

ANNEE 2022

2022 TOU3 3033

THESE

POUR LE DIPLOME D'ETAT DE DOCTEUR EN CHIRURGIE DENTAIRE

Présentée et soutenue publiquement
par

Pauline LAGAÜZERE

Le 6 juillet 2022

Impact psycho-social de la santé orale d'adolescents atteints d'amelo- et dentinogènese imparfaite : étude préliminaire

Directrice de thèse : Dr Emmanuelle NOIRRIT-ESCLASSAN

JURY

Président :	Professeur Frédéric VAYSSE
1 ^{er} assesseur :	Professeur Jean-Noël VERGNES
2 ^{ème} assesseur :	Docteur Emmanuelle NOIRRIT-ESCLASSAN
3 ^{ème} assesseur :	Docteur Alice BROUTIN



UNIVERSITÉ
TOULOUSE III
PAUL SABATIER



CHIRURGIE ORALE

Professeur d'Université : Mme Sarah COUSTY
Maîtres de Conférences : M. Philippe CAMPAN, M. Bruno COURTOIS
Assistants : M. Clément CAMBRONNE
Adjoints d'Enseignement : M. Gabriel FAUXPOINT, M. Arnaud L'HOMME, Mme Marie-Pierre LABADIE, M. Luc RAYNALDY, M. Jérôme SALEFRANQUE,

BIOLOGIE ORALE

Professeur d'Université : M. Philippe KEMOUN
Maîtres de Conférences : M. Pierre-Pascal POULET, M. Vincent BLASCO-BAQUE
Assistants : Mme Chiara CECCHIN-ALBERTONI, M. Maxime LUIS, Mme Valentine BAYLET GALLY-CASSIT, M. Mathieu MINTY (Associé)
Adjoints d'Enseignement : M. Mathieu FRANC, M. Hugo BARRAGUE, M. Olivier DENY

Section CNU 58 : Réhabilitation Orale

58.01 DENTISTERIE RESTAURATRICE, ENDODONTIE, PROTHESES, FONCTIONS-DYSFONCTIONS, IMAGERIE, BIOMATERIAUX (M. Franck DIEMER)

DENTISTERIE RESTAURATRICE, ENDODONTIE

Professeur d'Université : M. Franck DIEMER
Maîtres de Conférences : M. Philippe GUIGNES, Mme Marie GURGEL-GEORGELIN, Mme Delphine MARET-COMTESSE
Assistants : M. Sylvain GAILLAC, Mme Sophie BARRERE, Mme Manon SAUCOURT, M. Ludovic PELLETIER, M. Nicolas ALAUX, M. Vincent SUAREZ
Adjoints d'Enseignement : M. Eric BALGUERIE, M. Jean-Philippe MALLET, M. Rami HAMDAN, M. Romain DUCASSE, Mme Lucie RAPP

PROTHESES

Professeurs d'Université : M. Philippe POMAR
Maîtres de Conférences : M. Jean CHAMPION, M. Rami ESCLISSAN, M. Florent DESTRUHAUT, M. Antoine GALIBOURG, Mme Margaux BROUTIN, Mme Corélie BATAILLE, Mme Mathilde HOURSET, Mme Constance CUNY
Assistants : M. Julien GRIFFE
Adjoints d'Enseignement : M. Christophe GHRENASSIA, Mme Marie-Hélène LACOSTE-FERRE, M. Olivier LE GAC, M. Jean-Claude COMBADAZOU, M. Bertrand ARCAUTE, M. Fabien LEMAGNER, M. Eric SOLYOM, M. Michel KNAFO, M. Alexandre HEGO DEVEZA, M. Victor EMONET-DENAND, M. Thierry DENIS, M. Thibault YAGUE

FONCTIONS-DYSFONCTIONS, IMAGERIE, BIOMATERIAUX

Maîtres de Conférences : Mme Sabine JONIOD, M. Karim NASR, M. Paul MONSARRAT, M. Thibault CANCEILL
Assistants : M. Julien DELRIEU, M. Paul PAGES, Mme Julie FRANKEL
Adjoints d'Enseignement : Mme Sylvie MAGNE, M. Thierry VERGÉ, M. Damien OSTROWSKI

Mise à jour pour le 25 Mai 2022

Remerciements

A ma directrice de Thèse le Dr Emmanuelle Noirrit-Esclassan, merci de m'avoir fait confiance en m'offrant la possibilité de travailler à vos côtés sur ce sujet très intéressant. Je vous remercie de votre aide et du temps que vous avez passé à diriger ce travail. Merci pour votre gentillesse.

Au Dr Alice Broutin, pour m'avoir accueilli dans ce projet et pour votre aide pendant la rédaction de cette thèse.

A mes professeurs de l'université et tous ceux avec qui j'ai eu la chance de travailler dans le service d'odontologie pendant les trois années d'externat, merci pour la transmission de votre savoir et de votre passion pour ce métier.

Au Dr Christine Rodriguez-Pelat et à Corinne, merci pour votre accueil dans votre équipe de travail. Merci Coco pour ton soutien sans faille et ta gentillesse.

Au Dr Sophie Guibert-Soulères qui a accepté sans hésitation de m'aider dans ce travail. Merci pour l'accueil dans ton cabinet, ta gentillesse et tes nombreux conseils. Merci à Cindy pour son soutien et sa bonne humeur.

A mes amis de la fac, Amélie, Antoine, Alexandra, Clara, Claire et Manon pour ces belles années à vos côtés.

A Mathilde et Rémy, sur qui je pourrais toujours compter.

A Manon, merci d'avoir croisé ma route en P1. Notre histoire continue et je suis ravie de te retrouver pour un nouveau bout de chemin ensemble.

A Mélodie, pour ton soutien depuis le lycée et ta joie de vivre.

A Nono, pour avoir été une si bonne amie, une évidence dès le premier jour de notre rencontre. A Benji, d'être toujours là pour moi. A Max, mon binôme, le destin fait si bien les choses parfois. A tous les trois, que notre quatuor de folie dure éternellement.

A mes amies de toujours Solène, Perrine, Jennifer et Maureen, pour toutes ces belles années d'amitié.

A ma famille, pour l'amour et les valeurs que vous m'avez transmis.

A Pierre, mon amour, pour ton soutien et la force que tu m'apportes au quotidien. Merci d'avoir géré mes craintes et mes angoisses.

A Léa, ma petite sœur, pour m'avoir toujours soutenue et pour cette complicité si précieuse.

A mes parents, merci d'avoir cru en moi et de m'avoir tant donné. J'espère que vous êtes fiers de moi. Je vous aime.

A notre président du jury,

Monsieur le Professeur VAYSSE Frédéric

- Professeur des Universités, Praticien Hospitalier d’Odontologie,
- Lauréat de l'Université Paul Sabatier,

Nous sommes extrêmement reconnaissants que vous ayez accepté de présider cette thèse.

*Nous vous remercions pour votre pédagogie et vos conseils dont nous avons bénéficié durant
nos études.*

*Veuillez trouver dans cette thèse le témoignage de mon profond respect et de mon estime à
votre égard.*

A notre jury de thèse,

Monsieur le Professeur VERGNES Jean-Noël

- Professeur des Universités, Praticien Hospitalier d'Odontologie,
- Habilitation à Diriger des Recherches (HDR)
- Docteur en Epidémiologie,
- Docteur en Chirurgie Dentaire,
- Professeur associé, Oral Health and Society Division, Université McGill –Montréal,
Québec – Canada,
- Lauréat de l'Université Paul Sabatier

Nous sommes très honorés que vous ayez accepté de participer à notre jury de thèse.

*Nous sommes reconnaissants de la qualité de vos enseignements et des valeurs de notre
métier que vous nous avez transmis.*

*Veillez trouver ici le témoignage de notre gratitude et de notre reconnaissance la plus
sincère.*

A notre directrice de thèse,

Madame le Docteur ESCLASSAN-NOIRRIT Emmanuelle

- Maître de Conférences des Universités, Praticien Hospitalier d'Odontologie,
- Docteur en Chirurgie Dentaire,
- Ancienne Interne des Hôpitaux,
- Docteur de l'Université Paul Sabatier,
- Lauréate de l'Université Paul Sabatier.

Nous sommes extrêmement reconnaissants que vous ayez accepté de diriger cette thèse.

Nous vous remercions pour la confiance que vous nous avez donnée quant à la réalisation de ce travail. Nous espérons que ce dernier soit à la hauteur de vos attentes.

Pour la pertinence de vos conseils, votre disponibilité et votre accompagnement. Veuillez trouver dans ce manuscrit, l'expression de ma gratitude et de mon profond respect.

A notre jury de thèse,

Madame le Docteur BROUTIN Alice

- Assistante associée hospitalo-universitaire d'Odontologie,
- Docteur en Chirurgie Dentaire,
- Diplôme d'Université d'anesthésie générale et sédation en odontologie clinique
- Certificat d'étude Supérieures de Chirurgie Dentaire en Odontologie Pédiatrique et Prévention

Nous sommes très honorés que vous ayez accepté de participer à notre jury de thèse.

*Nous sommes reconnaissants de l'aide que vous nous avez apportée durant la réalisation de
ce travail.*

Nous vous remercions pour vos conseils pratiques et théoriques tout au long de nos études.

Veillez trouver ici l'expression de toute notre estime et notre gratitude.

Table des matières

Introduction	11
1 Définition des maladies	12
1.1 Amélogénèse imparfaite.....	12
1.1.1 Généralités	12
1.1.2 Diagnostic	14
1.1.3 Symptomatologie.....	15
1.1.4 Prise en charge.....	15
1.2 Dentinogénèse imparfaite.....	16
1.2.1 Généralité.....	16
1.2.2 Classification.....	16
1.2.3 Diagnostic	17
1.2.4 Prise en charge.....	18
2 Impact des maladies sur la qualité de vie, état des lieux.....	19
2.1 Définition de la qualité de vie.....	19
2.2 Conséquences des maladies (AI, DI) sur la qualité de vie orale.....	19
2.2.1 Préjudice fonctionnel et douloureux	23
2.2.2 Préjudice esthétique, perception de soi	23
2.2.3 Impact psycho-social	23
2.2.4 Conclusion	24
3 Etude de l'impact de la santé orale sur la qualité de vie.....	25
3.1 Contexte de l'étude	25
3.2 Objectifs	26
3.3 Matériel et méthodes	26
3.4 Critères de sélection	28
3.5 Présentation des résultats.....	29
3.5.1 Impact de la santé orale sur la qualité de vie	30
3.5.2 Perception de soi et bien-être émotionnel.....	33
3.5.3 Anxiété liés aux soins médicaux.....	34
3.5.4 Harcèlement et cyber-harcèlement.....	35
3.6 Discussion	37
Conclusion	39
Tableau des illustrations	40
Annexes	41
Bibliographie	52

Introduction

L'amélogénèse imparfaite (AI) et la dentinogénèse imparfaite (DI) sont deux maladies génétiques qui affectent respectivement la structure de l'émail et de la dentine. En plus du déficit fonctionnel qu'elles engendrent (sensibilité dentaire, risque carieux élevé), elles altèrent toutes les deux l'apparence du sourire des patients.

L'impact de ces maladies sur la qualité de vie et les relations sociales des jeunes patients a été décrit dans la littérature par le biais d'interviews ou de questionnaires.

Cette thèse s'inscrit dans le cadre d'une étude multicentrique nationale sur « l'impact psychosocial des amélo- et dentinogénèses imparfaites chez le jeune ». Le projet AiDiBull vise à évaluer la qualité de vie orale, l'anxiété liée aux soins dentaires et le harcèlement chez les jeunes âgés de 10 à 18 ans atteints d'amélogénèse imparfaite ou de dentinogénèse imparfaite.

L'objectif de cette thèse est de réaliser une étude des premiers résultats recueillis dans le projet AiDiBull.

Dans un premier chapitre, nous exposons les caractéristiques physiopathologiques de chaque maladie ainsi que les moyens de prise en charge.

Dans un deuxième chapitre, nous étudions les conséquences de l'AI et de la DI sur la qualité de vie des patients atteints. Nous réalisons un état des lieux non exhaustif des publications consacrées à ce sujet.

Dans le dernier chapitre de cette thèse, nous exposons les résultats préliminaires recueillis. Nous mettons en lumière l'impact de la santé orale sur la qualité de vie, le bien-être émotionnel et la perception de soi. L'anxiété liée aux soins médicaux est évaluée chez les adolescents et leurs parents. Enfin, nous nous intéressons à la fréquence des différentes formes de harcèlement dans cette population.

