cette période sous les codes de la CIM-9 correspondent à une définition rigoureuse du SAF, mais a recommandé une surveillance constante au moyen de la méthode puisqu'elle détectera probablement plus de présentations générales d'effets néfastes de la consommation d'alcool par la mère durant la grossesse.

L'État de Washington est l'un des quelques territoires de compétence à avoir effectué un suivi de la consommation d'alcool par les futures mères et, durant la même période, à recueillir des données sur la prévalence du SAF. Le Pregnancy Risk Assessment Monitoring System (PRAMS) est un projet du Center for Disease Control axé sur l'attitude des mères durant et après leur grossesse. Depuis sa création en 1987, le PRAMS s'est établi dans 29 États et dans la ville de New York en 2005. Astley (2004) rapporte que, pour l'État de Washington, la consommation d'alcool durant les trois mois précédant la grossesse et durant le troisième trimestre avait considérablement diminué ($p < 0,001$) de 1993 à 1998. Astley établit une corrélation entre cette diminution et une réduction importante de la prévalence du SAF dans la population d'enfants ayant fait l'objet d'un dépistage et ayant été acceptés dans une famille d'accueil dans le comté de King, dans l'État de Washington. La confirmation du diagnostic est presque terminée dans cette population du comté, mais le nombre réel de cas utilisé pour déterminer la réduction du SAF est

8 La CIM-9 et son plus récent remplaçant, CIM-10, sont des codes normalisés pour les maladies et les traitements. La CIM-10, qui est une révision plus complexe de la norme précédente, comprend deux codes pour le lien entre l'alcool et la grossesse : PO4.3 [Fœtus et nouveau-né affecté par la consommation maternelle d'alcool], à l'exclusion du syndrome de l'alcoolisation fœtale; et Q86.0 [syndrome de l'alcoolisation fœtale (dysmorphique)]. Kvinge, Leonardson, Neff-Smith, Brock, Brozelleca & Welty (2004) ont également utilisé le code 760.71 de la CIM-10 pour sélectionner les cas d'une étude effectuée dans les collectivités amérindiennes Northern Plains. Sur 142 de ces cas, seulement 43 (30 %) correspondaient à une définition plus rigoureuse du SAF.

En Ontario, par exemple, les données sur l'hospitalisation et les soins ambulatoires sont abrégées au moyen de la CIM-10-CA (une révision canadienne de CIM-10). On peut se faire une idée de la répartition des cas de SAF à partir de ces registres, mais puisqu'ils ne fournissent que des données sur les patients ambulatoires et hospitalisés, ils sous-estiment beaucoup la prévalence. Les consultations en soins primaires des médecins de l'Ontario sont codées au moyen de codes diagnostiques propres au régime d'assurance-santé de l'Ontario qui ne comprennent pas le SAF ni l'ETCAF.

faible. Durant plus des six années qu'a duré l'étude, 264 enfants ont fait l'objet d'un dépistage qui a recensé cinq cas de SAF dans ce groupe au moyen d'un logiciel d'analyse de photographies du visage et du code diagnostique à 4 chiffres. Ces cinq cas forment la base de l'évaluation d'Astley d'une tendance à la baisse pendant une période de six ans. Il existe d'autres difficultés relatives aux données du PRAMS. Puisque ces données reposent sur une déclaration volontaire, il est possible que certains comportements, en particulier ceux fortement teintés d'une tare sociale, ne soient pas tous signalés. Si le fait de connaître les effets de l'exposition prénatale à l'alcool se répand de plus en plus, nous pouvons nous attendre à ce que les mères déclarent de moins en moins ce comportement, sans qu'il y ait réellement diminution dans les faits. En outre, certaines femmes très à risque de consommer de l'alcool durant la grossesse n'ont peut-être pas d'adresse permanente ou se déplacent peut-être davantage que les autres, ce qui réduit la représentativité des répondantes.

4.0 Prévalence dans les populations autochtones

La présente section constitue un résumé des estimations de la prévalence du SAF et de l'ETCAF trouvées dans la documentation en référence aux populations autochtones. Le tableau 4 résume ces études. Cette section tient compte à la fois des études canadiennes et étatsuniennes. D'autres analyses qui constituent un survol complet de l'épidémiologie du SAF dans les populations autochtones et des limites méthodologiques de ces études comprennent celles de Burd et Moffat (1994) et de Bray et Anderson (1989). L'article de Burd et Moffat contient également des renseignements sur des études non publiées dont il est question ci-dessous. Les limites méthodologiques de ces études ne peuvent être vérifiées au-delà de la description fournie par Burd et Moffat. Notons qu'un certain nombre d'études utilisent le terme effets de l'alcoolisme fœtal (EAF) pour se référer à des expressions plus subtiles comme l'ETCAF.

En général, les études effectuées dans les cliniques ou les villes peuvent sous-estimer le dénombrement des cas réels. D'autre part, les études effectuées dans de petites collectivités soumises à un risque élevé rendent possible le dépistage de presque toute la population, ce qui pourrait entraîner l'observation de taux plus élevés de SAF, comme dans l'étude de Robinson, Conry et Conry (1987).

En 1981, Sandor, Smith, MacLeod, Tredwell, Wood et Newman (1981) ont examiné 76 cas dont le diagnostic de SAF avait été confirmé. Les participants, qui provenaient de la Colombie-Britannique et du Yukon, ont été observés dans des hôpitaux de Vancouver. Sur les 76 cas, 69 étaient d'ascendance autochtone et sept étaient non autochtones. Bien que n'ayant pas pu déterminer directement les taux de SAF/EAF, ils ont estimé que ces taux se situaient entre 1 et 5 cas par 1 000 naissances vivantes. Se fiant à la proportion plus élevée d'enfants autochtones atteints du SAF, les auteurs ont suggéré une prédisposition raciale, mais sans la vérifier, pour les effets tératogènes de l'alcool, mais sans cas témoins pour ce qui est du statut socioéconomique.

