

Université Paris Cité

École Doctorale Cognition, Comportements et Conduites Humaines (ED 261)

Laboratoire de Psychopathologie et Processus de Santé (UR 4057)

# **Parentalité et Mucoviscidose :**

## **Expérience des parents malades, de leurs conjoint.e.s et de leurs enfants**

Par **Anne JACOB**

Dirigée par **Cécile FLAHAULT** (MC-HDR)

Thèse de doctorat de Psychologie

Présentée et soutenue publiquement le 11 juin 2025

Devant un jury composé de :

|                         |                       |                     |
|-------------------------|-----------------------|---------------------|
| Cécile FLAHAULT, MC-HDR | Université Paris Cité | Directrice de thèse |
| Pre Justine GAUGUE      | Université de Mons    | Rapporteuse         |
| Pr Pascal ANTOINE       | Université de Lille   | Rapporteur          |
| Maxime MORSA, MC        | Université de Liège   | Examineur           |
| Pre Marcela GARGIULO    | Université Paris Cité | Examinatrice        |
| Dr Dominique HUBERT     | Université Paris Cité | Invitée             |

# Résumé

**Contexte** : L'amélioration de la prise en charge de la mucoviscidose a permis une importante augmentation de l'espérance de vie, amenant de plus en plus de patient.e.s à devenir parents. En parallèle de traitements quotidiens parfois lourds et chronophages, les parents atteints de mucoviscidose sont également confrontés aux exigences de la parentalité. Considérée en psychologie comme une expérience transformatrice s'accompagnant de bouleversements psychiques ou relationnels, la parentalité peut être vécue de façon positive, mais elle est aussi souvent associée à la gestion de nombreux défis et stressseurs. Une revue systématique de littérature (article 1) relève le peu de données concernant l'expérience globale de la parentalité de ces patient.e.s. De plus, il n'existe pas d'étude publiée sur l'expérience des conjoint.e.s ou des enfants de ces patient.e.s.

**Objectif et méthode** : Nous avons mené une étude exploratoire en deux volets (MucoPar pour les parents, Mucokids pour les enfants), pour explorer et recueillir les perceptions, attentes et besoins des patient.e.s devenu.e.s parents, de leurs conjoint.e.s et de leurs enfants. 52 patient.e.s (15 transplanté.e.s pulmonaires) et 27 enfants (6 ans minimum) ont été rencontré.e.s lors d'un focus groupe ou d'un entretien individuel. 11 conjoint.e.s ont accompagné leur partenaire lors d'un groupe. Les groupes et entretiens ont été conduits en présentiel (à l'hôpital pour les adultes et à domicile pour les enfants) ou en distanciel. Deux analyses thématiques de contenu ont été conduites pour MucoPar (une pour les groupes, une pour les entretiens) et une pour MucoKids.

Volet MucoPar (articles 2 et 3) : les analyses ont révélé des thèmes portant sur l'accès à la parentalité et les difficultés rencontrées, la vie de parent avec la maladie (quotidien, vécu émotionnel, parler de la maladie aux enfants), le vécu des enfants et celui des conjoint.e.s. Être parent y apparaît comme source de beaucoup de bonheur pour tou.te.s les participant.e.s, malgré les nombreux défis liés à la maladie. Les parents semblent s'appuyer principalement sur des stratégies d'ajustement organisationnelles et du soutien social. Selon eux, leurs enfants normalisent la maladie, mais ressentent toutefois stress et peur pour le parent malade. Les conjoint.e.s apparaissent impliqué.e.s dans la gestion quotidienne de la maladie, et endossent des responsabilités familiales supplémentaires.

Volet MucoKids : les participant.e.s se disent habitué.e.s à vivre avec la mucoviscidose parentale, et perçoivent globalement le parent malade comme un parent normal. La plupart

vivent facilement le quotidien rythmé par la maladie. Cependant, ils.elles sont nombreux.ses à être inquiet.e.s pour la santé de leur parent et la survenue de complications ou de dégradations augmente leur détresse. Leurs ajustements sont ainsi principalement tournés vers la gestion émotionnelle. Malgré de bonnes connaissances de la maladie, la plupart des enfants attendent une meilleure communication des parents et des professionnel.le.s. Certain.e.s expriment le besoin d'échanger avec d'autres enfants de parents malades.

**Discussion** : Ces résultats nous amènent à proposer des facteurs explicatifs au vécu globalement positif des patient.e.s : coping dyadique et coparentalité efficaces, changement identitaire valorisé et sentiment de normalisation, stratégies d'ajustement fonctionnelles préexistantes et facteurs favorisant le bien-être parental. En parallèle, nous questionnons pourquoi les difficultés émotionnelles chez les enfants semblent demander plus d'ajustements que les contraintes quotidiennes imposées par la maladie.

**Conclusion** : la mucoviscidose, vectrice de difficultés indéniables pour les familles, semble aussi être à l'origine de ressources permettant aux patient.e.s de vivre leur parentalité de façon positive. Les familles expriment cependant des besoins d'accompagnement et les difficultés émotionnelles des enfants méritent une attention particulière.

**Mots clés** : mucoviscidose, parentalité, parent malade, étude qualitative, expérience, maladie chronique, conjoints, enfants de parent malade.

# Abstract

## **Parenthood and cystic fibrosis: experience of ill parents, their spouses and their children**

**Context:** Improvements in treatment of cystic fibrosis (CF) have led to important increase in life expectancy. As a result, more and more people with CF are becoming parents. Alongside the sometimes heavy and time-consuming daily treatments, parents with CF must also adjust to the demands of parenthood. In psychology, parenthood is seen as a transformative experience that leads to psychological or relational upheaval. Parenthood can be a positive experience, but it also brings many challenges and stressors. A systematic review of the literature (article 1) reveals the scarcity of data concerning the experience of parenthood of people with CF. Moreover, there are no published studies on their spouses' or children's experiences.

**Objective and methods:** We conducted a two-part exploratory study to explore and gather the perceptions, expectations and needs of people with CF who have become parents, their spouses and their children (MucoPar for parents, Mucokids for children). 52 people with CF (15 with a lung transplant) and 27 children (aged 6 and over) were interviewed in focus groups or individual interviews. 11 spouses joined a focus group with their partner. The focus groups and interviews were conducted in-person (in hospitals for adults and at home for children) or online. Two thematic analyses of content were conducted for MucoPar (one for the focus groups, one for the interviews) and one for Mucokids.

MucoPar section (articles 2 and 3): The analyses revealed themes around access to parenthood and its difficulties, parenting while having CF (daily life, emotional experience, talking to children about the disease), children's and spouses' experiences. Parenthood appears to be a source of great happiness for all participants with CF, despite numerous disease-related challenges. Parents seem to rely mainly on organisational coping strategies and social support. Parents perceived that their children seem to normalize daily life with CF, although they noted their children seemed stressed and expressed fear for their parent's health. Spouses appear to be involved in the day-to-day disease management, and to take on additional family responsibilities.

Mucokids section (article 4): Participants express being used to living with their parent's illness, and generally perceive them as normal parents. Most children seem to live easily with how CF shapes their daily life. However, they are worried about their parent's

health, and occurrence of complications or deteriorations of their parent's health increase their distress. Hence, they mostly develop emotional coping strategies. While most children interviewed have good knowledge of CF, they expect more comprehensive information from their parents and health professionals. Some also express the need to speak with other children whose parents have CF.

**Discussion:** These results led us explore the factors that may explain patients' overall positive experience: efficient dyadic coping and co-parenting, changes to a valued identity and sense of normalization, pre-existing functional coping strategies, and factors promoting parental well-being. In parallel, we question why emotional difficulties in children seem to require more adjustment than the daily constraints imposed by the disease.

**Conclusion:** While being an undeniable source of difficulty for family, cystic fibrosis also seems to be an enabling factor for patients to experience parenthood positively. Families do, however, express a need for support, and children's emotional difficulties deserve particular attention.

**Keywords:** cystic fibrosis, parenthood, parental disease, qualitative study, lived experience, chronic disease, spouses, children of ill parents

# Remerciements

Cette thèse n'aurait jamais pu voir le jour sans le concours de Cécile Flahault et Dominique Hubert et elles ont, de façon très complémentaire, étaient de vrais piliers pour moi pendant tout ce travail. Mes premiers remerciements vont donc à elles deux.

Merci Cécile de m'avoir proposé ce projet de recherche et d'avoir estimé que j'avais les compétences pour le mener, et de m'avoir proposé un sujet qui a su me passionner au point de souhaiter en faire un sujet de thèse. Merci pour ton accompagnement en toute autonomie qui m'a si bien correspondu et ta posture toujours soutenante. Ta zenitude et ta confiance en tes doctorants auront été très inspirantes pour moi. Merci d'avoir su me réassurer et m'encourager quand nécessaire, merci également pour ton enthousiasme pour les événements positifs de ma vie personnelle, comme ma maternité, qui n'ont pourtant pas manqué d'impacter mon travail. Tu étais la directrice de thèse qu'il me fallait et je n'aurais que le regret de ne pas avoir pu profiter plus de ta présence à cause de la distance.

Merci Dominique d'avoir monté et porté ce magnifique projet et surtout de m'avoir fait confiance pour le conduire. Cette recherche est autant la tienne que la mienne, et je mesure la chance que j'ai eu de travailler avec quelqu'un d'aussi impliqué sur le plan scientifique et humain. Merci pour cette implication qui nous a permis d'avoir un si bel échantillon, d'obtenir plusieurs financements et de faire plusieurs communications auprès de la communauté « muco » française et internationale. Merci aussi pour toutes les relectures attentives de tous mes travaux. Enfin, parce que j'ai pu le constater et que plusieurs participant.e.s me l'ont rapporté, je tiens également à saluer ton implication indéfectible pour les patient.e.s muco, que tu mobilises maintenant avec VLM. Cette communauté a beaucoup de chance de t'avoir.