1 Définition des maladies

1.1 Amélogénèse imparfaite

1.1.1 Généralités

L'amélogénèse imparfaite (AI) regroupe les affections génétiques du développement qui affectent l'émail dans sa structure et son aspect clinique. Selon la forme de la maladie, l'émail est affecté dans sa qualité ou sa quantité. Cela touche la presque totalité des dents temporaires et permanentes. (1)

La prévalence de la maladie varie selon les pays et leur patrimoine génétique : 1/700 (Suède) à 1/14000 (Etats-Unis).(2) C'est une maladie rare.

Plusieurs formes cliniques existent (3–5):

- **Email hypoplasique** : c'est un défaut quantitatif qui entraîne une faible épaisseur de l'émail, voir une absence à certains endroits. Il peut être rugueux, lisse ou piqueté avec une surface coronaire irrégulière. L'émail est cependant mécaniquement dur, mais sa finesse le rend fragile. La dent est souvent jaunâtre à cause de la finesse et de la translucidité de l'émail.



Figure 1 : amélogénèse imparfaite, émail hypoplasique (service d'odontologie pédiatrique Toulouse)

- **Email hypomature** : c'est un défaut qualitatif avec une minéralisation réduite, dû à un défaut de la matrice. L'émail est friable, il s'altère vite et sa susceptibilité à la carie est majorée. Il est possible de voir des dents faire leur éruption avec un émail totalement résorbé.



Figure 2 : amélogénèse imparfaite, émail hypomature (service d'odontologie pédiatrique Toulouse)

- **Email hypominéralisé** : C'est aussi un défaut de minéralisation mais cette fois dû à une calcification insuffisante de la phase organique (la matrice est sécrétée normalement). Dès l'éruption, l'émail est d'épaisseur normale mais il est mou, jaune-brun, de consistance crayeuse. Il fracture rapidement et met à nu la dentine.



Figure 3 : amélogénèse imparfaite, émail hypominéralisé (service d'odontologie pédiatrique Toulouse)

C'est une pathologie héréditaire et congénitale. Le mode de transmission de la maladie est multiple : autosomique dominant, autosomique récessif, lié au sexe, ou par mutation sporadique. Les gènes impliqués varient selon les formes et modes de transmission : *AMELX*, *ENAM*, *FAM83H*, *KLK4*, *MMP20* par exemple.

L'affection peut être associée à un syndrome ou à une pathologie systémique (3) : syndrome tricho-dento-osseux (cheveux frisés et anomalies osseuses : gène *DLX3*), syndrome Kohlschütter-Tonz (épilepsie et détérioration mentale), syndrome de Jalili (dystrophie des cônes et des bâtonnets, cellules photoréceptrices de l'œil : gène *CNNM4*), syndrome d'Heimler (surdité neurosensorielle et anomalie des ongles), néphrocalcinose (syndrome émail-rein : gène *FAM20A*). (6)

1.1.2 Diagnostic

L'amélogenèse imparfaite étant une maladie génétique héréditaire, l'historique familial doit être recherché en premier lieu. (3)

L'observation de la denture est primordiale. Il faut faire le point sur les différents aspects cliniques de l'émail pour déterminer le type d'AI ainsi que sur les symptômes non bucco-dentaires pour relier ou non l'affection à un syndrome. (3,7)

Un diagnostic radiologique doit être fait. La radio-opacité de l'émail atteint est moins marquée que celle d'un émail sain, elle se rapproche de celle de l'os et de la dentine dans la forme hypominéralisée.



*Figure 4 : orthopantomogramme d'un patient atteint d'amélogenèse imparfaite hypominéralisée
(service d'odontologie pédiatrique Toulouse)*

Le diagnostic génétique n'est pas systématique : à l'heure actuelle, il reste un outil de recherche.

Le diagnostic différentiel avec d'autres atteintes de l'émail (fluorose, MIH, maladie cœliaque, séquelles de traitement oncologique) doit être fait grâce à différentes questions pouvant les écarter : hérédité, ensemble des dents concernées, distribution chronologique de l'atteinte, antécédents médicaux. (8)

1.1.3 Symptomatologie

Les patients atteints d'amélogenèse imparfaite rapportent le plus souvent des sensibilités importantes au froid et au chaud et sont dérangés par l'apparence esthétique de leur sourire due à la couleur de leurs dents. La perte d'émail entraîne des difficultés de mastication, une perte de DVO (Dimension Verticale d'Occlusion) ainsi que de faibles contacts inter-proximaux.

La qualité altérée de l'émail n'augmente pas le risque carieux (9). Les hypothèses avancées sont la disparition des fissures et la présence d'espaces interdentaires élargis liés aux pertes d'émail. De nombreux cas de béances antérieures ou postérieures et des cas de dents incluses ont été rapportés, en particulier pour les formes hypoplasiques. L'hypersensibilité rend le contrôle de plaque difficile et l'état parodontal est impacté dans cette maladie avec des dépôts de tartre. (10,11)

1.1.4 Prise en charge

L'approche pluridisciplinaire et le suivi dès le plus jeune âge sont essentiels dans la prise en charge des patients atteints d'AI. La demande des patients concerne surtout l'esthétique et l'hypersensibilité. Le plan de traitement sera adapté au cas par cas selon le type et la sévérité de l'atteinte, l'âge, la denture, les souhaits et les moyens du patient. (12)

L'enseignement de l'hygiène bucco-dentaire est essentiel. En effet, du fait d'une forte sensibilité, le brossage de dents est souvent négligé par les jeunes patients, ce qui entraîne des gingivites persistantes, une usure et une infiltration rapide du joint des restaurations.

La prise en charge chez les jeunes enfants réside dans le fait de protéger les dents en attendant la fin de la croissance et la pose de restaurations pérennes. La prévention du risque carieux passe par une application de topiques fluorés. (13)

Les restaurations adhésives, bien que peu résistantes sur un émail fragile, sont utilisées en restaurations temporaires sur dents temporaires ou permanentes.

Parfois, la détérioration trop importante des tissus durs de la dent peut amener à réaliser des traitements endodontiques lors des restaurations. C'est aussi le cas lors des préparations pour les restaurations prothétiques, la pulpe peut être exposée ou irritée.

Dans les secteurs postérieurs, l'usure des dents peut entraîner une diminution de la DVO (Dimension Verticale d'Occlusion). Ainsi, cette DVO doit être restaurée pour préserver l'articulation temporo-mandibulaire. Pour cela sont souvent utilisées des coiffes métalliques ou des restaurations composites ou céramiques. (4,10)

En denture permanente et à la fin de la croissance du patient, la phase définitive peut se mettre en place, l'objectif étant de remplacer les restaurations faites précédemment en réalisant une approche prothétique globale, esthétique et pérenne. (14)

1.2 Dentinogenèse imparfaite

1.2.1 Généralité

La dentinogenèse imparfaite affecte la structure de la dentine et regroupe des maladies génétiques à transmission autosomique dominante qui touchent les dents temporaires et permanentes (15). Le défaut de minéralisation de la dentine modifie l'aspect dentaire dans sa teinte, sa forme et sa résistance. (16)

Le taux d'incidence de cette maladie est de 1/6000 à 1/8000 (16).

1.2.2 Classification

Cette maladie se divise en trois formes dont une forme isolée des deux autres par sa symptomatologie (15,17):

- I : forme syndromique associée à l'ostéogénèse imparfaite, liée à une mutation du gène du *COL1A1* ou *COL1A2* codant pour le collagène 1.
- II : forme dentaire uniquement, la mutation touche le gène *DSPP* codant pour la dentine sialophosphoprotéine.

Le phénotype clinique est le même pour ces deux formes.

- III : On la trouve seulement dans une population du Maryland aux Etats Unis appelée « isolat de Brandywine ». On constate une hypotrophie de la dentine et des expositions pulpaire fréquentes.



Figure 5 : dentinogenèse imparfaite en denture permanente (service d'odontologie pédiatrique Toulouse)



Figure 6 : arcade mandibulaire d'un patient atteint de dentinogenèse imparfaite en denture temporaire (service d'odontologie pédiatrique Toulouse)

1.2.3 Diagnostic

Les dents touchées sont dyschromiées, les variations de teintes peuvent aller du bleu-gris au brun. Le défaut structurel de la dentine et la jonction amélo-dentinaire altérée entraînent souvent un écaillage de l'émail sus-jacent, suivi d'une usure rapide de la dentine exposée. Cela entraîne une perte de DVO (Dimension Verticale d'Occlusion) par attrition. Les dents temporaires sont souvent plus atteintes que les dents permanentes. (18)

Radiologiquement, on observe une oblitération presque complète de la chambre pulpaire ainsi que des pathologies péri-apicales dues à une nécrose pulpaire.

La forme de la couronne est bulbeuse avec une constriction cervicale marquée. Les racines sont courtes. (11,15,17,18)



Figure 7 : orthopantomogramme d'un patient atteint de dentinogenèse imparfaite

1.2.4 Prise en charge

Comme pour l'amélogenèse imparfaite, la dentinogenèse imparfaite nécessite une prise en charge pluridisciplinaire.

Dans un premier temps, la prévention aura une place majeure avec la fluoruration afin de renforcer l'émail sus-jacent, ainsi que le scellement des sillons.

Pour la réhabilitation, les soins sont effectués dès la denture temporaire afin de préserver au maximum une DVO normale (CVI, composites et majoritairement couronnes pédodontiques préformées) et limiter l'usure rapide de ces dents.

En denture permanente, la réhabilitation est rapidement mise en place pour éviter des pertes de substance et une incidence fonctionnelle et esthétique trop importante.

L'oblitération pulpaire peut provoquer des nécroses pulpaires spontanées et compliquer les traitements canaux avec un risque de fausse route augmenté dû à l'hypominéralisation.
(11,19)

2 Impact des maladies sur la qualité de vie, état des lieux

2.1 Définition de la qualité de vie

L'OMS définit la qualité de vie en 1994 comme « la perception qu'a un individu de sa place dans l'existence, dans le contexte de la culture et du système de valeurs dans lesquelles il vit, en relation avec ses objectifs, ses attentes, ses normes et ses inquiétudes ».

Cela englobe aussi bien l'état de santé physique et psychologique, la perception de soi dans le contexte social et culturel ainsi que le positionnement par rapport à des objectifs, attentes, normes et préoccupations. (20)

La qualité de vie se définit selon quatre axes (21) :

- L'état et les capacités physiques ainsi que l'autonomie.
- Les sensations somatiques (douleurs, symptômes, conséquences).
- L'état psychologique (estime de soi, anxiété, dépression).
- Le statut social et les relations.

Qualité de vie orale :

Les quatre grands axes cités précédemment sont adaptés à l'étude de la qualité de vie orale dans plusieurs questionnaires comme le questionnaire COHIP ou le questionnaire Child-OIDP.

Le questionnaire COHIP se divise en cinq parties que sont la santé bucco-dentaire, le bien-être fonctionnel, le bien-être socio-émotionnel, l'environnement scolaire et l'image de soi. (22,23)

Le questionnaire Child-OIDP s'intéresse à trois axes : socio-démographique, dentaire et clinique, psycho-social. (24)

2.2 Conséquences des maladies (AI, DI) sur la qualité de vie orale

Pour des maladies comme l'amélo- et la dentinogénèse imparfaite, certaines études ont cherché à déterminer un score de qualité de vie orale et les aspects de la maladie impactant le plus la vie des patients. Le détail de ces études ainsi que leurs résultats est présenté dans le tableau qui suit.