May, Hymbaugh, Aase et Samet (1983) ont étudié des collectivités autochtones du sud-ouest des États-Unis au début des années 1980. Les taux de SAF/EAF ont varié au cours de temps, entre les tribus et entre les groupes culturels. De 1969 à 1982, les taux de SAF/EAF chez les Amérindiens (de la naissance à 14 ans) étaient de 2,5 à 2,7 cas par 1 000 naissances dans les cultures Navajo et Pueblo respectivement et de 19,5 dans les groupes culturels Southwest Plains (y compris les nations Apache et Ute). Ces constatations suggèrent qu'une évaluation globale d'une plus grande prévalence chez les peuples autochtones ne tient pas compte des grandes différences potentielles entre les groupes. May et coll. (1983) suggèrent que les différences de taux ne sont pas seulement le résultat des différences dans la consommation d'alcool, mais également des différences de règles sociales entre ces groupes. Ils font également mention d'une parité multiple entre les mères d'enfants atteints du SAF, 85 des enfants affectés ayant été engendrés par 65 mères, un résultat qui figure aussi dans d'autres études. À partir de 300 rapports de cas dont on connaissait le statut de la fratrie, Abel (1998) a constaté que 27 sur 35 frères et sœurs plus jeunes avaient également le SAF, un taux de 771 par 1 000.

Robinson, Conry et Conry (1987) ont présenté le rapport d'un sondage effectué en 1984 dans la réserve de Canim Lake en Colombie-Britannique. Cette collectivité comptait 350 membres. Sur les 123 enfants d'au plus 18 ans vivant dans la collectivité, 116 ont participé à l'étude. On a posé le diagnostic préliminaire de SAF ou EAF chez 22 d'entre eux (18,9 %), ce qui a été établi avant de connaître la situation de leur mère concernant sa consommation d'alcool. La prévalence de SAF/EAF combinée a été estimée à 190 par 1 000 naissances vivantes. On a diagnostiqué le SAF chez huit enfants (prévalence=69 par 1 000) et le EAF chez 14 d'entre eux (prévalence=121 par 1 000). Sur les quarante-cinq mères naturelles de ces enfants, 14 ont donné naissance à au moins un des enfants atteints de SAF/EAF; 12 de ces enfants (54 %) correspondant à cinq des mères.

Dans une étude non publiée d'Asante et Nelms-Matzke effectuée en 1985, citée par Bray et Anderson (1989), on a constaté 82 cas de SAF et 94 cas d'EAF dans un groupe de 781 enfants de 0 à 16 ans du Yukon et du nord-ouest de la Colombie-Britannique pour lesquels on avait demandé une évaluation. De ces enfants, 586 étaient autochtones et 195 non autochtones. Chez les enfants autochtones du Yukon, le taux de SAF a été estimé à 46 par 1 000, ce qui est beaucoup plus que l'estimation de 0,4 par 1 000 chez les enfants non autochtones. On a également estimé à 26 par 1 000 le taux d'EAF chez les enfants autochtones du nord-ouest de la Colombie-Britannique. Puisqu'on savait que les enfants avaient un handicap chronique avant l'étude, ces taux ne reflètent probablement pas l'ensemble de la population (Burd et Moffat, 1994)⁹. Cette étude ne comportait pas de cas témoin pour le statut socioéconomique et on ne disposait pas de données sur la consommation d'alcool des mères.

Kvinge, Leonardson, Neff-Smith, Brock, Brozelleca et Welty (2004) ont étudié les caractéristiques d'enfants recensés pour être atteints du SAF dans quatre cliniques ou hôpitaux desservant les Amérindiens Northern Plains aux États-Unis. Dans deux études distinctes rétrospectives avec cas témoins, Kvinge et coll. ont consulté les dossiers médicaux pour comparer les caractéristiques cliniques et les hospitalisations des enfants atteints du SAF et non atteints du SAF (première étude), et les enfants atteints du SAFp et non atteints du SAF (deuxième étude) nés entre 1981 et 1993. Les critères d'inclusion pour le SAF étaient une consommation prénatale d'alcool confirmée, le diagnostic de SAF posé par un médecin, un retard de croissance et un trouble du SNC. Les enfants qui correspondaient à la définition générale de l'un de ces quatre critères étaient classés parmi les enfants atteints d'un SAF partiel. Dans chaque étude, les cas ont été jumelés à deux cas témoins, mais les critères de sélection des cas témoins ne sont pas mentionnés dans l'article. Cette étude est particulièrement pertinente, parce que les cas témoins non affectés appartenaient également au groupe culturel Northern Plains, faisant en sorte que les caractéristiques faciales associées aux enfants atteints du SAF pouvaient être comparées à une « norme » non caucasienne. Toutes les dysmorphies faciales se présentaient beaucoup plus souvent dans les cas de SAF que dans les cas témoins, en particulier la voûte nasale basse (OR=30,0; 95 % IC : 4,62 à 1263). La plus impressionnante différence entre les cas atteints d'un trouble du SNC et les cas témoins est le retard de développement, apparent chez 74,4 % des cas et chez 2,3 % des cas témoins (OR=122,1; 95 % IC : 22,97 à 872,53). Pour le SAF et le SAF partiel, Kvinge et coll. ont constaté que les retards du développement des mouvements fins et de la motricité globale, et les hospitalisations, étaient beaucoup plus nombreux chez les enfants atteints

9 Le taux de SAF est de 77 % supérieur au taux d'EAF, ce qui est l'inverse de ce à quoi on pourrait s'attendre, et indique encore une fois un biais potentiel.

de SAF et de SAFp que chez les cas témoins.