Je tiens ensuite à remercier Dominique Grenet, également à l'initiative de ce projet et qui l'a porté au niveau de l'hôpital Foch et nous a permis d'obtenir le premier financement avec l'association Grégory Lemarchal. Merci pour ton soutien dans cette étape, et toute l'aide avec le recrutement des patient.e.s de Foch. Merci d'avoir libéré un peu de temps pour moi, pour nos échanges toujours joyeux et tes retours toujours positifs sur les communications et articles que j'ai portés. La communauté des muco a également beaucoup de chance de t'avoir.

Je remercie très chaleureusement l'association Grégory Lemarchal pour leur soutien financier considérable dans la conduite de toute notre recherche et particulièrement Mme et

M. Lemarchal. C'était un honneur pour moi que mon travail soit financé par votre association et j'espère que les résultats de cette recherche répondront aux attentes de l'association et de la communauté muco.

Je remercie Amélie Perrin du GETHEM qui m'a donné l'opportunité de transformer mes données en pistes concrètes pour l'accompagnement des parents et futurs parents. Je tiens à saluer son implication et celle des autres membres du GETHEM, qui ont développé un nombre impressionnant d'outils pour améliorer prise en charge et qualité de vie des patient.e.s.

Je remercie infiniment Cléa Brain, qui a été stagiaire sur cette recherche entre sa L3 et la fin de son M2, et a même remis la main au codage de MucoKids une fois diplômée. Ton travail a été d'une aide très précieuse et cette étude te doit beaucoup.

Je remercie Nathalie Touma pour sa grande contribution au codage des groupes de MucoPar. Merci également pour le soutien que tu m'as apporté pendant ces mois de collaboration. Cela m'a redonné de l'énergie pour finir mes analyses dans un temps décent.

Je remercie tou.te.s les doctorant.e.s de Paris (dont la plupart sont devenu.e.s docteur.e.s depuis) qui ont croisé ma route et ont contribué à rendre cette expérience unique et passionnante, notamment :

- Jonathan, mon binôme initial. C'était un plaisir de commencer avec toi, de faire nos revues systématiques ensemble, puis de se suivre dans le contexte du RAFUE.
- Jeff Phan et Louise Zani, mes co-doctorant.e.s. Merci d'avoir été mon lien avec le labo pendant ces années et pour toutes vos gentilles attentions. Extra merci à Louise pour les visio de travail et toutes les petites douceurs.
- Coraline Schoenacker d'avoir pris le relai pour les groupes de paroles « SOS thésards en détresse », pour les CSI, et tous les temps d'échange entre doctorantes exilées.
- Hélène Jalin mon binôme nantais et éco-anxiété. Merci pour toutes les expériences professionnelles partagées (RAFUE, groupes, archipel etc.) et pour ton amitié.

Et également Sylvia Zimmers, Alexandra Stulz, Lucille Karsenti, Margaux Chabert, Caroline Varay, Marion Pitel, Aline Vansoeterstede, Jean-Charles Girardeau, Lucile Montalescot, Pauline Justin, Astrid Lebert, Amandine Rohmer, Léna Milan, Marie Locatelli.

Merci à toutes les autres personnes du LPPS avec qui j'ai pu échanger pendant ces sept années. Je remercie particulièrement nos deux directrices de laboratoire, Isabelle Varescon et

Aurélie Untas, ainsi que Marie-Claude Succab pour tous leurs accompagnements administratifs, notamment relatifs aux congrès et aux demandes de subventions. Merci également à Jacqueline Wendland qui a suivi mon travail en participant à tous mes CSI. Merci à Lucie Alex de l'école doctorale pour sa disponibilité et son efficacité.

Merci aux doctorant.e.s de Nantes de m'avoir ouvert leur bureau pour les dernières semaines de rédaction et à Anne Congard pour l'accueil enthousiaste à l'université de Nantes.

Merci à Marion Gillet pour ses relectures d'articles, la traduction à venir de l'article MucoKids et tous nos échanges et bavardages lors de ce travail.

Sur le plan plus personnel, je souhaite tout d'abord remercier Brice mon conjoint. Tu m'as presque toujours connue en thèse et tu as été d'un soutien sans faille dans cette longue aventure. Merci pour ton amour, ta présence, ta douceur, toi tout court, notre fabuleuse fille et pour notre famille. Un grand merci de m'avoir donné les moyens de finir ce manuscrit dans de bonnes conditions.

Je remercie également ma fille Livia. Merci d'avoir illuminé ma vie avec ta naissance et de m'avoir faite mère. Aucun mot ne peut réussir à exprimer le bonheur et le sentiment d'accomplissement que tu m'apportes.

Je remercie ensuite tous les membres de ma famille pour leur présence et leur amour : Marie-Noëlle, François, Laure, Alain, Granie, Anne-Marie, Bénédicte, Inès et Lisa, ainsi que les conjoint.e.s : Logan, Isabelle, Jean-Phi et Luc. Quelle chance d'avoir une famille aimante et avec qui on aime passer du temps. Vous contribuez à mon bonheur général.

Un merci tout particulier à mon beau-père et ma mère pour leurs relectures attentives du manuscrit et des annexes et leur soutien sans faille sur la dernière ligne droite.

Mercis à mes autres supers relectrices : Solenne, Granie, Lilou, Marraïne, Louise, Marie et Danielle pour l'anglais. Merci à mes parents, Ben, Inès, Lisa, Catherine et Laurent de vous être si bien occupé.e.s de Livia pendant que je travaillais.

Merci également à Claudine ma belle-mère, pour sa présence pour nous trois, ses attentions, son soutien ces derniers mois et pour son temps avec Livia.

Merci au reste de ma belle-famille, Philippe et Magali pour leur douce présence et leur soutien, Vincent, Quentin, Julie et Izia pour les petits mots de soutien et les bons moments familiaux.

Je souhaite également remercier tous mes amis, qui contribuent depuis si longtemps à rendre ma vie plus belle, plus vivante et plus drôle.

Tout d'abord un grand merci à mes copines mamans pour la sororité quotidienne face aux questionnements de la maternité. Un merci tout particulier à Charline pour ta présence, ton écoute et ta confiance et à Djou pour tout ce qu'il y a derrière nos 25 ans d'amitié, et d'avoir eu l'idée de notre village de mamans WhatsApp. Merci aux autres : Claire, Danielle, Bérengère, Gwen, Sandrine, Solenne, Hélène B. et Marianne.

Merci à Séverine d'être là, mon âme sœur.

Merci aux ami.e.s et copains nantais qui contribuent au bonheur de vivre dans cette ville : Deuz, Clem, Jeanne, Laurent, Matthieu, Esther, les autres copains de cordée, Mimie et Maxime, Camille et Manu, et les collègues d'intervision ou du cabinet.

Merci aux ami.e.s de (très) longue date pour votre amitié indéfectible malgré la distance : Elodie, Nico, Houzai, Adèle, Cyrielle, Marion Q., Gaëlle, Amandine G., Pierrick, Noémie, Thomas, Florence, Irina, Anna, Joel, Elspeth, Nathalie G., Léo-Paul, David, Raphaël G. Merci à tou.te.s les autres sévrien.ne.s pour ce groupe et ces liens incroyables et particulièrement à Raphaël H. sans qui ces amitiés n'existeraient pas.

Merci aux amies outre-Atlantique de cultiver le lien malgré l'océan entre nous : Choupi, Amandine C. et Lisa. Mention spéciale pour Lisa et son aide sur ma revue systématique.

Merci à mes amies Psychomot Amélie, Cécile, Lucie, Marion, à leur conjoints, Sylvain, Jérémy, Christian, Olivier, et leurs enfants, Marius, Anouk, Timothé, Enola, Adèle, Marius, Gabriel, Agnès, Suzanne et Camille dans nos cœurs, pour ce magnifique lien qui nous unit et se renforce année après année.

Merci à Marie-Agnès pour ton soutien et d'être une mentore si inspirante.

Merci enfin aux Bouvattier : Franck, Luc, Colin et Maëlle, pour ce lien unique qui nous relit depuis si longtemps, et à Myriam de veiller sur nous.

Enfin et surtout, un IMMENSE merci à tou.te.s les participant.e.s de cette recherche. Merci de m'avoir confié vos histoires, et pour certain.e.s de m'avoir accueillie chez vous. Merci de m'avoir fait découvrir le monde la mucoviscidose à travers vos yeux. Je vous dédie ce travail, en espérant qu'il est à la hauteur des attentes que certain.e.s ont pu mettre dans cette recherche.

*Comme mes précédents écrits de fin d'étude, je dédie également cette thèse à Myriam et à Mme G. qui ont fait naître ma vocation de travailler dans le milieu de la santé, ainsi qu'aux autres absents, mes grands-parents et Stéphane.*

## Avertissement

Cette thèse s'inscrit dans le cadre d'une recherche portée par l'Unité de Recherche Clinique (URC) de Paris centre – Necker enfants malades de l'APHP, qui a été totalement financée par l'association Grégory Lemarchal.

La recherche en psychologie de la parentalité est, depuis de nombreuses années, bâtie sur la participation majoritaire des femmes dans les échantillons mixtes. Notre recherche ne faisant pas exception, et parce que les mots permettent de penser et de se représenter le monde, cette thèse est écrite en écriture inclusive afin d'y visibiliser les personnes de sexe féminin. Notre démarche permet de visibiliser les participantes, mais également les nombreuses scientifiques à l'origine des différentes recherches présentées.

Ainsi, dans notre travail, lorsque les sujets sont des humains pouvant être d'un sexe ou de l'autre, le masculin et le féminin sont présentés ensemble. Nous avons également utilisé les nouvelles formes féminines de certains noms communs (ex : autrice) pour représenter les sujets féminins auxquels ces mots se rapportaient. Pour minimiser l'impact de l'écriture inclusive en termes de lisibilité, nous avons fait le choix de garder la règle « du masculin qui l'emporte » pour les sujets non humains.

Enfin, toutes les personnes ayant travaillé sur cette recherche étant des femmes, nous avons également fait le choix d'utiliser un « nous » accordé au féminin.