Auteur	Contexte	Type d'évaluation (questionnaire, interview,...)	Scores / réponses	Conclusion
G. Pousette Lundgren (Suède) (25)	7 patients AI sévère entre 16 et 23 ans	Interviews individuelles	- Perturbation de la vie quotidienne : douleur, fractures dentaires, honte et embarras, manque de compréhension. - Gestion des perturbations : se cacher, s'excuser, se résigner, obtenir de l'aide. - Normalisation de la vie quotidienne : réduction de la douleur, difficultés d'alimentation, se sentir rassuré et capable d'agir normalement.	Fort impact de la maladie sur la vie quotidienne : douleur et sensibilité, honte. Après traitement par couronne céramique les patients rapportent se sentir comme « normaux ».
S.Parekh (Royaume Uni) (26)	7 patients AI entre 13 et 16 ans 40 patients AI entre 10 et 16 ans	Interviews Questionnaire créé à partir des interviews + questionnaire CPQ (Child Perception Questionnaire)	Aspect inesthétique des dents, apparence du sourire, sensibilité, commentaire de la part des autres et isolement. - Améliorer la couleur des dents : important pour 90% - Améliorer la forme des dents : important pour 74% - Améliorer les sourire : important pour 77% - Diminuer la sensibilité : important pour 74% - 50% ont été victimes de moqueries occasionnellement - Eviter de sourire : 30% occasionnellement et 23% souvent ou tout le temps (les filles sont plus concernées) - Attente de traitement : améliorer la couleur des dents pour 63% - 80% aimerait un site internet/groupe de parole. - Les patients étant les moins satisfait de leurs dents ont des scores CPQ plus élevé : impact sur la qualité de vie	L'esthétique est ce qui ressort le plus des interviews et des questionnaires Mise en lumière de la nécessité d'apporter des solutions de parole et d'écoute aux problèmes psycho-sociaux liés à cette pathologie.
L. Friedlander (France) (27)	110 patients atteints de différentes pathologies orales dont l'AI. Entre 6 et 17 ans	Questionnaire socio-démographique, clinique et dentaire (OHRQol), psycho-social + Child-OIDP + espace d'expression libre	Score Child-OIDP : 6.7 – 80 Une qualité de vie orale (OHRQol) basse est associée à des problèmes de forme et de couleur des dents, à l'isolement social et au fait de se sentir différent dû à la pathologie. Dans l'espace d'expression, il ressort un manque d'information sur la maladie, d'écoute et de suivi psychologique ; Impact sur le sourire, douleur, difficulté d'alimentation ; Problème pour le financement des soins ; Anxiété des parents pour le futur des enfants	Manque de suivi psycho-social dans les pathologies orales étudiées. Appréhension des parents de ne pas pouvoir fournir les soins nécessaires à cause du côté financier.

G. Pousette Lundgren (Suède) (28)	69 patients AI entre 6 et 25 ans VS groupe contrôle sain	Questionnaires - OHRQoL (OHIP14 : qualité de vie orale), - CFSS-DS (anxiété soins dentaire), - DBS-R (relation avec le personnel dentaire)	OHIP14 : score significativement supérieur chez les patients AI par rapport aux sains : 7.0 ± 6.7 chez les AI et 1.4 ± 2.4 chez les sains. Amélioration significative du score après la thérapie par couronne (2 ans). Le score d'anxiété des soins est moins important que dans les autres pathologies étudiées (fente, MIH) et il n'y a pas de différences avant et après les couronnes. Le score de relation avec le personnel n'est pas significatif.	La qualité de vie orale des patients porteur d'AI est très impactée et cet impact est diminué grâce aux thérapeutiques de couronnes proposées.
Coffield (Etats unis) (29)	68 patients AI de 14 ans ou plus vs groupe contrôle	Questionnaires : -SAD (Social Avoidance and Distress) -OHIP-14 (Oral Health Impact Profile) -FAY (Feelings About Yourself)	SAD : les patients AI ont un score plus élevé que le groupe témoin pour l'évitement et la détresse sociale. OHIP : les scores AI sont plus élevés, 25.2 en moyenne contre 4.4 dans le groupe contrôle. Les scores d'estime de soi sont quasiment similaires dans les deux groupes (sauf 10% des AI qui ont un score plus faible). 90% des AI sont complexés, tendus ou embarrassés par leurs dents et 60% trouvent que la vie n'est pas satisfaisante.	Les résultats de l'étude montrent que l'AI constitue un frein à l'attractivité du visage, ce qui pose un problème dans la vie sociale (complexe, embarras, détresse). L'estime de soi des sujets est altérée.
G. Pousette Lundgren (Suède) (30)	8 parents d'enfants AI sévère (dont 6 parents atteints)	Interviews	4 thèmes sont principalement abordés : - se sentir coupable de la transmission - mal informé sur le diagnostic (traitement, contrôle de la douleur) - les connaissances sur la maladie réduisent le stress - stress psychosocial (intimidation, peur de sourire) et des soins	Impact de la maladie sur les familles : stress et anxiété pour la vie actuelle et future de leur enfant avec cette maladie. La méconnaissance de la maladie amplifie ce stress.
A. Alqad, A.C. O'Connell (Allemagne) (31)	13 parents d'enfants AI et DI	Interviews	Nécessité d'un traitement précoce selon les parents, dès les dents temporaires : préoccupation pour l'esthétique plus que pour la fonction (intégration et regard des autres). Les parents atteints sont d'autant plus insistants sur ce point.	Le traitement rapide et les connaissances du dentiste pédiatrique sont fortement demandés par les parents.

A. Lyne (Royaume Uni) (32)	60 enfants et adolescents AI entre 5 et 17 ans	Questionnaire PROM (Patients-Reported Outcom Mesure)	- 72% éprouvent parfois ou souvent de la sensibilité ou de la douleur sur leurs dents. - 76% ne sont pas contents de l'aspect de leurs dents (la majorité des patients en post-traitement ont indiqué être satisfaits de leurs dents). - 29 % trouvent que leurs dents affectent leur confiance en eux.	Les préoccupations des patients qui reviennent le plus sont leur apparence et leur confiance en eux, puis la douleur. Moins de patients disent subir des moqueries. Les enfants qui ont bénéficié d'un traitement sont globalement satisfaits de leurs dents et ressentent un bénéfice. Cela montre l'importance d'une orientation précoce vers des centres spécialisés
S. Wiemann (Allemagne) (33)	257 patients atteints de différentes maladies rares âgés de 16 ans ou plus	OHIP 14 (qualité de vie orale)	Dans le groupe comprenant les défauts de minéralisation dont l'AI et la DI, le score moyen OHIP 14 était de 15,9. Dans la population générale Allemande le score OHIP14 a été évalué à 4,09.	Les maladies rares avec des symptômes oro-faciaux ont un impact sur la qualité de vie orale.

Tableau 1 : Littérature : conséquences des maladies (AI, DI) sur la qualité de vie orale

2.2.1 Préjudice fonctionnel et douloureux

La sensibilité et la douleur liées à l'amélo- et dentinogenèse imparfaite sont des points qui sont largement évoqués par les enfants sondés dans toutes les études. Il y a une demande de diminution de la sensibilité dans les soins attendus.

On constate aussi des difficultés lors de l'alimentation et les patients rapportent devoir éviter certains aliments ou utiliser une paille pour boire.

Les scores relatifs à la qualité de vie orale montrent qu'elle est impactée par les symptômes de la maladie et qu'elle est plus faible que pour des enfants sains.

2.2.2 Préjudice esthétique, perception de soi

L'esthétique prend une part importante dans la perception de soi. Les enfants atteints d'AI ou de DI souffrent de préjudices esthétiques dus aux dyschromies, à la morphologie, à l'état de surface de leurs dents et à la perte de DVO.

Les résultats des différentes études montrent que les enfants atteints d'AI ou de DI ne sont pas satisfaits de leur sourire et évitent de montrer leurs dents. Les patients interrogés sur leur ressentis rapportent de l'embarras, de la honte et une faible confiance en eux.

Une qualité de vie orale faible est corrélée avec des problèmes de forme et de couleur de dents.

Les parents interrogés dans les différentes études se soucient beaucoup de l'aspect esthétique de la maladie de leur enfant et évoquent la nécessité d'un traitement précoce.

Les études qui ont analysé l'impact des traitements montrent une amélioration de la perception de soi et une plus grande satisfaction du sourire.

2.2.3 Impact psycho-social

En plus du regard négatif qu'ils portent sur eux-mêmes, ces enfants sont sujets à des moqueries de la part d'autres enfants, à l'origine d'une détresse sociale. Les parents d'enfants atteints d'AI parlent d'un stress psycho-social de leur enfant dû à du harcèlement, de l'intimidation et la peur de sourire.

Quelques études mettent en lumière la demande et la nécessité de solutions à ces problèmes psycho-sociaux : groupe de parole, suivi psychologique, plateforme internet.

2.2.4 Conclusion

Toutes les études citées précédemment montrent l'impact de l'amélo- et dentinogenèse imparfaite sur la qualité de vie orale des enfants.

L'impact psycho-social est étudié, la plupart du temps par la fréquence des moqueries subies, mais aucune étude ne s'intéresse aux termes de harcèlement (physique ou moral) ou de cyber-harcèlement. Or cette forme de harcèlement apparaît dans les années 2000 avec l'apparition des réseaux sociaux et concerne 15 à 25% des jeunes. (34)

3 Etude de l'impact de la santé orale sur la qualité de vie

3.1 Contexte de l'étude

Dans la société actuelle, les relations et interactions humaines sont conditionnées en partie par l'apparence physique. Le visage et la bouche sont au centre de ces interactions, ils servent à la communication verbale avec la parole, et non verbale avec les mimiques et les émotions.

Les symboles sociétaux influencent notre perception de la beauté. Ainsi, un sourire harmonieux, symétrique, des dents blanches et lumineuses sont synonymes de beauté et de santé. Une anomalie de couleur des dents comme chez les patients atteints d'amélogénèse imparfaite ou de dentinogénèse imparfaite diminue l'esthétique du sourire et attire spontanément le regard des interlocuteurs.

Comme vu précédemment, les patients disent éviter de sourire, se cacher la bouche, avoir honte de leurs dents. Les quelques études ayant mis en lumière l'impact psycho-social de ces maladies montrent que ces enfants sont moqués et taquinés.

Le harcèlement est défini comme un comportement agressif répétitif, intentionnellement malveillant et impliquant un déséquilibre de pouvoir entre l'auteur et la personne agressée. Ce terme regroupe la violence physique, verbale, relationnelle et la cyberviolence. (35) L'impact psycho-social est, de manière générale, peu étudié pour ces maladies et le cyber harcèlement n'a jamais été étudié.

Cette thèse s'inscrit dans le cadre d'une étude multicentrique nationale : « Impact psycho-social des amélo- et dentinogénèses imparfaites chez le jeune ». Le projet AiDiBull, coordonné par le Dr. Emmanuelle NOIRRIT-ESCLASSAN (promoteur : CHU de Toulouse), vise à évaluer la qualité de vie orale, l'anxiété liée aux soins dentaires et le harcèlement chez les jeunes âgés de 10 à 18 ans atteints d'amélogénèse imparfaite (AI) ou de dentinogénèse imparfaite (DI) qui consultent les CRM de Paris, Strasbourg et les Centres de Compétence des Maladies Rares (CCMR) de Bordeaux, Lyon, Marseille, Nantes et Toulouse.

3.2 Objectifs

Dans cette thèse sera faite une analyse des premiers résultats recueillis entre octobre 2021 et mai 2022 dans le projet AiDiBull en comparaison avec un pool de patient exempts d'anomalie de structure dentaire.

L'objectif principal est d'évaluer l'impact psycho-social de l'amélo- et dentinogenèse imparfaite chez les adolescents de 10 à 18 ans atteints.

Concernant les objectifs secondaires, il s'agit d'étudier l'impact de la santé orale sur la qualité de vie, d'étudier le bien-être émotionnel et l'image de soi, en confrontant la vision des parents et des adolescents.

La proportion d'enfants harcelés sera évaluée en fonction des différentes dimensions du harcèlement (face à face ou par internet). Les résultats seront analysés en parallèle avec la perception de la qualité de vie et le point de vue des parents.

L'anxiété liée aux soins médicaux sera évaluée chez l'adolescent et ses parents.

3.3 Matériel et méthodes

Il s'agit d'une étude observationnelle transversale non interventionnelle nationale avec recrutement prospectif et consécutif des participants. Les informations sont recueillies par des auto-questionnaires et par un examen bucco-dentaire conventionnel, clinique et radiologique.

Dans le cadre de cette thèse, seules seront analysés les données des 30 premiers patients inclus dans le projet AiDiBull.

Pour avoir une base de comparaison, nous avons collecté les données d'un groupe témoin avec des patients de la même tranche d'âge, non atteints d'AI ou de DI, consultant pour un bilan bucco-dentaire de routine.

- Examen clinique :

Lors d'une consultation de suivi ou de soins (mais pas lors d'une consultation diagnostique), l'enquête est présentée à l'enfant et à ses parents, les critères d'inclusion et de non inclusion sont vérifiés et le consentement éclairé des enfants et des parents est recueilli.