De 1973 à 1993, 207 cas de SAF ont été recensés dans une étude de Habbick, et coll. (1996) dans la province de la Saskatchewan. De ces cas, 178 étaient autochtones. Au cours d'une période de vingt-quatre ans, le taux de SAF est demeuré constant, soit en moyenne de 0,59 cas par 1 000 naissances vivantes. Dans tous les cas, la consommation d'alcool par la mère durant la grossesse a été confirmée.

Egeland, Perham-Hester, Gessner, Ingle, Berner et Middaugh et coll. (2003) ont entrepris une étude complète des cas de SAF en Alaska de 1977 à 1982. La définition des cas de SAF nécessitait qu'un médecin ait soupçonné ou diagnostiqué le SAF, que l'enfant ait été exposé à l'alcool avant sa naissance ou que la mère ait eu des antécédents de consommation abusive d'alcool, que l'enfant présente les caractéristiques faciales du syndrome de l'alcoolisation fœtale; qu'il manifeste un retard de croissance et une anomalie du système nerveux central. À partir de diverses sources en vue de recenser les cas potentiels, y compris des hôpitaux, des pédiatres, des programmes de l'État d'Alaska, des postes infirmiers en régions rurales, des dossiers de services de santé, des données administratives des demandes de règlement de Medicaid, des certificats de naissance et de décès et des services de santé pour les Autochtones, Egeland et coll. ont constitué une grande cohorte (n=630) de cas potentiels de SAF. De ces cas, 90 % (568) avaient un dossier médical et l'exposition prénatale à l'alcool avait été confirmée dans 462 cas (81 %). Chez 248 personnes (44 %), on avait diagnostiqué ou soupçonné le SAF; 145 présentaient les cinq critères de la définition d'un cas.

Le Tableau 2 indique les taux de prévalence estimés de l'étude d'Egeland et coll. pour les Autochtones et les non Autochtones par période, à partir du nombre total de naissances vivantes en Alaska de 1977 à 1982, le dénominateur étant le moment où les sujets recensés sont nés. Dans ce tableau, on a séparé les taux correspondant aux personnes dont le dossier portait la mention du SAF (« mention du SAF ») et ceux correspondant aux sujets qui présentaient les cinq critères de diagnostic (« cas de SAF »). Egeland et coll. ont remarqué que le nombre supérieur de cas recensés dans la population autochtone peut s'expliquer en partie par la recherche active des cas de la part des services de santé pour Amérindiens, ce qui expliquerait également les lacunes correspondantes en matière de constatation des cas dans la population non autochtone. Sans qu'Egeland et coll. en ait traité particulièrement, on note une différence proportionnellement plus grande entre les « mentions » et les « cas » pour ce qui est des Autochtones, ce qui suggère qu'on a probablement soupçonné plus souvent les enfants autochtones de l'Alaska d'être atteints du SAF¹⁰.

¹⁰ Dans le cas des Autochtones, le nombre de cas durant cette période totalise 114 et le nombre de cas avec mention au dossier était de 195. Chez les non Autochtones, ces chiffres étaient de 35 et 23. Les sur-estimations des dossiers médicaux sont respectivement de 71 % et 52 %.

Tableau 2. Taux de personnes dont le SAF est mentionné à leur dossier et de cas de SAF par 100 naissances vivantes, chez les Autochtones et les non Autochtones de l'Alaska : 1977-1992

	Autochtones		Non Autochtones	
	SAF mentionné	Cas de SAF	SAF mentionné	Cas de SAF
1989 à 1992	5,7	2,5	0,4	0,3
1985 à 1988	6,7	4,1	0,2	0,2
1981 à 1984	5,9	3,8	0,2	0,1
1977 à 1980	2,4	1,4	0,2	0,1
Total	5,2	3,0	0,3	0,2

Source : Egeland, et coll. 1998

Une mise à jour d'un rapport du FASSNet du CDC suggère que les taux de prévalence étaient d'environ 0,4 par 1 000 naissances dans la population totale de 1995 à 1997 (Center for Disease Control, 2002). Pour les populations amérindiennes, on a constaté que les taux étaient beaucoup plus élevés que dans les autres populations, mais pas de façon uniforme. Par exemple, le taux pour les Autochtones de l'Alaska (5,6 par 1 000 naissances) était dix-huit fois supérieur aux taux des non Autochtones. Par contraste, les États de New York et du Colorado ne comptaient qu'un seul cas de SAF dans la population autochtone. Une publication subséquente des données du FASSNet pour la période de 1995 à 1999 (Tableau 3) suggère que les taux de SAF sont relativement stables, avec une légère diminution chez les Autochtones d'Alaska, passant de 5,6 à 5,0 (Meany, Miller et FASSNet Team, 2003).

Tableau 3. Prévalence du SAF selon l'origine ethnique, de 1995 à 1999, FAS Surveillance Network

	Alaska		Arizona		Colorado		New York	
	Cas	Taux par 1 000	Cas	Taux par 1 000	Cas	Taux par 1 000	Cas	Taux par 1 000
Blancs (non hispaniques)	10	0,3	16	0,1	24	0,2	33	0,3
Amérindiens	60	5,0	53	2,0	1	0,7	2	0,7
Tous les cas	70	1,4	113	0,3	51	0,3	79	0,5

Source : Meany, et. al. 2003

Williams et Odaibo (1999) ont estimé l'incidence au nord-est du Manitoba en examinant tous les dossiers de naissances vivantes à Thompson (Manitoba) en 1994. Dans cette cohorte de nouveau-nés, tous les enfants soupçonnés d'être atteints du SAF ont été sélectionnés pour un suivi de deux ans après la naissance. Le cas était sélectionné s'il présentait l'une des caractéristiques suivantes : consommation abusive d'alcool par la mère durant la grossesse, bébé de petit poids, circonférence de la tête de 33 cm ou moins (10^e percentile), ou consommation d'alcool par la mère et complications de la grossesse ou de l'accouchement associées au SAF. Sur les 745 naissances vivantes, 90 enfants ont été sélectionnés pour le suivi. Sur les 90 cas, 49 n'ont pas été revus après avoir été sélectionnés : 16 en raison de l'éloignement de leur collectivité; 8 du fait qu'on n'a pas pu les retrouver; et 25 dont la collectivité n'a pas autorisé la visite des pédiatres¹¹. Sur les 41 bébés qui ont été suivis, on a diagnostiqué le SAF chez 5 d'entre eux, pour une prévalence de 7,2 par 1 000 naissances vivantes. Si le statut relatif au SAF des enfants qui n'ont pas été suivis diffère de celui des participants à l'étude, les résultats pourraient être biaisés. Les auteurs suggèrent que le taux serait plus élevé si ces enfants avaient participé à l'étude.