# Sommaire

|                                                                   |           |
|-------------------------------------------------------------------|-----------|
| RESUME.....                                                       | 2         |
| ABSTRACT .....                                                    | 4         |
| REMERCIEMENTS.....                                                | 6         |
| AVERTISSEMENT .....                                               | 10        |
| SOMMAIRE.....                                                     | 11        |
| INDEX DES FIGURES.....                                            | 15        |
| INDEX DES TABLEAUX .....                                          | 16        |
| INDEX DES ANNEXES.....                                            | 18        |
| <b>INTRODUCTION .....</b>                                         | <b>19</b> |
| <b>PARTIE THEORIQUE.....</b>                                      | <b>21</b> |
| A. LA MUCOVISCIDOSE .....                                         | 22        |
| I. Population française .....                                     | 24        |
| II. Génétique et physiopathologie .....                           | 26        |
| 1) La protéine CFTR .....                                         | 26        |
| 2) Les mutations et leur impact sur la protéine CFTR.....         | 28        |
| III. Diagnostic .....                                             | 29        |
| IV. Manifestations cliniques .....                                | 31        |
| 1) Atteinte respiratoire .....                                    | 31        |
| 2) Atteinte ORL.....                                              | 33        |
| 3) Atteinte digestive .....                                       | 33        |
| 4) Atteinte musculosquelettique.....                              | 35        |
| 5) Atteinte génitale .....                                        | 35        |
| 6) Autres atteintes .....                                         | 36        |
| 7) Impact psychologique .....                                     | 36        |
| V. La prise en charge.....                                        | 36        |
| 1) Les traitements symptomatiques.....                            | 37        |
| 2) Les modulateurs de CFTR .....                                  | 40        |
| 3) Education thérapeutique et prise en charge psychologique ..... | 46        |
| 4) Conclusion.....                                                | 48        |
| VI. Historique condensé.....                                      | 48        |
| B. MUCOVISCIDOSE ET ACCES A LA PARENTALITE .....                  | 51        |
| I. Fertilité et procréation médicalement assistée .....           | 54        |
| 1) Grossesses et accouchements .....                              | 56        |
| II. L'adoption en France.....                                     | 59        |
| C. LA PARENTALITE.....                                            | 62        |

|      |                                                                                |            |
|------|--------------------------------------------------------------------------------|------------|
| I.   | <i>La parentalité : historique du terme et contextualisation.....</i>          | 62         |
| II.  | <i>Les différentes approches de la parentalité .....</i>                       | 64         |
| 1)   | Approche juridique .....                                                       | 64         |
| 2)   | Approche anthropologique .....                                                 | 65         |
| 3)   | Approche sociologique .....                                                    | 68         |
| 4)   | Approche politique : parentalité et soutien à la parentalité .....             | 71         |
| 5)   | Approche Psychologique .....                                                   | 74         |
| D.   | DEVENIR ET ETRE PARENT – PSYCHOLOGIE DE LA PARENTALITE .....                   | 79         |
| I.   | <i>Désir d'enfant .....</i>                                                    | 79         |
| 1)   | L'origine du désir.....                                                        | 79         |
| 2)   | Droit à l'enfant et solidarité procréatrice .....                              | 80         |
| II.  | <i>Devenir parent.....</i>                                                     | 82         |
| 1)   | Les composantes biophysiques .....                                             | 83         |
| 2)   | Réactivation des conflits internes .....                                       | 84         |
| 3)   | La parentalité comme expérience transformative.....                            | 84         |
| 4)   | La réorganisation identitaire à la naissance/arrivée de l'enfant. ....         | 85         |
| III. | <i>Développement de la parentalité – Stades parentaux.....</i>                 | 88         |
| 1)   | Stades psychanalytiques .....                                                  | 88         |
| 2)   | Stades cognitifs parentaux de Newberger .....                                  | 89         |
| 3)   | Les six stades de la parentalité selon Galinsky .....                          | 90         |
| 4)   | Approche holistique .....                                                      | 92         |
| IV.  | <i>Être parent .....</i>                                                       | 95         |
| 1)   | Rôle affectif : le parent comme figure d'attachement. ....                     | 95         |
| 2)   | Rôle éducatif : Les styles parentaux .....                                     | 98         |
| 3)   | Les déterminants parentaux .....                                               | 99         |
| 4)   | Modèle transactionnel.....                                                     | 101        |
| 5)   | Sentiment de compétence parentale et attribution causale.....                  | 103        |
| V.   | <i>Impacts négatifs de la parentalités et bien-être parental .....</i>         | 106        |
| 1)   | Troubles dépressifs et parentalité .....                                       | 106        |
| 2)   | Impact conjugal de la parentalité .....                                        | 113        |
| 3)   | Adoption et parentalité .....                                                  | 114        |
| 4)   | Parentalité et bien-être .....                                                 | 116        |
| E.   | PARENTALITE ET MALADIES .....                                                  | 122        |
| I.   | <i>Stress et ajustement à la maladie. ....</i>                                 | 122        |
| II.  | <i>Maladies chroniques, handicap, douleurs chroniques et parentalité .....</i> | 124        |
| III. | <i>Parentalité et mucoviscidose.....</i>                                       | 132        |
| 1)   | Article 1 : Revue systématique de la littérature .....                         | 132        |
| 2)   | Synthèse de l'article .....                                                    | 155        |
| 3)   | Revue des derniers articles parus depuis la publication de l'article 1 .....   | 157        |
|      | <b>PARTIE EMPIRIQUE .....</b>                                                  | <b>160</b> |
| A.   | CONTEXTE ET PROTOCOLE DE RECHERCHE .....                                       | 161        |

|      |                                                                                                                      |            |
|------|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|------------|
| I.   | <i>Contexte de la recherche</i> .....                                                                                | 161        |
| II.  | <i>Présentation synthétisée des protocoles des études</i> .....                                                      | 162        |
| 1)   | Objectifs des études.....                                                                                            | 162        |
| 2)   | Outils : méthodes de rencontre des participant.e.s et méthodes d'analyse .....                                       | 162        |
| 3)   | Protocoles synthétisés .....                                                                                         | 166        |
| B.   | RESULTATS DE L'ETUDE MUCOPAR .....                                                                                   | 169        |
| I.   | <i>Articles 2 et 3 – Résultats de l'étude MucoPar</i> .....                                                          | 169        |
| 1)   | Article 2 – Résultats des entretiens de MucoPar .....                                                                | 170        |
| 2)   | Article 3 – Résultats des focus groupes de MucoPar .....                                                             | 189        |
| 3)   | Synthèse des articles 2 et 3 – Résultats MucoPar.....                                                                | 222        |
| C.   | RESULTATS PRELIMINAIRES DE L'ETUDE MUCOKIDS.....                                                                     | 228        |
| I.   | <i>Enfants et maladies parentales - Etat de la littérature en 2019-2020</i> .....                                    | 228        |
| II.  | <i>Méthode</i> .....                                                                                                 | 230        |
| 1)   | Ethique, rigueur et transparence .....                                                                               | 230        |
| 2)   | Design de l'étude.....                                                                                               | 230        |
| 3)   | Critères d'inclusion et de non-inclusion.....                                                                        | 232        |
| 4)   | Recrutement des participant.e.s .....                                                                                | 232        |
| 5)   | Analyses.....                                                                                                        | 233        |
| III. | <i>Résultats</i> .....                                                                                               | 234        |
| 1)   | Caractéristiques de l'échantillon .....                                                                              | 234        |
| 2)   | Résultat de l'analyse thématique de contenu .....                                                                    | 237        |
| IV.  | <i>Synthèse et discussion</i> .....                                                                                  | 255        |
| 1)   | Résultats - Ce qu'il faut retenir .....                                                                              | 255        |
| 2)   | Limites et perspectives .....                                                                                        | 258        |
|      | <b>PARTIE DISCUSSION</b> .....                                                                                       | <b>261</b> |
| I.   | <i>L'accès à la parentalité qui fait souffrance</i> .....                                                            | 262        |
| II.  | <i>La parentalité une expérience positive ? Normalité, ajustements et bien-être comme facteurs explicatifs</i> ..... | 266        |
| 1)   | Être parent avant tout – La parentalité qui normalise .....                                                          | 266        |
| 2)   | L'ajustement au stress .....                                                                                         | 269        |
| 3)   | Le bien-être parental comme donnée explicative ? .....                                                               | 279        |
| III. | <i>Les enfants avec un parent atteint de mucoviscidose</i> .....                                                     | 285        |
| 1)   | Les besoins de l'enfant .....                                                                                        | 286        |
| 2)   | Inquiétudes, stress et angoisses pour la santé du parent .....                                                       | 288        |
| 3)   | Événements traumatogènes .....                                                                                       | 288        |
| 4)   | Aidance et fardeau .....                                                                                             | 290        |
| 5)   | Autres .....                                                                                                         | 292        |
| 6)   | Perspectives cliniques .....                                                                                         | 293        |
|      | <b>CONCLUSION GENERALE</b> .....                                                                                     | <b>296</b> |
|      | REFERENCES.....                                                                                                      | 298        |

|                                                                |     |
|----------------------------------------------------------------|-----|
| PORTEFOLIO DE LA CANDIDATE .....                               | 346 |
| I. <i>Formation et Parcours</i> .....                          | 346 |
| 1)    Formations .....                                         | 346 |
| 2)    Parcours professionnel .....                             | 346 |
| II. <i>Activités de recherche</i> .....                        | 347 |
| 1)    Recherche sur la mucoviscidose et la parentalité.....    | 347 |
| 2)    Collaboration en dehors du travail de thèse .....        | 348 |
| 3)    Diffusion scientifique nationale et internationale ..... | 348 |
| III. <i>Formations scientifiques</i> .....                     | 352 |
| IV. <i>Enseignement</i> .....                                  | 353 |
| 1)    Université de Nantes .....                               | 353 |
| 2)    Université de Paris .....                                | 353 |
| V. <i>Compétences techniques (logiciels, techniques)</i> ..... | 353 |
| VI. <i>Compétences transversales et complémentaires</i> .....  | 353 |
| ANNEXES .....                                                  | 354 |