Lors de l'examen clinique bucco-dentaire, les données de l'état bucco-dentaire sont collectées par l'investigateur sur l'application Sphinx Online, gérée par le CHU de Toulouse.

- Auto-questionnaire :

Les auto-questionnaires anonymisés sont remplis par le patient et son parent, sur papier ou par voie électronique sécurisée via un QR code avant ou après la consultation.

Le questionnaire adolescent/patient contient un questionnaire sur l'anxiété liée aux soins, un autre sur la qualité de vie orale et un sur le harcèlement.

Le questionnaire parent contient un questionnaire sur l'anxiété liée aux soins dentaires du parent et un sur la qualité de vie orale de l'enfant évaluée par son parent.

Les questionnaires utilisés sont les suivants :

- CFSS-DS : Children's Fear Survey Schedule-Dental Subscale (36), pour mesurer l'anxiété liée aux soins dentaires des enfants. Si le score est supérieur à 38, l'enfant est considéré comme anxieux.
- MDAS : Modified Dental Anxiety Scale (37), pour mesurer l'anxiété liée aux soins dentaires des parents. Si le score est supérieur ou égal à 13, la personne est considérée comme anxieuse.
- COHIP : Child Oral Health Impact Profile (38), validé en français, pour mesurer la qualité de vie orale auto-reportée par les adolescents. Ce questionnaire de 34 questions évalue cinq domaines : santé bucco-dentaire, bien-être fonctionnel, bien-être socio-émotionnel, environnement scolaire, image de soi. Le score maximum est de 136. Un score élevé signe une santé orale impactant peu la qualité de vie, donc une qualité de vie satisfaisante.
- P-CPQ: Parents Perception of the Child's OHR-QOL (39), concerne l'impact de l'état bucco-dentaire sur le bien-être des enfants et sur leur vie quotidienne, ainsi que l'impact sur leurs familles. Ce questionnaire évalue quatre domaines : santé bucco-dentaire, bien-être fonctionnel, bien-être émotionnel, bien-être social. Le score maximum est de 124 et montre alors un impact négatif de la santé orale sur la qualité de vie.

- BCS-A : Bullying and Cyberbullying Scale for Adolescents (40), qui permet de mesurer les types de harcèlement chez les adolescents (harcelé/harceleur et face-face/via les réseaux sociaux). Il y a harcèlement si l'enfant coche au moins une fois la réponse « trois fois ou plus ».

3.4 Critères de sélection

- Critères d'inclusion :

Critères d'inclusion valable pour les deux groupes (expérimental et contrôle) :

- avoir de 10 à 18 ans,
- avoir accès à un téléphone portable et/ou tablette et/ou ordinateur personnel ou familial
- être couvert par la couverture sociale de l'un de ses parents
- comprendre le français et dont un des parents (ou représentant légal) comprend le français
- avoir déclaré sa non opposition et dont un des parents (ou représentant légal) a déclaré sa non opposition pour participer à l'étude.

Critères d'inclusion spécifiques aux adolescents du groupe expérimental :

- consulter dans les CRMR O-Rares de Strasbourg ou Paris-Rothschild ou les CCMR de Bordeaux, Lyon, Marseille, Nantes, Toulouse pour une consultation de soin ou de suivi
- être porteur d'amélogénèse imparfaite ou de dentinogénèse imparfaite non syndromique

Critère d'inclusion spécifique aux adolescents du groupe contrôle :

- patient consultant pour une consultation de suivi

- Critères de non inclusion :

Critère de non inclusion valable pour les deux groupes (expérimental et contrôle) :

- enfant ne sachant pas lire ou dont les 2 parents (représentants légaux) ne savent pas lire.

Critère de non inclusion spécifique aux adolescents du groupe expérimental :

- enfant se présentant pour une consultation diagnostique

Critères de non inclusion spécifiques aux adolescents du groupe contrôle :

- être porteur d'amélogénèse imparfaite ou de dentinogénèse imparfaite
- être atteint d'autres anomalies de l'émail ou de la dentine

3.5 Présentation des résultats

Le groupe expérimental de 30 patients/adolescents inclus entre octobre 2021 et mai 2022 est composé de 15 filles et 15 garçons, dont la moyenne d'âge est de 12,8 ans. Le nombre de sujets nécessaires dans l'étude est de 76. Nous ne présentons donc que des résultats préliminaires.

La majorité des adolescents inclus sont atteints d'amélogénèse imparfaite (10 ont une forme hypoplasique, 6 hypomature, 4 hypominéralisée et 4 mixte). Seulement 4 sont atteints de dentinogénèse imparfaite. Sur les 30 adolescents inclus, 21 ont une atteinte sévère selon le score IOTA (41). Treize patients ont été inclus dans le centre de compétence O-Rares de Toulouse, 9 dans le centre de référence de Strasbourg, 6 dans le centre de compétence de Nantes, 1 dans le centre de Lyon et 1 dans le centre constitutif de Paris Rothschild.

Le groupe témoin est composé de 25 adolescents inclus entre mars 2022 et mai 2022 dans la région toulousaine ; la moyenne d'âge est de 12,9 ans.

	Groupe expérimental (n=30)	Groupe contrôle (n=25)
Etat gingival moyen (Score de Loe et Silness)	0,72 (gingivite légère)	0,34 (gingivite légère)
Caries	Caries dentinaires traitées = 10 Caries dentinaires non traitées = 4	Caries dentinaires traitées = 6 Caries dentinaires non traitées = 3
Antécédents de soins	29 sujets	7 sujets
Occlusion	- Béances antérieure et/ou postérieure = 11 - Articulé inversé = 7 - Supraclusion = 7 - Dysharmonie dent arcade = 6 - Proalvéolie = 5 - Denture espacée = 8	- Béances antérieure et/ou postérieure = 3 - Articulé inversé = 2 - Supraclusion = 3 - Dysharmonie dent arcade = 5 - Proalvéolie = 1 - Denture espacée = 0

Tableau 2 : Etat dentaire des deux groupes

3.5.1 Impact de la santé orale sur la qualité de vie

- Perception par les adolescents :

Les résultats du questionnaire COHIP (Child Oral Health Impact Profile) mettent en évidence un impact de la santé orale sur la qualité de vie supérieur dans le groupe atteint d'amélogenèse imparfaite ou de dentinogenèse imparfaite (groupe AI/DI) avec un score moyen de 72,3 comparé au groupe contrôle (score 106,1) (le score maximal est de 136).

La sévérité des anomalies de structure a été auto-évaluée par les adolescents. Nous avons pris en compte 4 critères :

- l'hypersensibilité évaluée par un score EVA (Echelle Visuelle Analogique) et considérée comme présente si l'EVA était supérieur ou égal à 4.

La question était « sur une échelle de 0 à 10, à combien évalues-tu la sensibilité de tes dents ? » (0 : pas sensible, 10 : très sensible).

- La dimension « santé orale » du questionnaire COHIP (un score élevé traduit une bonne qualité de vie orale).

- La dimension « bien-être fonctionnel » du questionnaire COHIP.
- L'aspect des dents évalué sur une échelle de 0 à 10 en répondant à la question « sur une échelle de 0 à 10, comment trouves-tu l'aspect de tes dents ? » (0 : pas satisfait, 10 : très satisfait). L'aspect des dents est considéré comme satisfaisant si la réponse est supérieure ou égale à 6.

Score moyen	AI / DI	TEMOINS
Hypersensibilité /10	6,1	3,9
Score de santé orale (COHIP) /40	19,8	29,1
Score bien-être fonctionnel (COHIP) / 24	14,7	21,6
Aspect des dents /10	3,4	7,3
Score total / 84	44	61.9

Tableau 3 : perception des anomalies de structure par les adolescents

Nous pouvons mettre en évidence que les adolescents du groupe AI/DI perçoivent une moins bonne santé bucco-dentaire que le groupe témoin et une hypersensibilité plus marquée. En effet, 76,7% sont considérés comme hypersensibles contre 44,4% dans la population du groupe contrôle.

Concernant les dimensions santé orale et bien-être fonctionnel, les résultats révèlent un impact négatif de l'état dentaire sur la qualité de vie dans le groupe AI/DI comparé au groupe témoin.

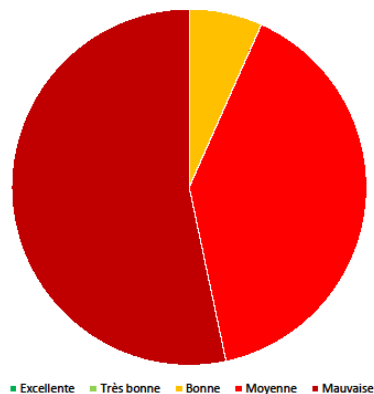
Grâce à ces quatre résultats, nous mettons en évidence que les anomalies de structure liées à l'amélogénèse imparfaite et la dentinogénèse imparfaite impactent négativement la perception de leur santé bucco-dentaire par les adolescents et se reflètent dans leur qualité de vie au niveau fonctionnel et esthétique.

- Perception par les parents :

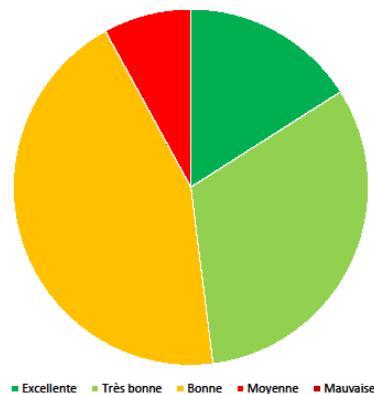
A la question « comment évaluez-vous la santé des dents, lèvres, mâchoires et bouche de votre enfants ? », 93,3% des parents du groupe AI/DI considèrent la santé bucco-dentaire de leur enfant comme « moyenne » ou « mauvaise » alors que 92% des parents du groupe témoin la considèrent comme « bonne », « très bonne » ou « excellente ».

60% des parents du groupe AI/DI considèrent que l'état bucco-dentaire de leur enfant affecte « beaucoup » ou « énormément » son bien-être alors que 88% des parents du groupe témoin considèrent qu'il l'affecte « un petit peu », « très peu » ou « pas du tout ».

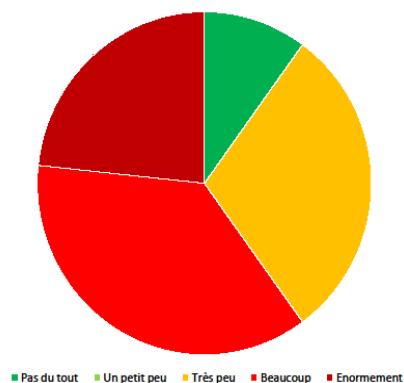
Santé bucco-dentaire des adolescents perçue par leur parent (groupe atteint)



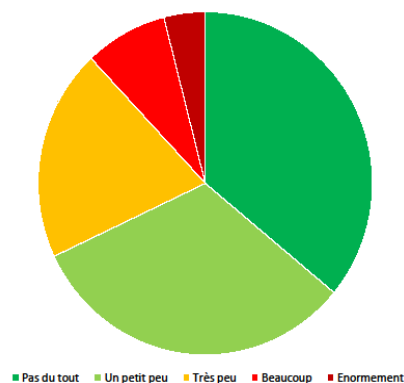
Santé bucco-dentaire des adolescents perçue par leur parent (groupe contrôle)



Impact de la santé bucco-dentaire sur le bien-être des adolescents (groupe atteint)



Impact de la santé bucco-dentaire sur le bien-être des adolescents (groupe contrôle)



3.5.2 Perception de soi et bien-être émotionnel

Les anomalies de structures liées à l'AI et la DI rendent le sourire des malades inesthétique et nous avons mis en évidence un mal être socio-émotionnel chez les adolescents étudiés. Nous nous sommes intéressés à certaines dimensions du questionnaire COHIP comme le bien-être émotionnel, l'environnement scolaire et l'image de soi et avons constaté un écart franc entre le groupe AI/DI et le groupe contrôle pour le bien-être fonctionnel (10,5 d'écart pour un score maximal de 32) et l'environnement scolaire (5,5 d'écart pour un score maximal de 16).

En revanche, nous n'avons pas pu mettre en évidence de différence marquée entre les deux populations dans le domaine « image de soi ». Les questions de ce domaine sont celles qui ont eu le plus de réponse « ne sais pas ».