Tableau 4. Résumé de la prévalence dans des études de cas autochtones de SAF, EAF et ETCAF de 1983 à 2003

Auteurs	Année de publication	Endroit	Type d'étude		Estimation (1 000 naissances)	Dénom.	Remarque
May, et. al.	1983	Navajo, S.-O. É.-U.	active	SAF	1,4	s.o.	0 à 18
		Pueblo, S.-O. É.-U.	active	SAF	2	s.o.	0 à 19
		Plaines, S.-O. É.-U.	active	SAF	10,3	s.o.	0 à 20
Wong ^Λ	1983	C.-B.	active	SAF	6,6	s.o.	naissance
Asante, et coll. ^Λ	1985	YK, N.-O. C.-B.; 36 collectivités	active	SAF+EAF	46 (YK)	586	0 à 16
				SAF+EAF	25 (N.-O. C.-B.)		
Robinson, Conry et Conry	1987	Collectivité autochtone C.-B.	active (dépistage)	SAF	190	116	
Chavez, Cordero & Becerrant	1988	États-Unis	surveillance, dossiers des naissances	ICD-9	2,9	19 412	naissance vivantes
Christensen ^Λ	1990	Alaska (1986-1986)	active	SAF	5,1	s.o.	
				EAF	1,7	s.o.	
		Alaska (1986 à 1988)	active	SAF	2,7	s.o.	
				EAF	1,7	s.o.	

SUITE DE LA PAGE 19

¹¹ Les chercheurs n'ont pas demandé le consentement de la collectivité, mais dans un cas, une collectivité s'est aperçue des travaux et a expressément demandé aux pédiatres de ne pas venir. Tait (2003) présente une discussion des implications pour la recherche chez les collectivités des Premières Nations qui traite de cette étude plus en détail.

SUIVE DE LA PAGE 18

Auteurs	Année de publication	Endroit	Type d'étude		Estimation (1 000 naissances)	Dénom.	Remarques
Burd [^]	1991	D. N., États-Unis	active	SAF	3,1	15 531	0 à 18
Duimstra, et. coll.	1993	4 réserves, Plaines, Dakota S.	surveillance + active	SAF	8,5	1 022	<2 ans
Bergeson	1993	Alaska	active	SAF+EAF	2,1	32 932	0 à 19
Habbick et. coll. *	1996	Saskatchewan (1973 à 1977)	surveillance, examen de cas	SAF	0,52	77 670	
		Saskatchewan (1978 à 1982)	surveillance, examen de cas	SAF	0,62	84 580	
		Saskatchewan (1983 à 1987)	surveillance, examen de cas	SAF	0,61	88 520	
		Saskatchewan (1988-1992)	surveillance, examen de cas	SAF	0,59	79 800	naissance vivantes
Chudley [~]	1997	Manitoba	active (dépistage)	SAF	61	179	5 à 15
				EAF	33	179	5 à 15
Egeland et. coll.	1998	Alaska (1977 à 1980)	sources multiples	SAF	1,4	7 160	naissance vivantes
		Alaska (1981 à 1984)	sources multiples	SAF	3,8	8 971	naissance vivantes
		Alaska (1985 à 1988)	sources multiples	SAF	4,1	10 150	naissance vivantes
		Alaska (1989 à 1992)	sources multiples	SAF	2,5	11 065	naissance vivantes
Williams et Odaibo *	1999	N.-E. Manitoba	active (dépistage)	SAF	7,2	696	ajustés
Miller et coll.	2002	Alaska (1995 à 1997)	sources multiples	SAF	5,6	7 117	
		Arizona (1995 à 1997)	sources multiples	SAF	2,5	15 685	
Meaney et coll.	2003	Alaska (1995 à 1999)	surveillance	SAF	5,01	11 974	naissance vivantes
		Arizona	surveillance	SAF	8,38	26 440	naissance vivantes
		Colorado	surveillance	SAF	18,2	1 535	naissance vivantes
		New York	surveillance	SAF	0,7	2 856	

[^] rapportées dans Burd et Moffat, 1994

* Étude comportant un grand nombre de cas autochtones mais dont la proportion n'est pas précisée

[~] rapportée dans Square, 1997

5.0 Estimations de l'ampleur et des coûts des cas de SAF/ETCAF dans la population autochtone

On peut se faire une idée générale de l'ampleur et des coûts des cas de SAF/ETCAF en appliquant les estimations de la prévalence et du coût par personne à la population autochtone. Puisqu'on ne connaît pas précisément les coûts et les prévalences pour les populations autochtones, toutefois, de telles estimations sont intrinsèquement imparfaites et ne sont mentionnées qu'à titre d'estimations grossières.