## Index des figures

|                                                                                                                                     |     |
|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|-----|
| <b>Figure 1.</b> Transmission à leur descendance des gènes de deux parents sains, porteurs d'une mutation de la mucoviscidose.....  | 22  |
| <b>Figure 2.</b> Prévalence de la mucoviscidose par département de résidence (nombre de patient.e.s pour 100 000 habitant.e.s)..... | 24  |
| <b>Figure 3.</b> Evolution du nombre de patient.e.s en France depuis 1992 .....                                                     | 25  |
| <b>Figure 4.</b> Synthèse et cheminement de la protéine CFTR dans une cellule de l'épithélium respiratoire. ....                    | 28  |
| <b>Figure 5.</b> Spirométrie: examen des capacités respiratoires via la mesure du VEMS .....                                        | 32  |
| <b>Figure 6.</b> Nombre de transplantations en France depuis 1992.....                                                              | 39  |
| <b>Figure 7.</b> Rôles des modulateurs sur la production de la protéine CFTR .....                                                  | 41  |
| <b>Figure 8.</b> Effet des modulateurs CFTR sur les différentes manifestations cliniques de la mucoviscidose. ....                  | 44  |
| <b>Figure 9.</b> Un modèle flexible et par étape pour le dépistage et le traitement de la dépression et de l'anxiété. ....          | 47  |
| <b>Figure 10.</b> Nombre de débuts de grossesse et de naissances depuis 2006.....                                                   | 51  |
| <b>Figure 11.</b> Les sept dimensions de la parentalité.....                                                                        | 66  |
| <b>Figure 12.</b> Evolutions récentes impactant les structures familiales en France et en Europe Occidentale.....                   | 68  |
| <b>Figure 13.</b> Réorganisation des sous-identités d'un nouveau parent.....                                                        | 87  |
| <b>Figure 14.</b> Interaction du niveau de conscience parentale et de la relation parent-enfant ....                                | 90  |
| <b>Figure 15.</b> Modèle des déterminants parentaux.....                                                                            | 100 |
| <b>Figure 16.</b> Transactions parent-enfant selon le modèle transactionnel de la parentalité .....                                 | 102 |
| <b>Figure 17.</b> Modèle biopsychosocial du stress parental .....                                                                   | 111 |
| <b>Figure 18.</b> Modèle du bien-être des parents .....                                                                             | 117 |
| <b>Figure 19.</b> Modèle intégratif et multifactoriel.....                                                                          | 123 |
| <b>Figure 20.</b> Arbre thématique des neufs thèmes principaux .....                                                                | 237 |
| <b>Figure 21.</b> Appréciation conjointe et coping dyadique selon le modèle développemental contextuel.....                         | 273 |

## Index des tableaux

|                                                                                                                                                                           |     |
|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|-----|
| <b>Tableau 1.</b>                                                                                                                                                         | 29  |
| Classification des mutations du gène CFTR.                                                                                                                                | 29  |
| <b>Tableau 2.</b>                                                                                                                                                         | 41  |
| Les modulateurs CFTR : types et fonctions                                                                                                                                 | 41  |
| <b>Tableau 3.</b>                                                                                                                                                         | 42  |
| Traitements actuels par modulateurs                                                                                                                                       | 42  |
| <b>Tableau 4.</b>                                                                                                                                                         | 49  |
| Chronologie des grandes avancées dans la connaissance et les traitements de la maladie, de la prise en charge et des événements marquants en France, début de nos études. | 49  |
| <b>Tableau 5.</b> Six stades de développement parental selon Galinsky                                                                                                     | 91  |
| <b>Tableau 6.</b>                                                                                                                                                         | 93  |
| Continuum des réponses parentales possibles sur l'axe de certaines polarités                                                                                              | 93  |
| <b>Tableau 7.</b>                                                                                                                                                         | 98  |
| Niveau de soutien et de contrôle du parent selon son style éducatif (Baumrind, 1971, 1978)                                                                                | 98  |
| <b>Tableau 8.</b>                                                                                                                                                         | 119 |
| Exemples de facteurs influençant positivement ou négativement le bien-être parental.                                                                                      | 119 |
| <b>Tableau 9.</b>                                                                                                                                                         | 166 |
| Critères d'inclusion et non inclusion des participant.e.s aux études MucoPar et MucoKids                                                                                  | 166 |
| <b>Tableau 10.</b>                                                                                                                                                        | 166 |
| Information et consentement des participant.e.s                                                                                                                           | 166 |
| <b>Tableau 11.</b>                                                                                                                                                        | 167 |
| Modalités des rencontres avec les participant.e.s                                                                                                                         | 167 |
| <b>Tableau 12.</b>                                                                                                                                                        | 167 |
| Description résumée des échantillons                                                                                                                                      | 167 |
| <b>Tableau 13.</b>                                                                                                                                                        | 168 |
| Types d'analyses réalisées par études, articles et communication pour chaque étude                                                                                        | 168 |
| <b>Tableau 14.</b>                                                                                                                                                        | 222 |
| Caractéristiques socio-démographiques des participant.e.s et information sur leurs enfants.                                                                               | 222 |
| <b>Tableau 15.</b>                                                                                                                                                        | 223 |

|                                                                    |     |
|--------------------------------------------------------------------|-----|
| Informations sur les enfants des participant.e.s. ....             | 223 |
| <b>Tableau 16.</b> .....                                           | 223 |
| Caractéristiques médicales des patient.e.s inclus.e.s. ....        | 223 |
| <b>Tableau 17.</b> .....                                           | 234 |
| Caractéristiques des participant.e.s .....                         | 234 |
| <b>Tableau 18.</b> .....                                           | 235 |
| Données socio-démographiques des parents des participant.e.s. .... | 235 |
| <b>Tableau 19.</b> .....                                           | 236 |
| Données médicales des parents atteints de mucoviscidose. ....      | 236 |
| <b>Tableau 20.</b> .....                                           | 237 |
| Informations individuelles sur les participant.e.s .....           | 237 |

## Index des annexes

|                                                                                                |     |
|------------------------------------------------------------------------------------------------|-----|
| <b>Annexe 1</b> : MUCOPAR - Notice d'information patient.e.s .....                             | 355 |
| <b>Annexe 2</b> : MUCOPAR - Notice d'information conjoint.e.s .....                            | 358 |
| <b>Annexe 3</b> : MUCOKIDS – Notice d'information aux parents .....                            | 361 |
| <b>Annexe 4</b> : MUCOKIDS – Notice d'information enfants majeurs .....                        | 365 |
| <b>Annexe 5</b> : MUCOKIDS – Notice d'information enfants mineurs de 11-18ans .....            | 369 |
| <b>Annexe 6</b> : MUCOKIDS – Notice d'information enfants mineurs de 6-10ans .....             | 371 |
| <b>Annexe 7</b> : Preuve de soumission Article 3 .....                                         | 374 |
| <b>Annexe 8</b> : Retranscription MUCOPAR - Groupe 3 - 16/11/2019 .....                        | 375 |
| <b>Annexe 9</b> : Retranscription MUCOPAR - Groupe 7 – 18/11/2020.....                         | 441 |
| <b>Annexe 10</b> : Retranscription MUCOPAR - Entretien E1 - 11/03/2020.....                    | 485 |
| <b>Annexe 11</b> : Retranscription MUCOPAR - Entretien E2 - 25/03/2020.....                    | 504 |
| <b>Annexe 12</b> : Retranscription MUCOKIDS - Groupe Majeurs - 16/11/2019 .....                | 526 |
| <b>Annexe 13</b> : Retranscription MUCOKIDS - Entretien EK1 - 20/10/2021 .....                 | 566 |
| <b>Annexe 14</b> : Retranscription MUCOKIDS – Entretien de fratrie GK1 et FK2 – 25/03/2021 ... | 579 |
| <b>Annexe 15</b> : Retranscription MUCOKIDS - Entretien EK3 - 29/05/2021 .....                 | 602 |
| <b>Annexe 16</b> : Retranscription MUCOKIDS - Entretien EK4 - 18/02/2022 .....                 | 616 |
| Liste des contenus protégés .....                                                              | 626 |

# Introduction

La mucoviscidose est la maladie génétique létale la plus fréquente dans la population caucasienne. En France, elle touche environ 7800 personnes qui souffrent principalement de troubles pulmonaires, auxquels peuvent s'associer des troubles digestifs et métaboliques (diabète notamment). La prise en charge de cette maladie implique des traitements quotidiens parfois lourds et chronophages. Cette maladie dont l'espérance de vie était de 5 ans dans les années soixante, a longtemps été considérée comme une maladie pédiatrique. L'amélioration de sa prise en charge a permis une spectaculaire amélioration de l'espérance de vie des patient.e.s qui se situait entre 40 et 50 ans lorsque nous avons commencé ce travail de thèse en 2019. L'espérance de vie a fait un nouveau bond depuis la récente généralisation de thérapies hautement efficaces (modulateurs) agissant directement sur les causes de la maladie. Ces améliorations ont permis à de plus en plus de patient.e.s d'accéder à l'âge adulte et de pouvoir s'engager dans des parcours de vie classiques avec études, emploi, relations conjugales et famille. En 2016, le registre français de la mucoviscidose recensait 796 patient.e.s avec des enfants. Depuis, les patient.e.s ont donné naissance (parfois adopté) à au moins 65 enfants chaque année. Ainsi le nombre de parents malades ne cesse d'augmenter et le phénomène tend à s'accélérer suite à la généralisation des modulateurs.

La parentalité est une expérience transformatrice de la vie d'un adulte, réputée pour être une expérience source de gratifications et de contraintes, pouvant être à l'origine de problèmes de santé mentale ou impacter la satisfaction conjugale. Elle résulte de nombreux facteurs propres au parent, à l'environnement et à l'enfant. Être parent et vivre avec une maladie chronique ou un handicap peut être source de défis supplémentaires par rapport à une parentalité dite typique. Les études ont également montré que ces parents étaient plus à risque de présenter des difficultés psycho-sociales. L'augmentation du nombre de patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose devenant parents a poussé les clinicien.ne.s et chercheur.se.s à investiguer les liens entre parentalité et mucoviscidose. Ainsi, depuis les années 2010, quelques études se sont emparées du sujet sous divers angles (impact de la parentalité sur l'état de santé des patient.e.s et expérience de la parentalité notamment), mais le sujet reste encore peu exploré.