Les questions posées étaient :

- Je pense que j'ai de bonnes dents.
- Lorsque j'aurai vieilli (grandi) je crois (pense) que j'aurai de bonnes dents.
- Lorsque j'aurai vieilli (grandi) je crois (pense) que j'aurai une bonne santé générale.
- Je me sens bien dans ma peau

Pour ces quatre questions, la moyenne des réponses est plus élevée dans le groupe contrôle (meilleure image de soi).

- As-tu été rassuré(e) ou mis(e) en confiance grâce à tes dents, ta bouche ou ton visage ?
- As-tu eu l'impression que tu étais beau/belle à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?

Pour ces deux questions, la moyenne est plus élevée dans le groupe expérimental mais 1/3 a répondu « ne sais pas » à la question « As-tu été rassuré(e) ou mis(e) en confiance grâce à tes dents, ta bouche ou ton visage ? ».

	Bien-être émotionnel /32	Environnement scolaire /16	Image de soi /24
AI/DI	15,8	9,4	12,2
Témoins	26,3	14,9	13,4

Tableau 4 : Score COHIP pour les domaines « bien-être émotionnel », « environnement scolaire » et « image de soi »

Dans le domaine esthétique, l'évaluation de l'aspect dentaire par échelle visuelle analogique (EVA) révèle un score moyen et une satisfaction plus faibles dans le groupe expérimental. En effet, à la question « comment trouves-tu l'aspect de tes dents ? », le groupe expérimental obtient un score moyen de 3,4 alors que le groupe contrôle obtient 7,3. 83,3% des patients AI/ DI ne sont pas satisfaits de l'aspect de leurs dents contre 40% dans le groupe témoin (score $\leq$ ou $=$ à 6).

Ces résultats mettent en avant l'impact des anomalies de structure de l'amélogenèse imparfaite et de la dentinogenèse imparfaite sur l'aspect du sourire et sur l'image que portent ces adolescents sur leur bouche.

Le bilan socio-émotionnel fait état d'un mal-être dans cette population avec des adolescents qui éprouvent des difficultés dans leurs milieux social et scolaire, sans toutefois se plaindre d'une altération de l'image de soi selon le questionnaire COHIP.

3.5.3 Anxiété liés aux soins médicaux

Les personnes atteintes de DI ou d'AI sont amenées à consulter régulièrement leur chirurgien-dentiste et pour certaines à être suivies exclusivement en milieu hospitalier (18/30). La question de l'anxiété liée aux soins médicaux et son impact sur le bien-être peut se poser pour cette population.

Cette anxiété a été évaluée chez les adolescents (score CFSS-DS : Children's Fear Survey Schedule-Dental Subscale) et chez leurs parents (score MDAS : Modified Dental Anxiety Scale).

Nous n'avons pas pu mettre en évidence d'anxiété liée aux soins plus importante dans le groupe AI/DI. En effet, 17% étaient considérés comme anxieux contre 20% dans le groupe contrôle.

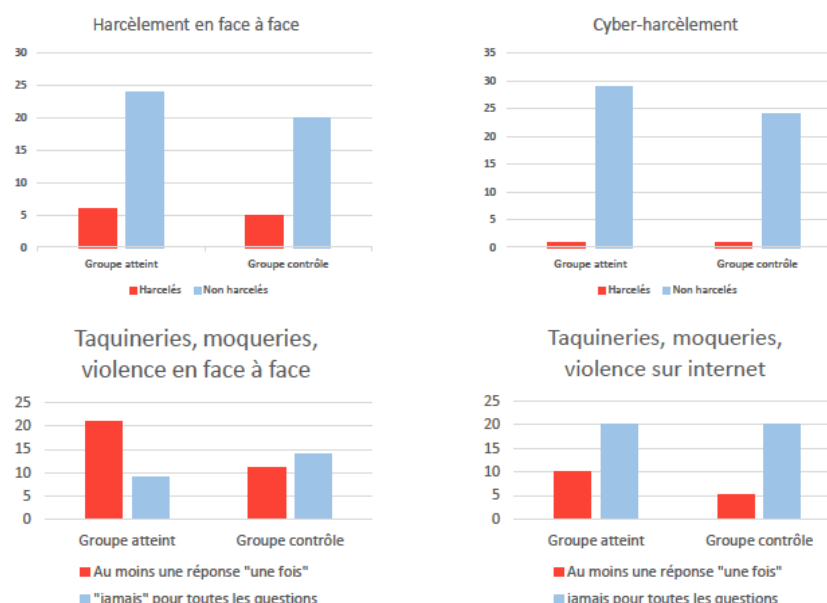
Le nombre de parents anxieux était plus élevé que celui des adolescents dans les deux groupes. La majorité des adolescents anxieux avait un parent qui l'était aussi.

Nous ne pouvons donc pas conclure que l'atteinte par amélogenèse imparfaite ou dentinogenèse imparfaite provoque une anxiété liée aux soins médicaux. En revanche, les parents transmettraient leur anxiété à leurs enfants.

3.5.4 Harcèlement et cyber-harcèlement

Avec le questionnaire BCS-A (Bullying and Cyberbullying Scale for Adolescents), un enfant est considéré comme harcelé s'il a au moins une réponse « trois ou plus ». Nous constatons que dans le groupe expérimental comme dans le groupe témoin, 20% des adolescents sont considérés comme harcelés en face à face et 4% sont cyber-harcelés, même si l'on peut douter que la cause du harcèlement soit d'origine dentaire pour le groupe contrôle.

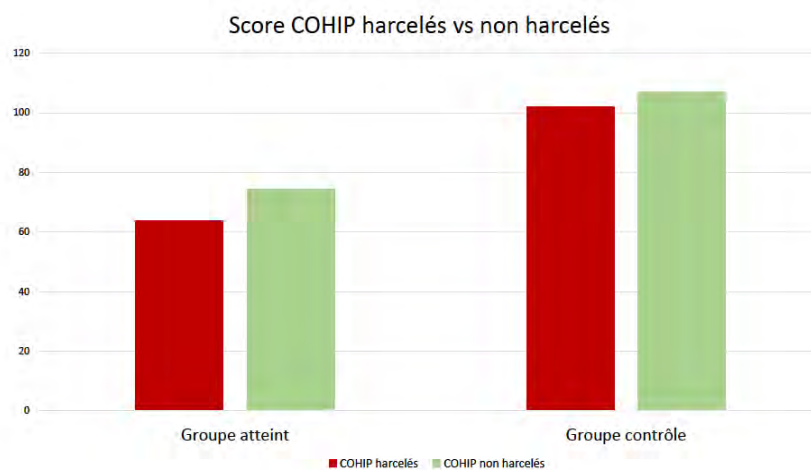
Si nous prenons maintenant en compte toutes les réponses, excepté « jamais », 70% des sujets AI/DI ont déjà subi des moqueries, taquineries ou violences en face à face contre 44% dans le groupe contrôle. 34% des sujets AI/DI en ont déjà subi sur internet contre 20% dans le groupe témoin.



Nous ne pouvons pas mettre en évidence de différence sur le pourcentage d'adolescents considérés comme harcelés dans les deux populations mais nous constatons tout de même une fréquence plus importante des moqueries, taquineries et violences dans la population des adolescents atteints d'AI ou de DI.

L'analyse des résultats au questionnaire COHIP pour les adolescents harcelés et non harcelés dans les deux populations montre un écart plus important entre le score COHIP des harcelés et des non harcelés dans le groupe des adolescents atteints d'AI ou de DI que dans le groupe témoin.

Dans le groupe expérimental, nous avons remarqué une différence très importante dans la sous-section « bien-être émotionnel » avec un score de 17,5 pour les adolescents non harcelés contre 9,2 pour les harcelés.



Nous pouvons émettre l'hypothèse que le harcèlement subi par les adolescents atteint d'AI ou de DI a un impact sur leur qualité de vie, notamment au niveau émotionnel. Même si les adolescents des deux groupes rapportent les mêmes scores de harcèlement, la différence observée au questionnaire COHIP entre les adolescents harcelés AI /DI et les adolescents sans anomalie dentaire suggère que la maladie et l'impact qu'elle a sur leur sourire pourrait être la cause de ce harcèlement.

Dans le questionnaire adressé aux parents, une question s'intéresse à leur perception du harcèlement. L'analyse des réponses données par les parents des adolescents harcelés montre une sous-estimation ou une méconnaissance des parents quel que soit le groupe (expérimental ou témoin).

En effet, pour les 6 adolescents AI/DI harcelés, 4 parents ont répondu « jamais » à la question « votre enfant a-t-il été embêté par d'autres enfants ? ». Dans le groupe témoin, ce sont tous les parents des adolescents harcelés qui ont répondu « jamais ».

3.6 Discussion

Dans cette étude préliminaire des résultats du projet AiDiBull, nous montrons que la santé orale des adolescents atteints d'AI ou de DI a un impact sur la qualité de vie avec les résultats du questionnaire COHIP et la comparaison avec le groupe contrôle. Le groupe contrôle constitué pour cette thèse obtient un score moyen de 106, ce qui correspond aux données de la littérature pour la population générale (score moyen de 102). (38,42)

En revanche, il n'existe aucune donnée pour la population d'enfants et adolescents atteints d'AI ou de DI. La taille limitée de l'échantillon et la faible proportion d'adolescents atteints de dentinogenèse imparfaite ne nous permet pas de faire de comparaison entre les deux maladies (AI et DI).

Comme nous l'avons montré, les adolescents atteints d'AI et de DI ne sont pas satisfaits de leur sourire et leur bien-être socio-émotionnel est altéré par leur santé orale. Certaines études montrent que les traitements proposés aux patients pour améliorer leur sourire et diminuer leur hypersensibilité ont fait leur preuve, ils sont satisfaits de leur sourire et retrouvent une confiance en eux (25,28,32). La mise en place de traitements précoces est donc une solution à apporter à ces patients pour limiter l'impact psycho-social de la maladie.

Les données collectées sur l'anxiété liée aux soins médicaux ne montrent pas une anxiété majorée dans la population atteinte d'AI ou de DI.

Dans la littérature, on considère que 9% des enfants et adolescents ont une anxiété vis à vis des soins dentaires (43). La population de notre étude est considérée comme anxieuse à 17% mais elle n'inclut que des adolescents et il semblerait que l'avancée en âge réduise l'anxiété (43). De plus, en fonction du questionnaire utilisé pour évaluer l'anxiété, les scores peuvent être différents.

Cependant, nous n'avons pas mis en évidence d'anxiété supérieure chez les adolescents atteint d'AI ou de DI par rapport au groupe contrôle. Dans l'article de référence de G. Klingberg (43), il est montré que la douleur, les expériences de soins négatives et la non familiarité du soignant augmentent l'anxiété liée aux soins. Or dans la population atteinte d'AI ou de DI, les nombreux soins dentaires et visites de contrôle familiarisent les enfants avec le personnel soignant. De plus, la majorité est suivie en milieu hospitalier (18/30) par des spécialistes qui savent gérer leur pathologie, l'anxiété et les soins qui l'accompagnent. Tous ces éléments peuvent expliquer l'anxiété limitée de cette population.

En ce qui concerne le harcèlement et la vision des parents sur le sujet, nous avons montré que la quasi-totalité des parents d'adolescents harcelés ne le soupçonnent pas. Visiblement, les adolescents se confient peu à leurs parents sur les violences qu'ils peuvent endurer. Ainsi, comme l'ont montré certaines études (26,27), proposer un système d'écoute, un groupe de parole ou un suivi psychologique aux adolescents atteints de ces maladies pourrait permettre de diminuer l'impact négatif sur leur bien-être et de diminuer les moqueries et violences.

Les résultats préliminaires du projet AiDiBull étudiés dans cette thèse mettent en lumière certaines facettes de l'impact de la maladie sur les adolescents étudiés mais avec seulement 30 sujets inclus, il est difficile de tirer des conclusions. L'étude doit inclure 76 patients, ce qui permettra de donner plus de signification aux résultats.

Conclusion

L'amélogenèse imparfaite et la dentinogenèse imparfaite sont deux maladies génétiques rares qui affectent le développement et la structure, respectivement de l'émail et de la dentine. La littérature relate un impact psycho-social de ces maladies avec une altération du bien-être fonctionnel, émotionnel et social des enfants atteints qui subissent régulièrement des moqueries. Cependant, aucune étude ne s'est réellement intéressée au harcèlement et à son impact sur les adolescents malades. En effet, de nos jours c'est un sujet de plus en plus abordé dans la société mais ce phénomène a toujours existé.