Le Tableau 5 donne le nombre estimé de cas d'ETCAF/TNDLA à partir des prévalences de Sampson, et coll. (1997), puisqu'elles sont de meilleure qualité. Une importante hypothèse serait que les taux calculés pour une population, qu'on a utilisés ici, soient applicables à la fois aux populations autochtones et non autochtones quelles que soient les variations dues aux différences sur le plan géographique, social ou économique entre les nations, ou que le taux reste le même à tous les âges. Il se peut que ces hypothèses soient indéfendables, et il faut en tenir compte en examinant les chiffres des estimations. Ce qu'il convient de remarquer, toutefois, est que le nombre de cas potentiels — en admettant que la prévalence serait effectivement similaire entre les peuples autochtones et non autochtones du Canada — est inférieur dans la population autochtone. En termes absolus, même si la prévalence est potentiellement plus élevée chez les peuples autochtones du Canada, la différence proportionnelle dans la taille de la population signifie que le « fardeau » numérique du SAF/TNDLA est plus grand dans la population non autochtone.

Tableau 5. Nombre estimé de cas de SAF/TNDLA, population autochtone canadienne, 2001

	Populations					
	Total	Autochtones	Amérindiens	Métis	Inuits	Non-autochtones
	29 639 030	976 305	608 850	292 305	45 070	28 662 725
Prévalence du SAF						
2,8/1 000	82 989	2 734	1 705	818	126	80 256
4,8/1 000	142 267	4 686	2 922	1 403	216	137 581
SAF et TNDLA combinés						
9,1/1 000	269 715	8 884	5 541	2 660	410	260 831

Les coûts économiques potentiels associés à l'ETCAF sont probablement importants. Dans une étude récente, Stade, Ungar, Stevens, Beyene, et Koren (2006)¹² ont rencontré en entrevue 148 parents ou soignants d'enfants atteints de l'ETCAF¹³ et ont estimé les coûts annuels, y compris les pertes de productivité en raison des soins, et l'estimation des coûts pour la société de problèmes de l'ampleur d'un comportement d'extériorisation. Dans l'échantillon, 45 % (67) des enfants à l'étude et de leurs fournisseurs de soins étaient autochtones. Le coût annuel ajusté associé au SAF/EAF au Canada pour les personnes de 1 à 21 ans est de 14 342 \$ (95 % IC : 12 986 \$ à 15 698 \$). La situation géographique, l'âge de l'enfant et la gravité de la maladie étaient tous d'importants déterminants des coûts. Chez tous les groupes d'âge, de la petite enfance à 21 ans, les plus grandes dépenses en ressources annuelles survenaient tôt dans la vie de l'enfant, et se caractérisaient par un recours plus fréquent aux soins de santé. À mesure que les enfants à l'étude grandissaient, les coûts annuels diminuaient et reflétaient surtout les besoins liés à l'éducation et au comportement extériorisé.

Bien que l'étude ait été conçue en vue de mesurer les coûts par individu, et non en vue de fournir des estimations pour une population, les auteurs suggèrent que, compte tenu d'une prévalence conservatrice du SAF/EAF dans la population en général de 3 par 1 000, les coûts potentiels annuels pour les petits Canadiens de cette tranche d'âge seraient d'environ 344 208 000 \$ (Stade, et coll., 2006). Si on appliquait les estimations des coûts ajustés par enfant à la population autochtone de 0 à 19 ans selon le recensement de 2001 (les années indiquées par Statistiques Canada dans ses tableaux) pour les régions mentionnées dans l'article de Stade et coll. à ce taux de SAF/EAF de 3 par 1 000, les coûts annuels pourraient être de 18 056 000 \$ pour les enfants autochtones du Canada. Ces coûts varient beaucoup en fonction de l'estimation de la prévalence choisie. Avec un taux de 9,1, tiré de l'article de Sampson et coll. pour les cas combinés de SAF/TNDLA, les coûts associés aux enfants autochtones de 0 à 19 ans augmentent à 54 770 000 \$.

12 On pourrait ajouter à propos de cette étude qu'elle fait partie des quelques-unes d'envergure nationale dont les participants se divisent presque également entre l'est, le centre et l'ouest du Canada.

13 Les participants à l'étude ont été invités par l'entremise de FASWorld, un organisme national de soutien pour les parents. L'article n'explique pas comment on a en fait sélectionné les parents. Cette façon de procéder, en passant par FASWorld, risque de biaiser les résultats puisque les membres d'un organisme de soutien peuvent être mieux informés des coûts associés au syndrome.



6.0 Conclusions

En 1996, MacMillan, MacMillan, Offord et Dingle (citant Bray et Anderson, 1989) écrivaient que, bien que :

... de récentes études suggèrent que le syndrome de l'alcoolisation fœtale (SAF) soit plus prévalent chez les enfants autochtones canadiens que chez les enfants non autochtones, les données ne sont pas concluantes... On ne dispose pas de suffisamment de renseignements sur la prévalence du SAF dans la population non autochtone pour pouvoir conclure que la prévalence est plus élevée chez les peuples autochtones. (p. 1576)

Du point de vue épidémiologique, l'opinion de MacMillan et coll. selon laquelle la prévalence du SAF chez les peuples autochtones ne peut pas être évaluée est toujours valide et s'applique également à l'ETCAF en général. Comme le suggère la présente revue, les diverses méthodes utilisées pour obtenir l'incidence et la prévalence de l'ETCAF chez les peuples autochtones ne permettent pas de regrouper les données en vue de produire une série unique d'estimations globales. De même, on n'a pas beaucoup étudié la situation dans la population canadienne en général en vue d'établir une prévalence de référence qui pourrait servir à comparer les taux observés dans les études de populations données.

Pourtant, ce peut être une vision trop étroite de la situation et on risque d'écarter un évident problème de santé publique chez les peuples autochtones. Il est peu probable que toutes les différences observées entre les populations autochtones et non autochtones ne s'expliquent que par la sélection des sujets ou les biais des études. On ne peut estimer aucune valeur de référence des taux de prévalence chez les Autochtones, les écarts étant trop extrêmes pour obtenir une moyenne représentative d'après les estimations globales d'Abel. Par contre, rejeter tous les rapports de taux excessifs dans les collectivités autochtones serait prendre le risque d'ignorer ce qui pourrait s'avérer un grave risque pour la santé publique, avec des conséquences à long terme, et même aller à contre-courant du savoir expérientiel des collectivités mêmes.