Dans ce contexte, nous avons développé une recherche qualitative et exploratoire pour documenter l'expérience des patient.e.s devenu.e.s parents, de leurs conjoint.e.s et de leurs enfants. Cette recherche a été effectuée en deux volets : un volet s'intéressant aux parents (MucoPar) et un autre s'intéressant aux enfants (MucoKids). Ce travail de thèse rend compte de l'ensemble de la recherche qui a donné lieu à la production de deux articles pour les résultats de MucoPar et va donner lieu à la rédaction d'un article sur les résultats de MucoKids. Sa partie empirique est organisée sur un format de thèse sur article, à laquelle nous avons rajouté une présentation des résultats préliminaires de l'étude MucoKids

Ce manuscrit est constitué de trois parties principales : une partie théorique, une partie empirique et une partie discussion.

La partie théorique est organisée en cinq grands chapitres ; les deux premiers sont consacrés à la mucoviscidose et des trois suivants à la parentalité. Les deux premiers chapitres proposent une description de la maladie (ses causes, sa prévalence, ses manifestations cliniques, et ses traitements) et les options d'accès à la parentalité pour les patient.e.s qui sont nombreux.ses à être infertiles du fait de la maladie.

Afin de contextualiser historiquement, sociologiquement et juridiquement le concept de parentalité, le troisième chapitre présente les différentes dimensions de la parentalité. Le chapitre suivant s'intéresse à la psychologie de la parentalité et présente différentes théories permettant de décrire et de comprendre les enjeux psychologiques du « devenir et être parent ».

Après des explorations détaillées de la parentalité typique, le dernier chapitre aborde la question de la parentalité des personnes atteintes de maladies chroniques ou de handicaps. Après une revue de littérature portant sur d'autres maladies que la mucoviscidose, nous proposons une revue systématique de littérature (Article 1) pour faire un état de l'art ciblé sur notre sujet de recherche.

La partie empirique est organisée en trois sections : présentation du contexte de la recherche et des protocoles des études, présentation des résultats de l'étude MucoPar (Articles 2 et 3) suivie d'une synthèse globale de l'étude, et présentation des résultats préliminaires de l'étude MucoKids.

La partie discussion nous amène à explorer certains facteurs explicatifs des expériences rapportées par une majorité de participant.e.s. Ces explorations nous amènent à ouvrir des perspectives de recherche et à proposer des interventions cliniques concrètes.

# PARTIE THEORIQUE

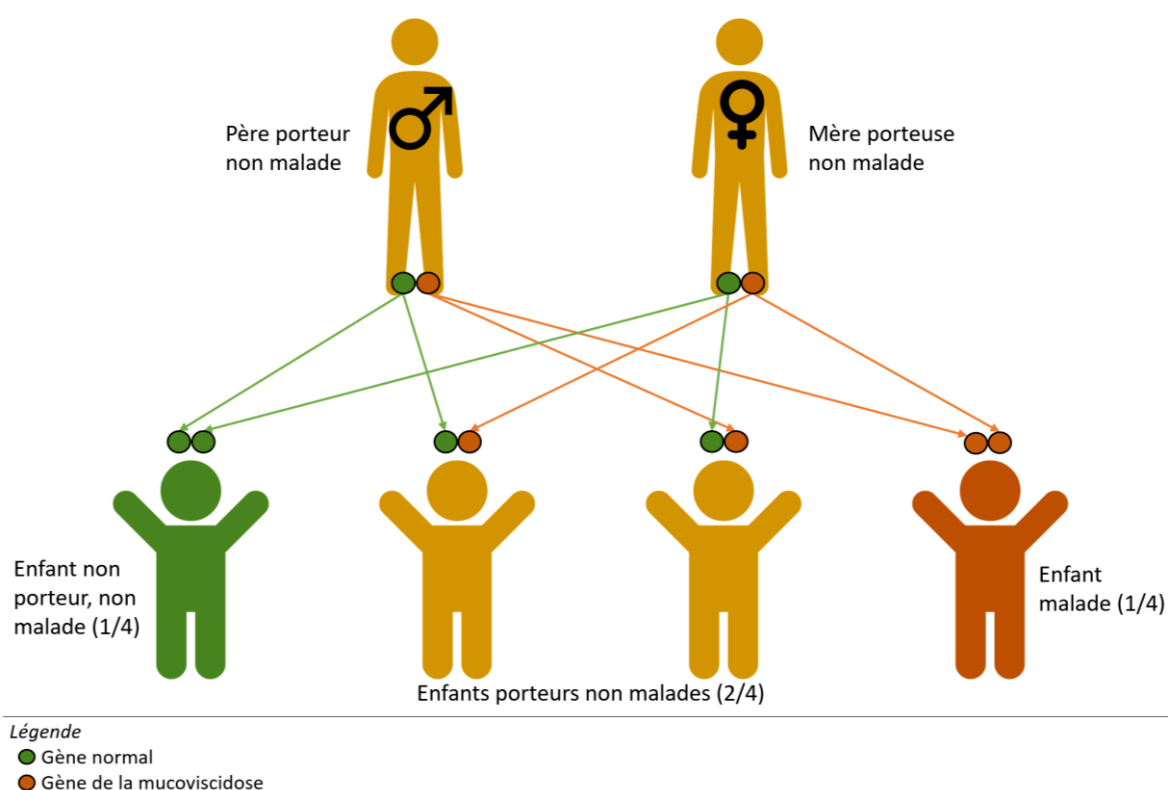
## MUCOVISCIDOSE et PARENTALITE

## A. La mucoviscidose

La mucoviscidose est une maladie génétique rare et létale, décrite pour la première fois en tant que pathologie à part entière par Dorothy Hansine Andersen, pédiatre américaine, en 1936. Cette maladie héréditaire est dite à transmission autosomique récessive, ce qui signifie qu'elle est due à la mutation d'un gène non dominant porté par un chromosome non sexuel. Son caractère récessif implique que l'individu doit avoir hérité de deux mutations (une par chacun de ses parents) pour que la maladie s'exprime, comme l'illustre la Figure 1. Les individus porteurs d'une seule mutation sont dits « porteur.se.s sain.e.s » et ne sont donc pas malades.

**Figure 1.**

*Transmission à leur descendance des gènes de deux parents sains, porteurs d'une mutation de la mucoviscidose*



Concrètement, la maladie se manifeste par une production exacerbée et peu qualitative du mucus présent dans de nombreux systèmes de l'organisme (systèmes respiratoire, digestif et génital) (Grasemann & Ratjen, 2023; Hubert, 2017; Turck, 2013). Au niveau respiratoire, cela favorise la prolifération microbienne et génère des inflammations,

responsables notamment d'infections respiratoires à répétition. A terme, cela provoque une insuffisance respiratoire qui fait la gravité de la maladie, car elle engage directement le pronostic vital. En parallèle, la production dysfonctionnelle de mucus peut générer d'importants troubles digestifs et métaboliques (malnutrition, carences, diabète, douleurs abdominales, reflux, diarrhée, constipation), hépatiques (cirrhoses), ORL (sinusites chroniques) et génitaux (infertilité) (Grasemann & Ratjen, 2023; Hubert, 2017; Turck, 2013).

C'est la maladie génétique grave la plus fréquente dans la population caucasienne. Son incidence varie entre 1 pour 3 500 naissances et 1 pour 5 000 naissances en Europe du Nord, Australie et Amérique du Nord (Grasemann & Ratjen, 2023), avec d'importantes disparités en fonction des régions (ex : 1 pour 1 400 en Irlande, 1 pour 25 000 en Finlande). L'espérance de vie des patient.e.s a fortement augmenté sur les dernières décennies grâce à l'amélioration des traitements symptomatiques. Depuis la généralisation en 2020 des thérapies protéiques cherchant à réduire les causes de la maladie, l'espérance de vie a connu un nouveau pic d'amélioration. Ainsi, les enfants nés en 1965 avaient une espérance de vie de 7 ans, alors qu'elle est de 60,6 ans en Australie (Ahern et al., 2024) pour les enfants nés entre 2018 et 2022, de 61,4 ans pour les enfants nés 2023 aux Etats-Unis (Cystic Fibrosis Foundation, 2024), et qu'elle dépasse les 65 ans en France (Burgel et al., 2023).

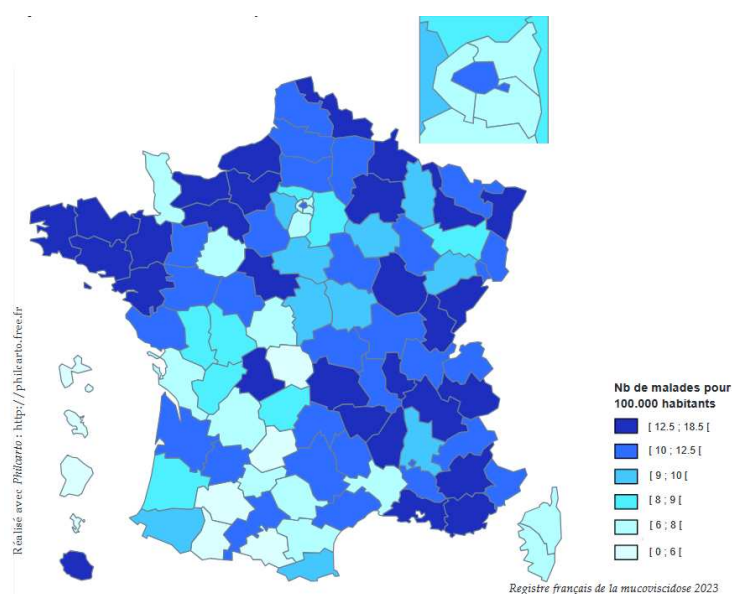
Ces changements de paradigme de la maladie modifient la population de malades, aujourd'hui constituée d'une majorité d'adultes alors que la mucoviscidose a longtemps été considérée comme une maladie pédiatrique (Adamoli et al., 2024; Cystic Fibrosis Foundation, 2024; Vaincre la Mucoviscidose, 2024a). Ces adultes, qui tendent à une normalisation de leur vie, restent néanmoins des personnes porteuses d'une maladie grave, à l'origine de nombreuses manifestations symptomatologiques plus ou moins invalidantes et nécessitant des traitements parfois très lourds et chronophages. Afin de mieux cerner les enjeux qu'engendre la mucoviscidose pour les patient.e.s, nous allons présenter la population des patient.e.s français.es, puis détailler les aspects génétiques de leur maladie et la façon dont est posé le diagnostic. Nous décrirons ensuite les manifestations cliniques et les traitements actuels. Un historique condensé des grandes avancées dans la connaissance et les traitements de la maladie, de la prise en charge et des événements marquants en France, clôturera le chapitre.