L'objectif de notre travail était d'analyser les résultats préliminaires du projet multicentrique AiDiBull "Impact psycho-social des amelo- et dentinogenèse imparfaite chez le jeune". Nous avons étudié un groupe de 30 patients (26 AI et 4 DI) sur les 76 nécessaires au projet, et l'avons comparé à un groupe contrôle de 25 patients exempts de ces deux maladies.

Les résultats ont montré que les adolescents atteints d'AI ou de DI percevaient leur santé orale comme mauvaise et que cela impactait négativement leur qualité de vie tant dans le domaine fonctionnel qu'esthétique et social. L'atteinte du sourire par leur maladie est donc un frein dans leur développement social et émotionnel. Peu de ces adolescents ont été considérés en situation de harcèlement mais la majorité a quand même rapporté subir régulièrement des moqueries, taquineries et violence. Cependant, les parents sont peu conscients de ce que subissent leurs enfants.

Les résultats de notre étude sont prometteurs pour la suite du projet AiDiBull qui va permettre de disposer d'un état des lieux des difficultés rencontrées par ces patients et de leur proposer des solutions adéquates. La prise en charge précoce de l'esthétique de leur sourire est primordiale pour retrouver leur confiance en eux et leur permettre de se développer sereinement dans leur environnement social et scolaire sans se sentir différents des autres. Des solutions d'accompagnement psychologique sont à mettre en place avec ces adolescents pour leur permettre de se confier sur les difficultés engendrées par leur maladie.

Vu le Président du Jury
Pr Frédéric VAYSSE



Vu la Directrice de Thèse
Dr Emmanuelle NOIRRIT-ESCLASSAN



Tableau des illustrations

Figure 1 : amélogénèse imparfaite, émail hypoplasique (service d'odontologie pédiatrique Toulouse).....	12
Figure 2 : amélogénèse imparfaite, émail hypomature (service d'odontologie pédiatrique Toulouse).....	13
Figure 3 : amélogénèse imparfaite, émail hypominéralisé (service d'odontologie pédiatrique Toulouse)	13
Figure 4 : orthopantomogramme d'un patient atteint d'amélogénèse imparfaite hypominéralisée	14
Figure 5 : dentinogénèse imparfaite en denture permanente (service d'odontologie pédiatrique Toulouse)	17
Figure 6 : arcade mandibulaire d'un patient atteint de dentinogénèse imparfaite en denture temporaire (service d'odontologie pédiatrique Toulouse)	17
Figure 7 : orthopantomogramme d'un patient atteint de dentinogénèse imparfaite.....	18
 Tableau 1 : Littérature : conséquences des maladies (AI, DI) sur la qualité de vie orale	22
Tableau 2 : Etat dentaire des deux groupes.....	30
Tableau 3 : perception des anomalies de structure par les adolescents	31
Tableau 4 : Score COHIP pour les domaines « bien-être émotionnel », « environnement scolaire » et « image de soi ».....	33

Annexes

Annexe 1 : Résumé du protocole AiDiBull

PROMOTEUR	CHU de TOULOUSE Hôtel Dieu 2, rue Viguerie TSA 80035 31059 TOULOUSE cedex 9
INVESTIGATEUR	Dr Emmanuelle Noirrit-Esclassan Odontologie Pédiatrique Hôpital des Enfants 330, avenue de Grande-Bretagne, TSA 70034 31059 TOULOUSE CEDEX 9
TITRE	« Impact psycho-social des amélo- et dentinogenèses imparfaites chez le jeune » <i>AiDiBull</i>
JUSTIFICATION / CONTEXTE	Dentinogenèse et amélogénèse imparfaites sont des anomalies de développement dentaire héréditaires rares qui se traduisent par une esthétique du sourire sévèrement diminuée (anomalie de forme et de couleur) et des douleurs liées aux fractures amélaies spontanées laissant la dentine à nu. Ces douleurs ont des conséquences fonctionnelles car elles sont présentes lors de la mastication, de la ventilation et du brossage dentaire. Leurs conséquences psycho-sociales ont été peu étudiées. Le harcèlement est défini comme un comportement agressif répétitif, intentionnellement malveillant et impliquant un déséquilibre de pouvoir entre l'auteur et la personne agressée. Les formes les plus courantes de harcèlement comprennent la violence physique, verbale, relationnelle et la cyberviolence. Les adolescents sont connectés aux media sociaux à un moment où leur niveau de développement social et émotionnel les rend vulnérables à la pression de leurs pairs. Chez les patients atteints d'amélogénèse imparfaite (AI) ou de dentinogenèse imparfaite (DI), peu d'études ont mesuré l'impact psychosocial et jamais le cyberharcèlement. Parekh a montré que 50% de son échantillon d'adolescents avec AI (n=40) avaient subi des moqueries, avec une fréquence augmentée chez les garçons. Les patients ayant une AI rapportaient un rejet social (95% rapportaient des moqueries en lien avec leur aspect dentaire) et une détresse psychologique augmentée, une qualité de vie diminuée, comparés à un groupe sans AI. Dans l'étude de Sneller, les adolescents ne semblaient pas avoir subi d'effets psychosociaux négatifs de l'AI, mais c'était en contradiction avec la perception de leurs parents. Selon Pousette-Lundgren, la qualité de vie orale était significativement diminuée par rapport à des contrôles sains. L'anxiété liée aux soins dentaires en revanche n'était pas augmentée. Concernant les patients atteints de dentinogenèse imparfaite, la question de leur qualité de vie orale n'a jamais été relatée. Friedlander a montré que la qualité de vie orale était très diminuée chez les patients porteurs d'anomalie dentaire de couleur ou de forme. L'anxiété liée aux soins dentaires de ces patients a été peu évaluée. Pourtant, ils sont exposés à des traitements longs et répétés avec parfois une errance diagnostique. Enfin, leur plainte est esthétique mais concerne aussi la douleur au cours de la mastication et du brossage, ce qui pourrait majorer leur anxiété vis à vis des soins. Considérant la rareté des études, nous proposons une étude basée sur une enquête par auto-questionnaires sur la qualité de vie orale, l'anxiété liée aux soins dentaires et le harcèlement, chez les jeunes âgés de 10 à 18 ans atteints d'amélogénèse imparfaite (AI) ou de dentinogenèse imparfaite (DI), associée à un examen bucco-dentaire réalisé en soins courants ainsi qu'une étude qualitative de l'exposition au harcèlement. Notre hypothèse est que le harcèlement de jeunes atteints d'AI ou de DI dans leur vie quotidienne (scolaire, sur les réseaux sociaux...) diminue la qualité de vie orale et majore l'anxiété liée aux soins dentaires.
OBJECTIFS	Principal : Évaluer l'impact du harcèlement sur la qualité de vie liée à la santé orale des enfants et adolescents de 10 à 18 ans atteints de AI ou de DI non syndromiques et consultant les CRMR O-Rares de Paris-Rothschild et de Strasbourg et les CCMR de Bordeaux, Lyon, Marseille, Nantes, Toulouse, ainsi que le CRMR Oscar de Toulouse (service d'endocrinologie) qui, lorsqu'il reçoit des patients atteints de ces maladies rares les oriente vers le CCMR O-Rares de Toulouse. Secondaires : 1/ étudier la fréquence des différentes dimensions de harcèlement (harcelé/harceleur) dans la population d'enfants et adolescents atteints de DI et AI 2/ décrire la fréquence d'enfants harcelés en tenant compte des caractéristiques socio-démographiques de l'enfant 3/ Étudier l'état de santé bucco-dentaire des enfants, en particulier la répartition du degré de sévérité de l'AI et de la DI 4/ décrire la perception de la sévérité des anomalies de structure AI et DI par l'enfant 5/ décrire la fréquence d'enfants harcelés en tenant compte de l'état de santé bucco-dentaire de l'enfant évalué par le praticien 6/ évaluer l'anxiété liée aux soins dentaires de l'enfant et d'un de ses parents 7/ évaluer la qualité de vie orale des enfants dans ses différentes dimensions, rapportée par eux-mêmes et par un de leurs parents.

	8/ étudier qualitativement le harcèlement dans le CCMR de Toulouse
SCHEMA DE LA RECHERCHE	Etude observationnelle transversale non interventionnelle nationale avec recrutement prospectif et consécutif des participants. Cette étude transversale repose sur ○ un examen clinique conventionnel, réalisé dans le cadre des consultations de suivi, et ○ des auto-questionnaires anonymisés pour les enfants et leurs parents. Certains patients du CCMR de Toulouse seront inclus dans une étude qualitative avec entretien individuel semi-structuré.
CRITERES D'INCLUSION	• avoir de 10 à 18 ans, • consulter dans les CRMR O-Rares de Strasbourg et Paris-Rothschild ou les CCMR de Bordeaux, Lyon, Marseille, Nantes, Toulouse pour une consultation de soin ou de suivi • être porteur d'amélogénèse imparfaite non syndromique ou de dentinogénèse imparfaite • ayant accès à un téléphone portable et/ou tablette et/ou ordinateur personnel ou familial • couvert par la couverture sociale de l'un de ses parents • comprenant le français et dont un des parents (ou représentant légal) comprend le français • avoir déclaré sa non opposition et dont un des parents (ou représentant légal) a déclaré sa non opposition pour participer à l'étude. • Critère d'inclusion supplémentaire spécifique à la participation à l'étude qualitative dans le CCMR de Toulouse : sujet et un de ses parents (ou représentant légal) ayant déclaré leur non opposition pour participer à l'entretien semi-structuré
CRITERES DE NON INCLUSION	• Enfant se présentant pour une consultation diagnostique • Enfant ne sachant pas lire ou dont les 2 parents (représentants légaux) ne savent pas lire
CRITERES D'EVALUATION	<i>Critère d'évaluation principal de la recherche :</i> différence entre la moyenne du score total au questionnaire COHIP des patients harcelés et celle des patients non harcelés. Un jeune est considéré comme harcelé s'il répond au moins une fois « trois ou plus » au questionnaire BCS-A). <i>Principaux critères d'évaluation secondaires :</i> - Pour chacune des 4 dimensions du questionnaire BCS-A (harcelé face face/ harcelé via les réseaux sociaux/ harceleur face à face et harceleur via les réseaux sociaux), pourcentage d'enfants avec au moins une réponse « trois ou plus ». - Fréquence d'enfants harcelés en fonction des caractéristiques socio-démographiques rapportées par un parent (sexe, âge de l'enfant, composition familiale, temps passé sur les réseaux sociaux, niveau d'étude des parents) - Sévérité de l'atteinte bucco-dentaire, évaluée par le praticien lors de l'examen bucco-dentaire et radiologique, par le relevé de (annexe 1): ○ l'indice gingival d'inflammation (Loë et Silness) ○ l'hypersensibilité dentaire (Echelle Visuelle Analogique) ○ le score IOTA évaluant l'anomalie de couleur des dents selon 4 grades (annexe 1 : questionnaire praticien intégrant le score IOTA) ▪ pas d'anomalie ▪ anomalie légère (images 2-3-4) ▪ anomalie modérée (images 5-6-7) ▪ anomalie sévère (images 8-9-10) ○ le nombre de dents présentant une fracture amélaire en lien avec le défaut de structure ou ayant été reconstitué pour cette raison -La perception des anomalies de structure sera évaluée par l'enfant par 2 indices et 2 scores : ○ Indice d'hypersensibilité dentaire : hypersensibilité dentaire évaluée par score EVA (un score supérieur ou égal à 4 = hypersensibilité) ○ Indice d'aspect dentaire : d'aspect dentaire évalué sur une échelle de 0 à 10 (0 : aspect satisfaisant ; 10 : aspect non satisfaisant ; aspect dentaire considéré comme non satisfaisant si >4) ○ Scores moyens dans les domaines "santé bucco-dentaire" et "bien-être fonctionnel" du COHIP -Fréquence d'enfants harcelés en fonction de la sévérité de l'atteinte bucco-dentaire évaluée par le praticien -Score d'anxiété liée aux soins dentaires des parents par l'échelle DAS (Dental fear and anxiety) (un score > ou = 13 signifie une anxiété liée aux soins dentaires) et score d'anxiété liée aux soins dentaires des enfants (un enfant est considéré comme anxieux si le score est >38 sur une échelle de 15 à 75 de l'échelle CFSS-DS (Dental fear and anxiety in children). -comparer les scores des questionnaires COHIP (qualité de vie orale évaluée par les enfants) (annexe 3) et P-CPQ (qualité de vie orale évaluée par les parents) pour les dimensions « santé bucco-dentaire, bien être fonctionnel, bien-être socio émotionnel, environnement scolaire ».