Ceci donne à penser qu'il faut poursuivre la recherche sur la prévalence. Compte tenu des enjeux méthodologiques décrits dans la présente section de ce rapport, le conseil de Burd et Moffat (1994) sur la conception de nouvelles études est pertinent :

Les prochaines études devraient comprendre quatre caractéristiques : a) les cohortes devraient être composées de sujets atteints du SAF et d'autres troubles du développement que le SAF; b) les cohortes devraient être stratifiées par statut ethnique; c) le diagnostic devrait être posé sans que le clinicien sache si la mère a consommé ou non de l'alcool durant la grossesse; d) il faudrait élargir les modèles d'étude de manière à déterminer la sensibilité et la spécificité à la fois des méthodes de dépistage et des critères de diagnostic. (p. 692)

Tait (2003) ajoute que les modèles d'étude devraient également prendre en compte le statut socioéconomique des femmes et de leurs enfants. Nous pourrions encore ajouter d'autres caractéristiques, y compris l'échantillonnage stratifié des collectivités par nation et la recherche de critères de diagnostic propres aux Autochtones. D'autres enjeux liés au SAF/ETCAF, autres que la prévalence, n'ont pas été profondément explorés. On n'a pas traité, par exemple, des effets à long terme du SAF sur les collectivités autochtones à mesure que les personnes atteintes du syndrome vieillissent. On ne sait pas vraiment de quand date le syndrome. Par conséquent, il se peut que les réserves aient subi les conséquences non observées du syndrome depuis des décennies. Le SAF, selon Abel (1995), n'est pas une anomalie congénitale qui donne des « chances égales », car il touche des personnes dont le statut socioéconomique est inférieur. Une autre dimension des « chances égales », toutefois, peut être le regroupement des cas dans les petites collectivités autochtones.

1. Annexes

Annexe 1 : Critères de diagnostic recommandés pour le SAF, le SAF partiel et le TNDLA, Conseil consultatif sur l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foetale de l'Agence de la santé publique du Canada.

Les critères de diagnostic du syndrome de l'alcoolisation foetale, après avoir exclu d'autres diagnostics, sont les suivants :

1. Revue d'un retard de croissance prénatal ou postnatal, dans au moins un des aspects suivants :
 - i. poids ou longueur à la naissance égal ou inférieur au 10^e percentile pour l'âge foetal;
 - ii. taille ou poids égal ou inférieur au 10^e percentile pour l'âge;
 - iii. rapport poids-taille trop faible (égal ou inférieur au 10^e percentile).
2. Présence simultanée, à n'importe quel âge, des trois anomalies faciales suivantes :
 - i. fentes palpébrales courtes (d'un écart-type de 2 ou plus au-dessous de la moyenne);
 - ii. sillon naso-labial lisse et aplati (coté 4 ou 5 selon le Guide d'évaluation de la lèvre et du sillon naso-labial);
 - iii. lèvre supérieure mince.
3. Preuve de déficience dans trois des domaines du système nerveux central ou plus, notamment : les troubles neurologiques légers et profonds; la structure du cerveau; la cognition; la communication; le rendement scolaire; la mémoire; le fonctionnement exécutif et le raisonnement abstrait; la déficience de l'attention et l'hyperactivité; le comportement adaptatif, les compétences sociales, la communication sociale.
4. Consommation d'alcool par la mère confirmée (ou non confirmée).

Les critères de diagnostic du syndrome d'alcoolisation foetale partiel, après avoir exclu d'autres diagnostics, sont les suivants :

1. Présence simultanée, à n'importe quel âge, de deux des anomalies faciales suivantes :
 - i. fentes palpébrales courtes (d'un écart-type de 2 ou plus au-dessous de la moyenne);
 - ii. sillon naso-labial lisse et aplati (coté 4 ou 5 selon le Guide d'évaluation de la lèvre et du sillon naso-labial);
 - iii. lèvre supérieure mince.
2. Preuve de déficience dans trois des domaines du système nerveux central ou plus, notamment : les troubles neurologiques légers et profonds; la structure du cerveau; la cognition; la communication; le rendement scolaire; la mémoire; le fonctionnement exécutif et le raisonnement abstrait; la déficience de l'attention et l'hyperactivité; le comportement adaptatif, les compétences sociales, la communication sociale.
3. Consommation d'alcool par la mère confirmée.

Les critères de diagnostic des troubles neurologiques du développement liés à l'alcool, après avoir exclu d'autres diagnostics, sont les suivants :

1. Preuve de déficience dans trois des domaines du système nerveux central ou plus, notamment : les troubles neurologiques légers et profonds; la structure du cerveau; la cognition; la communication; le rendement scolaire; la mémoire; le fonctionnement exécutif et le raisonnement abstrait; la déficience de l'attention et l'hyperactivité; le comportement adaptatif, les compétences sociales, la communication sociale.
2. Consommation d'alcool par la mère confirmée.

L'expression anomalies congénitales liées à l'alcool (ACLA) ne devrait être utilisée ni comme une expression générique ni comme un terme de diagnostic, pour désigner l'ensemble des effets causés par l'alcool. Les ACLA constituent une série d'anomalies congénitales, y compris des malformations et des dysplasies, et il faut s'assurer d'utiliser l'expression à juste titre.

Source : Chudley et coll. 2005 (S11-S12).