## I. Population française

En 2023, le registre français de la mucoviscidose a recensé 7801 patient.e.s, dont 51,5% d'hommes et 48,5% de femmes, avec une prévalence de la maladie variable d'un département à l'autre (Figure 2).

**Figure 2.**

*Prévalence de la mucoviscidose par département de résidence (nombre de patient.e.s pour 100 000 habitant.e.s).*

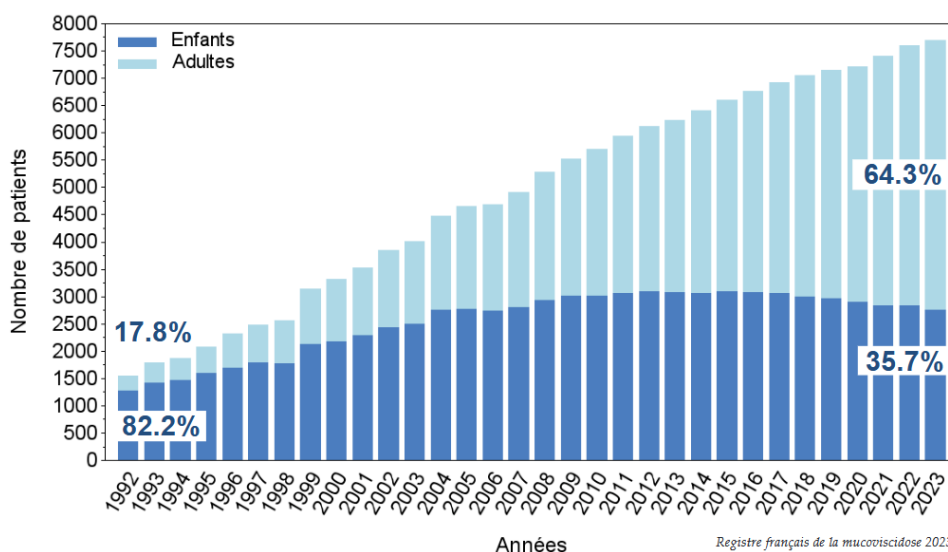


*Note. Figure issue du Registre français de la mucoviscidose 2023 (Vaincre la Mucoviscidose, 2024a)*

En 2023, 157 nouveaux.elles patient.e.s ont été diagnostiqué.e.s, dont 105 par dépistage néonatal. Au sein de la population totale atteinte de mucoviscidose, on recense 851 patient.e.s ayant bénéficié d'une transplantation pulmonaire (10,9% de la population) dont 4 enfants (Vaincre la Mucoviscidose, 2024a). L'âge moyen des patient.e.s est de 25,7 ans, 64,3% de l'ensemble des patient.e.s a plus de 18 ans, 18% plus de 40 ans et la personne la plus âgée a 88 ans. La proportion d'adultes ne cesse d'augmenter chaque année (Figure 3).

**Figure 3.**

*Evolution du nombre de patient.e.s en France depuis 1992*



*Note. Figure issue du Registre français de la mucoviscidose 2023 (Vaincre la Mucoviscidose, 2024a)*

**Mortalité.** En 2023, 40 personnes sont décédées, à un âge moyen de 39,6 ans. Le taux brut de mortalité est de 5,2 pour 1 000 patient.e.s. La personne décédée la plus jeune avait 1,7 ans, la plus âgée 72 ans, et 70% des personnes décédées avaient une greffe pulmonaire. Des suivis de cohortes de patient.e.s en fonction de leur année de naissance ont permis de montrer des différences de survie significatives à partir de l'âge de 8 ans pour les deux plus anciennes cohortes (1992-1996 et 1997-2001). Ainsi, les patient.e.s né.e.s le plus récemment ont de meilleures chances de survie.

**Données sociales.** Environ<sup>1</sup> 55% des patients de plus de 18 ans exercent une activité professionnelle, 16% sont étudiants, 20% sont sans activité et 2,5% sont retraités. La proportion d'hommes en activité est similaire entre les non greffés (54%) et les greffés (53%). Chez les patients non greffés, la proportion d'hommes sans activité est plus faible que chez les patients greffés (16% vs 26%), et la proportion d'étudiants est plus importante (19% vs 5%).

Environ<sup>2</sup> 47% des patientes de plus de 18 ans ont une activité professionnelle, 21% sont étudiantes, 24% sont sans activité et 4% sont retraitées. Chez les patientes non greffées, la proportion de femmes sans activité est plus faible que chez les patientes greffées (20% vs 26%), de même que la proportion de femmes en activité (44% vs 51%), alors que la proportion

<sup>1</sup> Données connues pour 90,4% des hommes

<sup>2</sup> Données connues pour 88,7% des femmes

d'étudiantes est plus importante (21% vs 6%).

Environ 45% des hommes et 55% des femmes de plus de 18 ans vivent en couple, 28% d'hommes et 26% de femmes vivent seul.e.s, les autres vivent principalement chez leurs parents.

Le niveau de scolarité des adultes est connu pour uniquement 59,2% des patient.e.s adultes. Sur cet échantillon, environ 19% ont un niveau inférieur au bac, 32% ont un niveau entre le bac et le bac +2, 9,5% ont un niveau bac +3, 12,5% bac +4 ou master, 13% un niveau supérieur. 14% ont d'autres diplômes.

## **II. Génétique et physiopathologie**

Le gène porteur de la mutation responsable de la mucoviscidose, identifié en 1989, est appelé CFTR (Cystic Fibrosis Transmembrane conductance Regulator) (Grasemann & Ratjen, 2023; Hubert, 2017; Vaincre la Mucoviscidose, 2024a). Il est situé sur le bras long du chromosome 7 et code pour la protéine CFTR. Aujourd'hui, plus de 2000 mutations du gène CFTR ont été identifiées et la mutation F508del est la plus fréquente. Elle concerne environ 83% des patient.e.s français et 85% des patients nord-américains, de façon homozygote (les patient.e.s ont deux fois la même mutation) ou hétérozygote (les patient.e.s ont deux mutations différentes, ex : F508del et une autre) (Grasemann & Ratjen, 2023; Vaincre la Mucoviscidose, 2022). Il existe également de nombreuses autres mutations, dont certaines sont très rares.

### **1) La protéine CFTR**

#### **a) Rôle et dysfonctionnement**

La protéine CFTR est un canal fixé à travers la paroi (appelée membrane) des cellules épithéliales<sup>3</sup>. Ce canal régule les échanges d'ions chlorure et de sodium entre le dedans et le dehors (appelé liquide extracellulaire) de la cellule. Le liquide extracellulaire des cellules de l'épithélium étant le lieu où se forme le mucus, la protéine CFTR joue un rôle fondamental dans la quantité et la qualité de celui-ci. Le dysfonctionnement de la protéine CFTR génère la

---

<sup>3</sup> Cellules épithéliales : ces cellules constituent l'épithélium qui est le tissu biologique recouvrant l'ensemble de notre corps (la peau), nos orifices (narines, bouches, anus). Il est également présent à l'intérieur de notre corps, notamment dans presque tout le tube digestif, les bronches, et dans de nombreux organes (foie, pancréas, reins, organes reproducteurs). Il présente différentes caractéristiques en fonction de sa localisation.

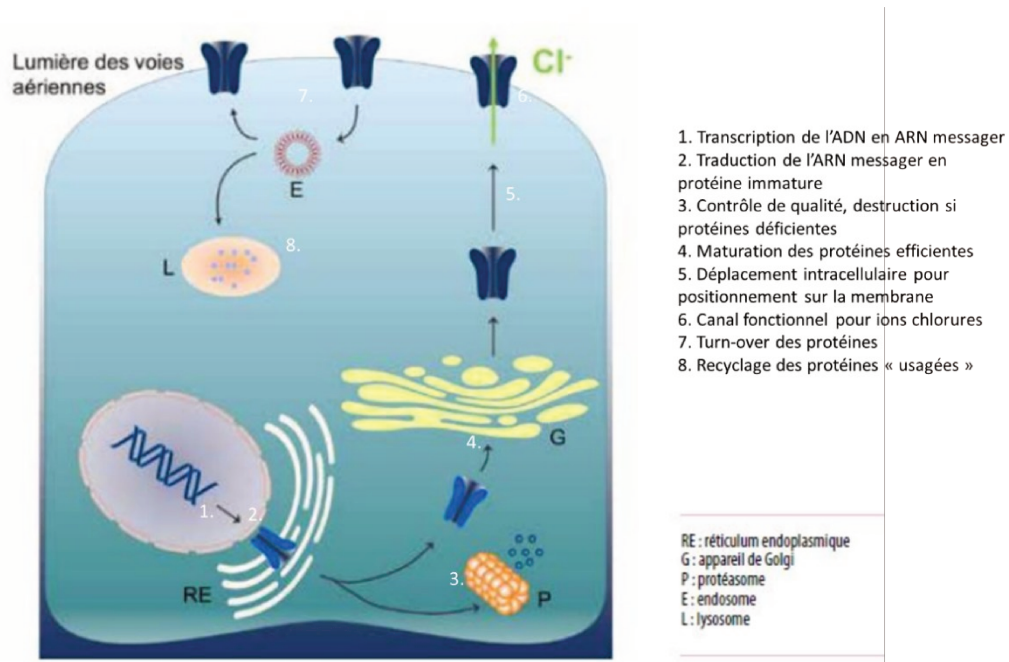
production d'un mucus épais, déshydraté et visqueux qui perturbe le bon fonctionnement des organes en causant des obstructions (voies aériennes, intestins, et différents canaux) et en perturbant l'évacuation des bactéries ou leur gestion par le système immunitaire. A la longue, cela génère des inflammations chroniques et contribue à la destruction des tissus dans les organes (Hubert, 2017; Mazet & Desmoulière, 2024). Pour bien comprendre les impacts de la mucoviscidose et sa prise en charge, un point de biologie cellulaire sur la création, appelée synthèse, de la protéine CFTR est nécessaire.