	-Codage thématique à l'aide du logiciel NVivo des verbatim des entretiens individuels semi-structurés d'un sous-groupe d'enfants du CCMR O-Rares de Toulouse
TAILLE D'ETUDE	76
DUREE DE LA RECHERCHE	- Durée de la période d'inclusion : 18 mois - Durée de suivi par participant : 45 minutes (20 minutes de questionnaire et 15 minutes de recueil des données de l'examen clinique) - Durée totale de la recherche : 24 mois
ANALYSE STATISTIQUE DES DONNEES	L'analyse des données sera réalisée à l'aide du logiciel SPSS (package version 18, SPSS Institute, Cary, North Carolina, USA). Des statistiques descriptives seront réalisées pour toutes les variables qualitative (%) et numériques (moyenne, écart-type). Chi-deux sera utilisé pour comparer le score d'exposition au harcèlement en fonction du score de qualité de vie. Les scores d'anxiété liée aux soins dentaires de l'enfant, d'exposition au harcèlement et de qualité de vie orale feront l'objet d'analyses de régression logistique binaire univariées avec chaque variable indépendante (sexe, âge, niveau d'étude parental, structure familiale, sévérité de l'anomalie de structure, temps moyen passé sur les réseaux sociaux). Des analyses multivariées incluant toutes les variables indépendantes ou seulement celles significativement liées au critère d'évaluation principal seront testées. Le seuil de significativité sera fixé à 0,05.
RETOMBES ATTENDUES	Appuyer le développement - d'un support psychologique sous forme d'ateliers d'éducation thérapeutique, avec la participation des psychologues, afin de donner aux adolescents des outils de gestion du harcèlement. - d'une meilleure prise en charge dentaire de ces maladies rares et invalidantes, par le rétablissement précoce de l'esthétique du sourire de ces patients.

Annexe 2 : Questionnaire CFSS-DS (anxiété dentaire chez les adolescents)

	Absolument pas peur = 1	Un petit peu peur = 2	Une peur modérée = 3	Plutôt peur = 4	Très peur = 5
Les dentistes					
Les médecins					
Les piqûres					
Que quelqu'un examine ta bouche					
Devoir ouvrir la bouche					
Qu'une personne étrangère te touche					
Que quelqu'un te regarde					
L'utilisation de la turbine par le dentiste					
La vue du dentiste entrain de soigner avec sa turbine					
Le son de la turbine					
Que quelqu'un te mette des instruments dans la bouche					
De t'étouffer					
Devoir aller à l'hôpital					
Des personnes en vêtement blanc					
Qu'un dentiste te nettoie les dents					

Si le score est supérieur à 38, l'enfant est considéré comme anxieux

Annexe 3 : Questionnaire COHIP (impact de la santé orale sur la qualité de vie)

Domaine 1 : santé bucco-dentaire

Au cours des 3 derniers mois ...	Jamais = 4	Presque jamais = 3	Parfois = 2	Assez souvent = 1	Presque toujours = 0	Ne sais pas
As-tu mal aux dents ?						
As-tu respiré par la bouche ou ronflé ?						
Est-ce que tes dents ont eu des tâches, ou se sont décolorées ?						
As-tu eu des dents cassées, bizarres ou des espaces entre les dents ?						
As-tu eu des boutons ou des irritations dans la bouche ou autour de la bouche ?						
As-tu eu mauvaise haleine ?						
As-tu eu les gencives qui saignent ?						
As-tu eu de la nourriture qui se coinçait entre ou dans tes dents ?						
As-tu ressenti de la douleur aux dents ou des sensations désagréables au contact des aliments ou des objets chauds ou froids ?						
As-tu eu la bouche ou les lèvres sèches						

Domaine 2 : bien-être fonctionnel

Au cours des 3 derniers mois ...	Jamais = 4	Presque jamais = 3	Parfois = 2	Assez souvent = 1	Presque toujours = 0	Ne sais pas
As-tu eu des difficultés pour mordre ou mâcher des aliments comme des pommes, des carottes ou de la viande dure ?						
As-tu eu des difficultés à manger des aliments que tu aimerais manger à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
As-tu eu du mal à dormir à cause de ta bouche, de tes dents ou de ton visage ?						
As-tu eu des difficultés à prononcer certains mots à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
Est-ce que les autres ont déjà eu des difficultés à comprendre ce que tu disais à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
As-tu déjà eu du mal à garder tes dents propres ?						

Domaine 3 : bien-être émotionnel

Au cours des 3 derniers mois ...	Jamais = 4	Presque jamais = 3	Parfois = 2	Assez souvent = 1	Presque toujours = 0	Ne sais pas
As-tu été malheureux(se) ou triste à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
As-tu ressenti de l'angoisse ou de l'inquiétude à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
As-tu éprouvé de la timidité ou t'es-tu replié(e) sur toi-même à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
As-tu évité de sourire ou de rire avec d'autres enfants à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
As-tu été en colère à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
As-tu été taquiné(e), brutalisé(e) ou injurié(e) par d'autres enfants à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
As-tu eu l'impression que tu avais l'air différent(e) à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						

Domaine 4 : environnement scolaire

Au cours des 3 derniers mois ...	Jamais = 4	Presque jamais = 3	Parfois = 2	Assez souvent = 1	Presque toujours = 0	Ne sais pas
As-tu manqué l'école à cause d'un problème avec tes dents, ta bouche ou ton visage ?						
As-tu eu des difficultés à être attentif/ve à l'école à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
Est-ce qu'il t'est arrivé de ne pas vouloir parler/lire à voix haute en classe à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						
As-tu eu envie de ne pas aller à l'école à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						

Domaine 5 : image de soi

Avec les affirmations suivantes, tu es ...	Fortement en désaccord = 0	Plutôt en désaccord = 1	Ni en accord, ni en désaccord = 2	Assez souvent = 3	Plutôt en accord = 4	Ne sais pas
Je pense que j'ai de bonnes dents.						
Lorsque j'aurai vieilli (grandi) je crois (pense) que j'aurai de bonnes dents.						
Lorsque j'aurai vieilli (grandi) je crois (pense) que j'aurai une bonne santé générale.						
Je me sens bien dans ma peau						

Au cours des 3 derniers mois ...	Jamais = 0	Presque jamais = 1	Parfois = 2	Assez souvent = 3	Presque toujours = 4	Ne sais pas
As-tu été rassuré(e) ou mis(e) en confiance grâce à tes dents, ta bouche ou ton visage ?						
As-tu eu l'impression que tu étais beau/belle à cause de tes dents, de ta bouche ou de ton visage ?						

Annexe 4 : Questionnaire BCS-A (échelle de mesure du harcèlement chez les adolescents)

Au cours des trois derniers mois, combien de fois as-tu été harcelé(e) « hors connexion » / en face à face ?	Jamais	Une fois	Deux fois	Trois fois	Quatre fois ou plus
Un autre élève ou des élèves ...					
M'a/m'ont cogné(e), frappé(e), bousculé(e) ou poussé(e), volontairement					
M'a/m'ont forcé(e) à faire quelque chose que je ne voulais pas					
M'a/m'ont dit que les autres ne m'aimeraient pas si je ne faisais pas ce qu'ils disaient					
A/ont abîmé, caché ou volé mes affaires, volontairement					
M'a/m'ont donné des surnoms méchants ou blessants					
M'a/m'ont dit des choses méchantes ou blessantes					
M'a/m'ont laissé à l'écart d'un groupe ou d'une activité, ou m'a/m'ont empêché d'y participer, volontairement					
A/ont raconté des mensonges ou répandu des rumeurs à mon sujet, pour me blesser ou faire en sorte que les autres ne m'apprécient pas					

Au cours des trois derniers mois, combien de fois as-tu été harcelé(e) « en ligne » / sur internet ou par téléphone portable ?	Jamais	Une fois	Deux fois	Trois fois	Quatre fois ou plus
Un autre élève ou des élèves ...					
M'a/m'ont donné des surnoms méchants ou blessants					
A/ont envoyé ou posté des images/vidéos méchantes ou blessantes à mon sujet					
M'a/m'ont dit que les autres ne m'aimeraient pas si je ne faisais pas ce qu'ils disaient					
M'a/m'ont laissé à l'écart d'un groupe ou d'une activité, ou m'a/m'ont empêché d'y participer, volontairement					
A/ont raconté des mensonges ou répandu des rumeurs à mon sujet, pour me blesser ou faire en sorte que les autres ne m'apprécient pas					

Annexe 5 : Questionnaire MDAS (évaluation de l'anxiété dentaire chez les parents)

Si vous deviez aller chez le dentiste demain, comment vous sentiriez-vous ?	Je penserais que cela va être une expérience assez agréable = 1	Cela me serait indifférent = 2	J'aurai peur que cela soit désagréable ou douloureux = 3	J'aurai terriblement peur de ce que le dentiste pourra faire = 4	
	Détendu(e) = 1	Pas tout à fait à l'aise = 2	Tendu(e) = 3	Angoissé(e) = 4	Je serai tellement anxieux(se) que certaines fois je pourrais transpirer ou avoir presque envie de vomir = 5
Chez le dentiste, lorsque vous attendez votre tour pour passer sur le fauteuil, comment vous sentez-vous ?					
Lorsque vous êtes installé(e) dans le fauteuil, en attendant que le (la) dentiste prépare la fraise avec laquelle il (elle) s'apprête à soigner vos dents, comment vous sentez-vous ?					
Lorsque vous êtes assis(e) sur le fauteuil pour un nettoyage de vos dents, pendant que le (la) dentiste prépare les instruments qu'il (elle) va utiliser pour racler vos dents à côté des gencives, comment vous sentez-vous ?					
Lorsque vous êtes installé(e) sur le fauteuil, en attendant que le (la) dentiste prépare la seringue avec laquelle il (elle) s'apprête à anesthésier (endormir) l'une de vos molaires supérieures, comment vous sentez-vous ?					

Si le score est supérieur ou égal à 13, la personne est considérée comme anxieuse.

Annexe 6 : Questionnaire P-CPQ (évaluation par le parent de l'impact de la santé orale sur la qualité de vie de l'adolescent)

Domaine 1 : santé bucco-dentaire

Au cours des 3 derniers mois, combien de fois votre enfant a-t-il eu ...	Jamais = 0	Une ou deux fois = 1	Quelques fois = 2	Souvent = 3	Tous les jours ou presque tous les jours = 4
Mal aux dents, aux lèvres, aux mâchoires ou à la bouche ?					
Les gencives qui saignent ?					
Des endroits douloureux dans la bouche ?					
Une mauvaise haleine ?					
De la nourriture collée au palais ?					
De la nourriture coincée dans ou entre les dents ?					

Domaine 2 : bien-être fonctionnel

Au cours des 3 derniers mois, combien de fois votre enfant a-t-il ...	Jamais = 0	Une ou deux fois = 1	Quelques fois = 2	Souvent = 3	Tous les jours ou presque tous les jours = 4
Eu des difficultés à croquer ou à mâcher de a nourritures comme une pomme ou un steak ?					
Respiré par la bouche ?					
Eu des difficultés à dormir ?					
Eu des difficultés à prononcer des mots quels qu'ils soient ?					
Pris plus longtemps que les autres pour manger son repas ?					
Eu des difficultés à boire ou à manger de la nourriture chaude ou froide ?					
Eu des difficultés à manger de la nourriture qu'il aurait aimé manger ?					
Dû limiter son alimentation à certains types d'aliments (ex : aliments mous) ?					

Domaine 3 : bien-être émotionnel

Au cours des 3 derniers mois, combien de fois votre enfant a-t-il ...	Jamais = 0	Une ou deux fois = 1	Quelques fois = 2	Souvent = 3	Tous les jours ou presque tous les jours = 4
Contrarié					
Irritable ou frustré ?					
Anxieux ou craintif ?					
A été inquiet d'être différents des autres ?					
A été inquiet de ne pas être aussi beau que les autres ?					
A été timide ou gêné ?					
A été inquiet d'avoir moins d'amis que les autres ?					