8.0 Références

- Aase, J.M. (1994). Clinical recognition of FAS: Difficulties of detection et diagnosis. *Alcohol Health Research World* 18(1): 5-9.
- Abel, E.L. (1995). An update on the incidence of FAS: FAS is not an equal opportunity birth defect. *Neurotoxicology et Teratology* 17(4): 437-43.
- Abel, E.L. (1998a). Fetal Alcohol Syndrome: The American paradox. *Alcohol and Alcoholism* 33(3): 195-201.
- Abel, E.L. (1998b). *Fetal Alcohol Abuse Syndrome*. Springer.
- Abel, E.L. (1988). Fetal Alcohol Syndrome in families [commentary]. *Neurotoxicology and Teratology* 10:1-2.
- Armstrong, E.M. & Abel, E.L. (2000) Fetal Alcohol Syndrome: The origins of a moral panic. *Alcohol and Alcoholism* 35(3): 276-82.
- Astley S.J. (2004). Fetal Alcohol Syndrome prevention in Washington State: Evidence of success. *Paediatric and Perinatal Epidemiology* 18: 344-51.
- Astley, S.J. (1997). Epidemiology. In Review of Extramural Research Portfolio for Fetal Alcohol Syndrome (FAS) Bethesda, MD: Subcommittee of the National Advisory Council on Alcohol Abuse and Alcoholism, May 12-13. Sur le site : <http://www.niaaa.nih.gov/ResearchInformation/ExtramuralResearch/AdvisoryCouncil/FASfinal.htm#EPI>. Consulté en janvier 2006.
- Astley, S.J. & Clarren, S.K. (2000). Diagnosing the full spectrum of fetal alcohol-exposed individuals: Introducing the 4-digit diagnostic code. *Alcohol et Alcoholism* 35(4): 400-10.
- Barr, H.M. & Streissguth, A.P. (2001). Identifying maternal self-reported alcohol use associated with Fetal Alcohol Spectrum Disorders. *Alcoholism: Clinical and Experimental Research* 25(2): 283-87.
- Bray, D.L. et ANDERSON, P.D. « Appraisal of the epidemiology of Fetal Alcohol Syndrome among Canadian Native Peoples », *Revue canadienne de santé publique*, no 80, 1989, p. 42-45.

- Burd, L. & Moffat, M.E. (1994). Epidemiology of Fetal Alcohol Syndrome in American Indians. *Public Health Reports* 109(5): 688-94.
- Système canadien de surveillance périnatale (1998). Fiche d'information sur l'alcool et la grossesse. Ottawa (Ontario); Agence de la santé publique du Canada.
- Center for Disease Control (1995). Use of international classification of diseases coding to identify Fetal Alcohol Syndrome – Indian Health Services facilities, 1981-1992. *Morbidity and Mortality Weekly Report* 44(13): 253-255, April 7.
- Centers for Disease Control (2005). Guidelines for identifying and referring persons with Fetal Alcohol Syndrome. *Morbidity and Mortality Weekly Report* 54(RR-11), October 28.
- Chavez, G.F., Cordero, J.F. & Becerrant, J.E. (1988). Leading major congenital malformations among minority groups in the United States 1981-1986. *Morbidity and Mortality Weekly Report* 37(SS-3): 17-25.
- Chudley, Albert E., Conry, Julianne, Cook, Jocelynn L., Looock, Christine, Rosales, Ted et LeBlanc, Nicole. Ensemble des troubles causés par l'alcoolisation fœtale : lignes directrices canadiennes concernant le diagnostic. *CMAJ* 2005 172: SF1-SF21.
- Clarke, M., Tough, S.C., Hicks, M. & Clarren, S. (2005). Approaches of Canadian providers to the diagnosis of Fetal Alcohol Spectrum Disorders. *Journal of FAS International* 3:e2.
- Duimstra, C., Johnson, D., Kutsch, C., Wang, B., Zentner, M., Kellerman, S. & Welty, T. (1993). A fetal alcohol syndrome surveillance pilot project in American Indian communities in the Northern Plains. *Public Health Reports*, 108(2): 225-229.
- Egeland, G.M., Perham-Hester, K.A., Gessner, B.D., Ingle, D., Berner, J.E. & Middaugh, J.P. (1998). Fetal Alcohol Syndrome in Alaska, 1977 through 1992: An administrative prevalence derived from multiple data sources. *American Journal of Public Health* 88(5): 781-6
- Fox, D.J. & Druschel, C.M. (2003). Estimating prevalence of fetal alcohol syndrome (FAS) : Effectiveness of a passive birth defects registry system. *Birth Defects Research (Part A)*, 67: 604-08.
- Habbick, B.F., Nanson, J.L., Snyder, R.E., Casey, R.E. & Schulman, A.L. (1996). Fœtal Alcohol Syndrome in Saskatchewan : Unchanged incidence in a 20-year period. *Canadian Journal of Public Health/Revue canadienne de santé publique* 87: 204-7.