#### **b) Synthèse de la protéine CFTR**

La synthèse d'une protéine CFTR suit un processus en plusieurs étapes, autant de moments que peuvent perturber les mutations du gène CFTR responsables de la maladie. Ainsi, la synthèse commence par la « transcription » de l'ADN en acide ribonucléique (ARN) messenger. Cet ARN messenger passe ensuite dans une sorte de fabrique à protéines, pour être « traduit » (transformé) en protéine. La protéine subit alors un contrôle de qualité strict. Les protéines déficientes sont dégradées. Les autres doivent ensuite maturer et subir quelques modifications pour être fonctionnelles, ce qu'elles font notamment en passant dans certaines structures de nos cellules (le réticulum endoplasmique et l'appareil de Golgi). Après cette étape de maturation, la protéine se fixe sur la membrane de la cellule. Elle est ensuite régulièrement recyclée ou remplacée pour assurer le bon fonctionnement cellulaire, c'est le turn-over. Ces étapes de synthèses sont présentées dans la Figure 4.

**Figure 4.**

*Synthèse et cheminement de la protéine CFTR dans une cellule de l'épithélium respiratoire.*



*Note. Image issue de l'article de Lebecque et al., (2019), avec ajout d'annotations listant les étapes de la synthèse d'une protéine CFTR.*

## **2) Les mutations et leur impact sur la protéine CFTR**

Les mutations sont classées en 6 catégories, en fonction des défauts qu'elles génèrent au niveau de la protéine CFTR. Certaines vont avoir un impact sur la création ou la maturation de la protéine CFTR, d'autres vont perturber son fonctionnement (Tableau 1) (Grasemann & Ratjen, 2023; Hubert, 2017; Lebecque et al., 2019).

**Tableau 1.**

*Classification des mutations du gène CFTR.*

| Classe | Défauts générés                                                                                                                                                            | Conséquences                                                                                                                         |
|--------|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| 1      | Perturbation de la synthèse de la protéine CFTR (malformation ou absence de protéine). Elles sont appelées mutations « non-sens ».                                         | <b>Affectent la création ou le transfert de la protéine CFTR : il n'y pas de canal CFTR.</b>                                         |
| 2      | Perturbation de la maturation de la protéine CFTR et/ou de son déplacement intracellulaire, c'est-à-dire son transfert à la membrane où elle doit jouer son rôle de canal. |                                                                                                                                      |
| 3      | Inefficacité du système d'ouverture du canal. On les nomme « mutations gating ».                                                                                           | <b>Affectent le fonctionnement de la protéine CFTR. Il y a des canaux CFTR sur la membrane cellulaire, mais ils dysfonctionnent.</b> |
| 4      | Altération des capacités de conductance : transport partiel des ions chlorures.                                                                                            |                                                                                                                                      |
| 5      | Diminution du nombre de canaux CFTR présents sur la membrane cellulaire.                                                                                                   | <b>Affectent le nombre de protéines sur la membrane. Il y a trop peu de canaux CFTR sur la membrane.</b>                             |
| 6      | Augmentation du turn-over des protéines CFTR à la surface des cellules, rendant les canaux instables.                                                                      |                                                                                                                                      |

Cette classification est aidante, notamment pour la prise en charge des patient.e.s, mais présente des limites, notamment car une mutation peut générer plus d'une problématique. Par exemple la mutation F508del engendre principalement des défauts de maturation de la protéine CFTR (Classe 2), mais a également un impact délétère sur la conductance des canaux chlorure (Classe 4), et sur le turn-over de la surface cellulaire (Classe 6) (Grasemann & Ratjen, 2023; Lebecque et al., 2019). De plus, une problématique au sein d'une même classe peut être générée par différents facteurs en fonction des mutations (Lebecque et al., 2019).

### **III. Diagnostic**

Aujourd'hui, la grande majorité des patient.e.s, dont 67% des nouveaux.elles patient.e.s français.e.s, sont diagnostiqué.e.s grâce au test de dépistage néonatal, rendu systématique dans de nombreux pays (en France depuis 2002). En France, ce dépistage fait partie des analyses faites lors du test de Guthrie, proposé systématiquement dans les maternités au 3<sup>ème</sup> jour de vie de l'enfant. Avec le prélèvement d'une goutte de sang, ce test permet de détecter la présence de la mucoviscidose et de plusieurs autres maladies rares. La plupart des programmes de dépistage (en France et à l'étranger) vont chercher à déterminer

le niveau de trypsine immunoréactive<sup>4</sup> dans le sang qui est généralement élevé chez les enfants atteints de mucoviscidose (Grasemann & Ratjen, 2023; Hubert, 2017). Si le résultat est positif, les parents sont contactés pour faire des tests génétiques (recherche des mutations CFTR les plus fréquentes). En Californie, le programme de dépistage inclut aujourd'hui un séquençage génétique plus poussé lorsqu'une seule mutation a été trouvée. Cela augmente ainsi les chances de détecter les variants les plus rares, notamment plus fréquents dans les populations non caucasiennes (Grasemann & Ratjen, 2023).

Le test de la sueur est ensuite proposé pour confirmer le diagnostic. En France il est proposé dès lors qu'au moins une mutation a été décelée (Hubert, 2017). Ce test cherche à déterminer un excès de sel dans la sueur, caractéristique de la maladie. Il est indolore et consiste en général à générer un courant électrique de faible intensité pour stimuler la transpiration au niveau de l'avant-bras (Ameli.fr, 2024). Une sueur avec une concentration élevée de chlorure ( $\geq 60$  mmol/L), est un marqueur de la maladie. Toutefois ce seuil ne permet pas de dépister tou.te.s les patient.e.s, notamment celles et ceux présentant des formes moins sévères de la maladie. Un seuil intermédiaire (entre 40 et 60 mmol/L) doit donc conduire à de nouvelles investigations. En cas de résultats douteux, des investigations in-vivo sont proposées (investigations au niveau nasal ou intestinal par exemple) (Ameli.fr, 2024; Grasemann & Ratjen, 2023; Hubert, 2017). Pour les personnes nées avant 2002, ou celles non dépistées lors du dépistage néonatal, le diagnostic de la mucoviscidose peut être posé dans d'autres circonstances. Ainsi, sur l'ensemble des nouveaux patient.e.s français.e.s concerné.e.s en 2023, 18% ont été diagnostiqué.e.s car ils.elles présentaient des symptômes respiratoires comme de la toux ou des bronchites chroniques, 15% car ils.elles avaient des antécédents familiaux, 9% car ils.elles présentaient des diarrhées chroniques, 8% des retards de croissance et 5% un iléus méconial<sup>5</sup> (Vaincre la Mucoviscidose, 2024a). La fatigue chronique, l'amaigrissement sans perte d'appétit, la déshydratation et l'infertilité masculine sont d'autres symptômes évocateurs de la mucoviscidose pouvant conduire à des diagnostics hors dépistages (Ameli.fr, 2024). Ainsi, quelques patient.e.s continuent d'être diagnostiqué.e.s tardivement.

---

<sup>4</sup> Trypsine immunoréactive : Ensemble de molécules issues du de la synthèse du trypsinogène dans le pancréas, qui bloqué par le mucus, ne peut pas aller jouer son rôle d'enzyme dans les intestins et passe alors dans le sang sous forme de trypsine immunoréactive.

<sup>5</sup> Iléus méconial : occlusion intestinale du nouveau-né, qui entraîne notamment vomissements, dilatation abdominale et absences de selles pendant les premiers jours de vie.

## IV. Manifestations cliniques

En lien avec les différents types de mutations et leur caractère homozygote ou hétérozygote, les manifestations cliniques de la maladie sont très variables d'un.e patient.e à un.e autre. Ainsi, il est courant de dire qu'il y a plusieurs formes de mucoviscidose, et de parler de formes plus ou moins sévères de la maladie. Notamment, les patients porteurs de deux mutations de classe I, II ou III présentent généralement des tableaux cliniques plus sévères (Hubert, 2017). Cependant, le type de mutation du gène CFTR prédit mal l'évolution des symptômes qui est également tributaire de la qualité des soins reçus et d'autres facteurs génétiques (Lebecque et al., 2019).

### 1) Atteinte respiratoire

L'atteinte respiratoire domine généralement le tableau clinique des patient.e.s et est responsable de 85 à 95% des décès prématurés (Hubert, 2017; Mazet & Desmoulière, 2024). Les patient.e.s naissent avec des poumons fonctionnels, mais la maladie les dégrade au fur et à mesure. A cause de son manque de fluidité, le mucus des bronches est difficile à évacuer et a tendance à les obstruer, limitant le passage de l'air. De plus, l'épaississement du mucus empêche les globules blancs de capturer les bactéries qui y sont emprisonnées, ce qui génère des inflammations chroniques et contribue à la destruction des tissus pulmonaires (Mazet & Desmoulière, 2024).

Sur le plan clinique, les patient.e.s souffrent de toux chronique et productive, d'infection bronchopulmonaire chronique avec des périodes d'exacerbation respiratoire<sup>6</sup> évoluant vers l'insuffisance respiratoire chronique obstructive<sup>7</sup> (Mazet & Desmoulière, 2024). A ces manifestations, peuvent s'ajouter des complications, telles que des pneumothorax<sup>8</sup>, une hypertension artérielle pulmonaire<sup>9</sup> ou des hémoptysies<sup>10</sup> pouvant parfois engager le pronostic vital (Hubert, 2017; Mazet & Desmoulière, 2024).

---

<sup>6</sup> Exacerbations respiratoires : épisodes aigus qui nécessitent un traitement antibiotique.