Domaine 4 : bien-être social

Au cours des 3 derniers mois, combien de fois votre enfant a-t-il ...	Jamais = 0	Une ou deux fois = 1	Quelques fois = 2	Souvent = 3	Tous les jours ou presque tous les jours = 4
Manqué l'école (par exemple à cause des douleurs, des rendez-vous ou d'une intervention) ?					
A eu du mal à être attentif à l'école ?					
N'a pas voulu parler ou lire à haute voix en classe ?					
N'a pas voulu parler avec d'autres enfants ?					
A éviter de sourire ou de rire en présence d'autres enfants ?					
A été embêté par d'autres enfants ?					
A été mis à l'écart par d'autres enfants ?					
N'a pas voulu ou n'a pas pu passer du temps avec d'autres enfants ?					
N'a pas voulu ou n'a pas pu participer à des activités comme du sport, du théâtre, de la musique, des sorties scolaires ?					
A-t-il été interrogé par d'autres enfants au sujet de ses dents, lèvres, bouche ou mâchoires ?					

Bibliographie

1. RESERVES IUTD. Orphanet: Amélogénèse imparfaite [Internet]. [cited 2021 Jul 2]. Available from: https://www.orpha.net/consor/cgi-bin/OC_Exp.php?Lng=FR&Expert=88661
2. Aldred MJ, Savarirayan R, Crawford PJM. Amelogenesis imperfecta: a classification and catalogue for the 21st century. *Oral Dis*. 2003 Jan;9(1):19–23.
3. Crawford PJ, Aldred M, Bloch-Zupan A. Amelogenesis imperfecta. *Orphanet J Rare Dis*. 2007 Apr 4;2(1):17.
4. Toupenay S, Fournier BP, Manière MC, Ifi-Naulin C, Berdal A, de La Dure– Molla M. Amelogenesis imperfecta: therapeutic strategy from primary to permanent dentition across case reports. *BMC Oral Health*. 2018 Dec;18(1):108.
5. Bloch-Zupan A. Les amélogénèses imparfaites. 2010;31:5.
6. Patel A, Jagtap C, Bhat C, Shah R. Bilateral nephrocalcinosis and amelogenesis imperfecta: A case report. *Contemp Clin Dent*. 2015;6(2):262–5.
7. Consultation initiale [Internet]. [cited 2022 Mar 11]. Available from: <https://www.o-rares.com/consultation-initiale>
8. Muller-Bolla M. Guide d'odontologie pédiatrique, La clinique par la preuve. Editions CdP. Vol. (Collège des enseignants en odontologie pédiatrique; 2ème édition. Paris; 2018.
9. Kallel F, Labidi A, Bekri S, Ammar S, Ghoul S, Mansour L. DMF Index among Amelogenesis Imperfecta Patients: Systematic Review of the Literature. Mallineni SK, editor. *Int J Dent*. 2021 Aug 17;2021:1–6.
10. Sabandal MMI, Schäfer E. Amelogenesis imperfecta: review of diagnostic findings and treatment concepts. *Odontology*. 2016 Sep;104(3):245–56.
11. Seow W. Developmental defects of enamel and dentine: challenges for basic science research and clinical management. *Aust Dent J*. 2014;59(s1):143–54.
12. Pousette Lundgren G, Dahllöf G. Outcome of restorative treatment in young patients with amelogenesis imperfecta. a cross-sectional, retrospective study. *J Dent*. 2014 Nov;42(11):1382–9.
13. Punathil S, Pulayath CV, Ismail SP, Bavabeedu SS, Moyin S, Uthappa R. Assessment of Enamel Surface Microhardness with different Fluoride Varnishes-An In Vitro Study. *J Contemp Dent Pract*. 2018 Nov 1;19(11):1317–21.
14. Malik K, Gadhia K, Arkutu N, McDonald S, Blair F. The interdisciplinary management of patients with amelogenesis imperfecta – restorative dentistry. *Br Dent J*. 2012 Jun;212(11):537–42.
15. Barron MJ, McDonnell ST, MacKie I, Dixon MJ. Hereditary dentine disorders: dentinogenesis imperfecta and dentine dysplasia. *Orphanet J Rare Dis*. 2008 Nov 20;3:31.
16. Piette E, Goldberg M. La dent normale et pathologique. De Boeck Supérieur; 2001. 400 p.

17. Hart PS, Hart TC. Disorders of Human Dentin. *Cells Tissues Organs*. 2007;186(1):70–7.
18. de La Dure-Molla M, Philippe Fournier B, Berdal A. Isolated dentinogenesis imperfecta and dentin dysplasia: revision of the classification. *Eur J Hum Genet*. 2015 Apr;23(4):445–51.
19. Scarel-Caminaga RM, Cavalcante LB, Finoti LS, Santos MCLG dos, Konishi MF, Santos-Pinto LAM dos. Dentinogenesis imperfecta type II: approach for dental treatment. *Rev Odontol UNESP*. 2012 Dec;41:433–7.
20. Évaluation des technologies de santé à la HAS : place de la qualité de vie [Internet]. Haute Autorité de Santé. [cited 2022 Mar 18]. Available from: https://www.has-sante.fr/jcms/c_2883073/fr/evaluation-des-technologies-de-sante-a-la-has-place-de-la-qualite-de-vie
21. Rejeski WJ, Mihalko SL. Physical Activity and Quality of Life in Older Adults. *J Gerontol Ser A*. 2001 Oct 1;56(suppl_2):23–35.
22. El Osta N, Pichot H, Soulier-Peigue D, Hennequin M, Tubert-Jeannin S. Validation of the child oral health impact profile (COHIP) french questionnaire among 12 years-old children in New Caledonia. *Health Qual Life Outcomes*. 2015 Oct 30;13:176.
23. Broder HL, Wilson-Genderson M. Reliability and convergent and discriminant validity of the Child Oral Health Impact Profile (COHIP Child's version). *Community Dent Oral Epidemiol*. 2007;35(s1):20–31.
24. Friedlander L, Berdal A, Boizeau P, Licht BA, Manière MC, Picard A, et al. Oral health related quality of life of children and adolescents affected by rare orofacial diseases: a questionnaire-based cohort study. *Orphanet J Rare Dis*. 2019 Jun 4;14:124.
25. Pousette Lundgren G, Wickström A, Hasselblad T, Dahllöf G. Amelogenesis Imperfecta and Early Restorative Crown Therapy: An Interview Study with Adolescents and Young Adults on Their Experiences. *PLoS ONE*. 2016 Jun 30;11(6):e0156879.
26. Parekh S, Almehateb M, Cunningham SJ. How do children with amelogenesis imperfecta feel about their teeth? *Int J Paediatr Dent*. 2014;24(5):326–35.
27. Friedlander L, Berdal A, Boizeau P, Licht BA, Manière MC, Picard A, et al. Oral health related quality of life of children and adolescents affected by rare orofacial diseases: a questionnaire-based cohort study. *Orphanet J Rare Dis*. 2019 Jun 4;14(1):124.
28. Pousette Lundgren G, Karsten A, Dahllöf G. Oral health-related quality of life before and after crown therapy in young patients with amelogenesis imperfecta. *Health Qual Life Outcomes*. 2015 Dec 10;13:197.
29. Coffield KD, Phillips C, Brady M, Roberts MW, Strauss RP, Wright JT. The psychosocial impact of developmental dental defects in people with hereditary amelogenesis imperfecta. *J Am Dent Assoc* 1939. 2005 May;136(5):620–30.
30. Pousette Lundgren G, Hasselblad T, Johansson AS, Johansson A, Dahllöf G. Experiences of Being a Parent to a Child with Amelogenesis Imperfecta. *Dent J*. 2019 Mar;7(1):17.
31. Alqadi A, O'Connell AC. Parental Perception of Children Affected by Amelogenesis Imperfecta (AI) and Dentinogenesis Imperfecta (DI): A Qualitative Study. *Dent J*. 2018 Dec;6(4):65.

32. Lyne A, Parekh S, Patel N, Lafferty F, Brown C, Rodd H, et al. Patient-reported outcome measure for children and young people with amelogenesis imperfecta. *Br Dent J* [Internet]. 2021 Sep 6 [cited 2022 May 1];
33. Wiemann S, Frenzel Baudisch N, Jordan RA, Kleinheinz J, Hanisch M. Oral Symptoms and Oral Health-Related Quality of Life in People with Rare Diseases in Germany: A Cross-Sectional Study. *Int J Environ Res Public Health*. 2018 Jul;15(7):1493.
34. Catheline N. Le harcèlement scolaire [Internet]. Paris cedex 14: Presses Universitaires de France; 2015. 128 p. (Que sais-je ?).
35. Wasserman D. Review of health and risk-behaviours, mental health problems and suicidal behaviours in young Europeans on the basis of the results from the EU-funded Saving and Empowering Young Lives in Europe (SEYLE) study. *Psychiatr Pol*. 2016 Dec 23;50(6):1093–107.
36. Cuthbert MI, Melamed BG. A screening device: children at risk for dental fears and management problems. *ASDC J Dent Child*. 1982 Nov 1;49(6):432–6.
37. A national cross-sectional survey of dental anxiety in the French adult population - PMC [Internet]. [cited 2022 May 23].
38. El Osta N, Pichot H, Soulier-Peigue D, Hennequin M, Tubert-Jeannin S. Validation of the child oral health impact profile (COHIP) french questionnaire among 12 years-old children in New Caledonia. *Health Qual Life Outcomes*. 2015 Oct 30;13:176.
39. Razanamihaja N, Boy-Lefèvre ML, Jordan L, Tapiro L, Berdal A, de la Dure-Molla M, et al. Parental–Caregivers Perceptions Questionnaire (P-CPQ): translation and evaluation of psychometric properties of the French version of the questionnaire. *BMC Oral Health*. 2018 Dec;18(1):211.
40. Development and validation of the Bullying and Cyberbullying Scale for Adolescents: A multi-dimensional measurement model - Thomas - 2019 - *British Journal of Educational Psychology* - Wiley Online Library [Internet]. [cited 2022 May 23].
41. Development of an illustrated index of tooth appearance–perception-based quantification of tooth discolouration and surface defects - MODI - 2010 - *International Journal of Paediatric Dentistry* - Wiley Online Library [Internet]. [cited 2022 May 23].
42. Reliability and convergent and discriminant validity of the Child Oral Health Impact Profile (COHIP Child’s version) - Broder - 2007 - *Community Dentistry and Oral Epidemiology* - Wiley Online Library [Internet]. [cited 2022 May 29].
43. Dental fear/anxiety and dental behaviour management problems in children and adolescents: a review of prevalence and concomitant psychological factors - KLINGBERG - 2007 - *International Journal of Paediatric Dentistry* - Wiley Online Library [Internet]. [cited 2022 May 29].

IMPACT PSYCHO-SOCIAL DE LA SANTE ORALE D'ADOLESCENTS ATTEINTS D'AMELO- ET DENTINOGENESE IMPARFAITE : ETUDE PRELIMINAIRE

RESUME :

L'amélogénèse imparfaite et la dentinogénèse imparfaite sont deux maladies rares qui touchent la sphère orale et entraînent respectivement des anomalies de structures de l'émail et de la dentine. Les conséquences de ces maladies sont fonctionnelles, esthétiques et socio-émotionnelles et la littérature montre un impact négatif de ces maladies sur la qualité de vie des patients atteints. Dans ce travail nous proposons une analyse des premiers résultats de l'étude multicentrique AiDiBull « Impact psycho-social des amélo- et dentinogénèses imparfaites chez le jeune » qui vise à évaluer la qualité de vie orale, l'anxiété liée aux soins dentaires et le harcèlement chez les jeunes âgés de 10 à 18 ans. Les résultats du groupe expérimental sont comparés à ceux d'un groupe contrôle.

PSYCHOSOCIAL IMPACT OF TEENAGER'S ORAL HEALTH WITH AMELOGENESIS AND DENTINOGENESIS IMPERFECTA : PRELIMINARY STUDY

DISCIPLINE ADMINISTRATIVE : Odontologie pédiatrique

MOTS-CLES : amélogénèse imparfaite, dentinogénèse imparfaite, qualité de vie, harcèlement

INTITULE ET ADRESSE DE L'UFR OU DU LABORATOIRE :

Université Toulouse III-Paul Sabatier
Faculté de Santé – Département d'Odontologie
3, chemin des Maraîchers
31062 Toulouse Cedex 09

DIRECTRICE DE THESE : Docteur Emmanuelle NOIRIT-ESCLASSAN