- Hoyme, H.E., May, P.A., Kalberg, W.O., Kodituwakku, P., Gossage, J.P., Trujillo, P.M., Buckley, D.G., Miller, J.H., Aragon, A.S., Khaole, N., Viljoen, D.L., Jones, K.L. & Robinson, L.K. (2005). A practical clinical approach to diagnosis of Fetal Alcohol Spectrum Disorders: Clarification of the 1996 Institute of Medicine criteria. *Pediatrics* 115(1): 39-47.
- Jones, K.L., Smith, D.W., Ulleland, C.N. & Streissguth, P. (1973). Pattern of malformation in offspring of chronic alcoholic mothers. *The Lancet* 7815: 1267-71.
- Kelsey, J.L., Whittemore, A.S., Evans, A.S. & Thompson, W.D. (1996). *Methods in observational epidemiology*. New York: Oxford University Press, Monographs in Epidemiology et Biostatistics, Volume 26.
- Kvinge, V.L., Leonardson, G.R., Neff-Smith, M., Brock, E., Brozelleca, J. & Welty, T.K. (2004). Characteristics of children who have full or incomplete Fetal Alcohol Syndrome. *Journal of Pediatrics* 145:635-50.
- Lemoine P : « Historique des embryo-foetopathies alcooliques » – dans *Journal of FAS International* 1 : 1-5 (2003), http://www.motherisk.org/JFAS_documents/Historique.pdf
- MacMillan, H.L., MacMillan, A.B., Offord, D.R. & Dingle, J.L. (1996). autochtone Health. *Canadian Medical Association Journal/Journal de l'Association médicale canadienne* 155: 1569-78.
- May, P.A. (1991). Fetal alcohol effects among North American Indians: Evidence et implications for society. *Alcohol Health et Research World* 15(3): 239-48.
- May, P.A. & Gossage, J.P. (2001). Estimating the prevalence of Fetal Alcohol Syndrome: A summary. *Alcohol Research & Health* 25(3): 159-67.
- May, P.A., Hymbaugh, K.J., Aase, J.M. & Samet, J.M. (1983). Epidemiology of fetal alcohol syndrome among American Indians of the southwest. *Social Biology* 30(4): 374-87.
- Meany, F.J., Miller, L.A. & FASSNet Team (2003). A comparison of Fetal Alcohol Syndrome Surveillance Network and birth defect surveillance methodology in determining prevalence rates of Fetal Alcohol Syndrome. *Birth Defects Research (Part A)* 67: 819-21.
- Montori, V.M., Wilczynski, N.L., Morgan, D. & Haynes, R.B. (2006). Optimal search strategies for retrieving systematic reviews from Medline: Analytical survey. *British Medical Journal* 330: 68. 68.

- Polygenis, D., Wharton, S., Malmberg, C., Sherman, N., Kennedy, D., Koren, G. & Einarson, T.R. (1998). Moderate alcohol consumption during pregnancy et the incidence of fetal malformations: A meta-analysis. *Neurotoxicology et Teratology* 20(1): 61-7.
- Riley, E.P. & McGee, C.L. (2005). Fetal Alcohol Spectrum Disorders: An overview with emphasis on change in brain and behaviour. *Experimental Biology and Medicine* 230: 357-65.
- Robinson, G.C. Rapport concernant le symposium sur le syndrome d'alcoolisme foetal et les effets de l'alcool sur le foetus. Vancouver (Colombie-Britannique) 1992, Santé Canada.
- Robinson, G.C., Conry, J.L. & Conry, R.F. (1987). Clinical profile and prevalence of fetal alcohol syndrome in an isolated community in British Columbia. *Canadian Medical Association Journal/Journal de l'Association médicale canadienne* 37(3): 203-7.
- Rothman, K.J. & Greenland, S. (1998). *Modern Epidemiology*. 2nd Ed. Philadelphia: Lippincott, Williams and Wilkins.
- Sampson, P.D. Streissguth, A.P., Bookstein, F.L. & Barr, H.M. (2000). On categorizations in analyses of alcohol teratogenesis. *Environmental Health Perspectives*, 108(Supp. 3): 421-428.
- Sampson, P.D. Streissguth, A.P., Bookstein, F.L., Little, R.E., Clarren, S.K., Dehaene, P., Hanson, J.W. & Graham, Jr., J.M. (1997). Incidence of Fetal Alcohol Syndrome and prevalence of alcohol-related neurodevelopmental disorder. *Teratology* 56: 317-326.
- Sandor, G.G., Smith, D.F., MacLeod, P.M., Tredwell, S., Wood, B. & Newman, D.E. (1981). Intrinsic defects in the Fetal Alcohol Syndrome: Studies on 76 cases from British Columbia and the Yukon Territory. *Neurobehavioural Toxicology and Teratology* 3(2): 145-52.
- Spohr, H.L., Willms, U. & Steinhausen, H.C. (2007). Fetal alcohol spectrum disorders in young adulthood. *Journal of Pediatrics* 150: 175-9.
- Stade, B., Ungar, W.J., Stevens, B., Beyene, J. & Koren, G. (2006). The burden of prenatal exposure to alcohol: Measurement of cost. *Journal of FAS International* 4: e5.
- Square, D. (1997). Fetal alcohol syndrome endemic on Manitoba reserve. *Can Med Assoc J/ Journal de l'Association médicale canadienne*, 157: 59-60.
- Stade, B., Ungar, W.J., Stevens, B., Beyene, J. & Koren, G. (2006). The burden of prenatal exposure to alcohol: Measurement of cost. *Journal of FAS International* 4: e5.

- Stout, M.D., Kipling, G.D. & Stout, R. (2001). Rapport final du Projet de synthèse des recherches sur la santé des femmes autochtones. Ottawa (Ontario), Santé Canada.
- Stratton, K.R., Howe, C.J. & Battaglia, P.C. (Eds.). (1996). Fetal Alcohol Syndrome: Diagnosis, epidemiology, prevention and treatment. Washington, DC: National Academy Press.
- Tait, C.L. (2003). Fetal alcohol syndrome among aboriginal people in Canada: Review and analysis of the intergenerational links to residential schools. Ottawa, ON: Aboriginal Healing Foundation.
- Testa, M., Quigley, B.M. & Eiden, R.D. (2003). The effects of prenatal alcohol exposure on infant mental development: A meta-analytical review. *Alcohol and Alcoholism* 38(4): 295-304.
- Williams, R.J. & Odaibo, F.S. (1999). Incidence of Fetal Alcohol Syndrome in Northeastern Manitoba. *Canadian Journal of Public Health/La revue canadienne de santé publique* 90(3): 192-4.

NATIONAL COLLABORATING CENTRE
FOR ABORIGINAL HEALTH



CENTRE DE COLLABORATION NATIONALE
DE LA SANTÉ AUTOCHTONE



Centre de collaboration nationale de la santé autochtone
3333, University Way, Prince George, C.-B. V2N 4Z9
Tél. : 250 960-5250 Téléc. : 250 960-5644 Courriel : nccah@unbc.ca