<sup>7</sup> Insuffisance respiratoire chronique obstructive : insuffisance due à une obstruction permanente des voies aériennes

<sup>8</sup> Pneumothorax : présence anormale d'air entre le poumon et la plèvre (paroi protectrice du poumon) qui entraîne le décollement du poumon et sa diminution de volume.

<sup>9</sup> Hypertension artérielle pulmonaire : pression trop importante de la circulation sanguine dans les poumons, qui génère des difficultés de fonctionnement cardiaque.

<sup>10</sup> Hémoptysie : Présence de sang dans les crachats ou provenant des voies respiratoires.

Les manifestations cliniques respiratoires sont très variables en fonction de l'âge des patient.e.s et de leur génotype. Ainsi, la plupart des patient.e.s jeunes ont des fonctions respiratoires pas ou peu altérées. Celles-ci se dégradent ensuite progressivement à l'âge adulte, en lien notamment avec les infections bactériennes.

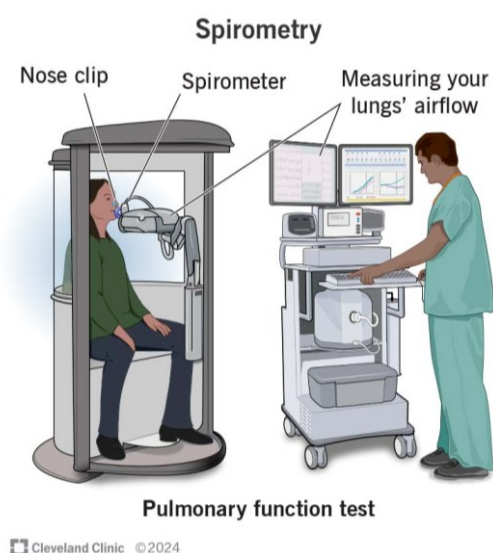
#### a) Evaluation de l'atteinte respiratoire

L'atteinte respiratoire est évaluée par l'observation des signes cliniques, l'imagerie (radiographie des poumons et scanner thoracique), la mesure de la fonction respiratoire (en particulier le Volume Expiratoire Maximal par Seconde (VEMS)) et les examens bactériologiques.

Un test fonctionnel respiratoire permet de déterminer le niveau d'atteinte des capacités respiratoires. Les patient.e.s sont invité.e.s à souffler de toutes leur force dans un embout buccal relié à un appareil (spiromètre) qui mesure, entre autres, le volume d'air expiré en une seconde (Figure 5).

**Figure 5.**

*Spirométrie : examen des capacités respiratoires via la mesure du VEMS*



*Note. Figure issue du site Cleveland Clinic*

Les examens bactériologiques, effectués à partir des sécrétions bronchiques expectorées (crachats) des patient.e.s, permettent de déterminer le type de colonisations bactériennes. Les premiers germes observés sont généralement *Staphylocoque doré* et

*Haemophilus influenzae* (Hubert, 2017). Au cours du temps, le germe *Pseudomonas aeruginosa* apparaît chez de nombreux adultes, mais la fréquence de contamination a beaucoup diminué ces dernières années. La fréquente chronicisation de cette infection est associée à plus de morbidité et de mortalité. En parallèle, des souches résistantes aux antibiotiques augmentent en fréquence chez les adultes et aggravent la maladie, de même que la présence de mycobactéries atypiques<sup>11</sup>, de champignons et d'infections virales (gripes, COVID) (Hubert, 2017). La contagion se fait par l'environnement et entre individus, notamment pour le *Pseudomonas*.

## 2) Atteinte ORL

Les troubles pulmonaires peuvent être accompagnés de rhinopharyngites et d'une opacité des sinus faciaux (liée notamment à l'épaississement du mucus présent dans les cavités), qui peuvent être à l'origine de troubles de l'odorat (Hubert, 2017). Des risques d'hypoacousie (diminution de l'audition), voire de surdité sont possibles chez les patient.e.s recevant des doses élevées de certaines classes d'antibiotiques (Hubert, 2017). Bien que l'atteinte entraîne des gênes pour les patient.e.s, celles et ceux ayant une atteinte principalement ORL, présentent une forme moins sévère de la maladie.

## 3) Atteinte digestive

### a) Atteinte pancréatique

La majorité des patient.e.s (environ 80%) souffrent d'une IPE (Insuffisance Pancréatique Exocrine), notamment presque tou.te.s les patient.e.s porteurs de deux mutations de classe I, II ou III. L'IPE est liée à l'épaississement du suc pancréatique qui obstrue les canaux pancréatiques et de fait n'arrive pas ou peu dans les intestins (Mazet & Desmoulière, 2024). Cela conduit à une inflammation et une destruction progressive des tissus du pancréas. Les conséquences cliniques sont « une digestion difficile avec inconfort, douleurs abdominales, malabsorption des graisses, carence en vitamines liposolubles (A, D, E et K) et en acides gras essentiels, et diarrhées graisseuses entraînant une grande perte calorique, aboutissant à une dénutrition » (Mazet & Desmoulière, 2024, p. 19).

---

<sup>11</sup> Mycobactéries atypiques : bactéries de l'environnement (eau, terre), généralement non pathogènes pour les sujets sains, mais responsables d'infections chez les sujets immuno-déprimés ou présentant des pathologies pulmonaires

Certain.e.s patient.e.s vont également souffrir d'insuffisance pancréatique endocrine. Celle-ci se manifeste au fur et à mesure que les structures assurant la régulation de la glycémie<sup>12</sup> (appelées îlots de Langerhans) sont détruites. Cela arrive rarement avant l'âge de 10 ans, mais cela affecte 30% des patient.e.s de 20 ans et concerne environ 50% des patients de 30 ans et plus (Mazet & Desmoulière, 2024). La destruction de ces îlots se caractérise par un diabète insulino-dépendant, spécifique à la mucoviscidose, mais présentant des caractéristiques communes aux diabètes de type I et II. Sa présence impacte les fonctions respiratoires et la survie des patient.e.s. Un dépistage de ce diabète est généralement pratiqué à partir de 10 ans, avec un test annuel d'hyperglycémie provoquée<sup>13</sup> (Grasemann & Ratjen, 2023; Hubert, 2017).

#### **b) Atteinte gastro-intestinale**

Elles concernent 60 à 70% des patient.e.s souffrant d'IPE (Mazet & Desmoulière, 2024). L'épaississement et la viscosité du mucus intestinal, favorise l'apparition de bouchons occlusifs, diminue la mobilité du bol digestif, et provoque ainsi constipation, occlusions, inflammation et douleurs chroniques. L'iléus méconial est d'ailleurs révélateur de la maladie chez 13 à 15% des patient.e.s (Mazet & Desmoulière, 2024). Un reflux gastro-œsophagien est observé chez 25% des patient.e.s (Hubert, 2017).

#### **c) Atteinte hépatique**

Les atteintes du foie et de la vésicule biliaire concernent 30 à 40% des patient.e.s, et touchent 5 à 10% des patient.e.s de moins de 12 ans. Elles sont la cause de 2,5 à 5% des décès (Mazet & Desmoulière, 2024). La viscosité de la bile obstrue les canaux biliaires, ce qui l'empêche de s'écouler normalement dans les intestins. L'accumulation de la bile dans le foie peut, en parallèle, aboutir à une cirrhose biliaire<sup>14</sup> (environ 5 à 8% des patient.e.s) qui peut se compliquer avec de l'hypertension portale<sup>15</sup>, pouvant être à l'origine d'hémorragies digestives

---

<sup>12</sup> Glycémie : niveau de sucre présent dans le sang

<sup>13</sup> Test de glycémie provoquée : administration à jeun d'une dose de glucose pure, afin d'observer si la régulation de la glycémie se fait correctement.

<sup>14</sup> Cirrhose biliaire : lésion grave et irréversible du foie

<sup>15</sup> Hypertension portale : pression sanguine trop élevée dans la veine porte à l'entrée du foie, provoquant troubles de la circulation (varices, saignements) et production d'un liquide appelé ascite qui fait gonfler le ventre, entraînant diverses complications.

et une insuffisance hépatocellulaire<sup>16</sup> (Hubert, 2017; Mazet & Desmoulière, 2024). La gravité de la cirrhose et des complications hépatiques peut engager le pronostic vital et justifier une greffe de foie (Coilly, 2023). La vésicule biliaire est généralement atrophiée et on observe des lithiases vésiculaires (calculs biliaires), dont l'incidence augmente avec l'âge (Hubert, 2017; Mazet & Desmoulière, 2024).

#### 4) Atteinte musculosquelettique

Des douleurs et des inflammations articulaires chroniques avec ou sans déformations osseuses peuvent survenir, en lien ou non avec l'insuffisance respiratoire. (Hubert, 2017; Mazet & Desmoulière, 2024). La densité osseuse est généralement moins élevée que dans la population normale, à cause d'apports insuffisants en calcium et de troubles d'absorption de la vitamine D. Le risque d'ostéoporose<sup>17</sup> augmente avec l'âge et peut générer des fractures ou des tassements vertébraux. On peut également observer des retards de croissance pubertaire.

#### 5) Atteinte génitale

La maladie retarde la puberté pour les deux sexes (Hubert, 2017).

Les hommes sont stériles dans plus de 95% des cas à cause d'une absence ou d'une atrésie (obstruction partielle ou totale) des canaux déférents (Haines & Middleton, 2022; Hubert, 2017; Kazmerski et al., 2021; Mazet & Desmoulière, 2024). Ces canaux, situés entre les testicules et l'urètre assurent le transport des spermatozoïdes. Les testicules ne sont en revanche pas impactés, ainsi la production des spermatozoïdes est active et ils peuvent être collectés chirurgicalement dans le cadre de l'Assistance Médicale à la Procréation (AMP).

Contrairement aux hommes, les femmes ne présentent pas d'anomalie morphologique au niveau génital. En revanche leur fertilité est diminuée car elles présentent un épaissement de la glaire cervicale perturbant le passage des spermatozoïdes, auquel peuvent s'ajouter des troubles de l'ovulation et des aménorrhées secondaires due aux troubles nutritionnels (Haines & Middleton, 2022; Hubert, 2017; Mazet & Desmoulière, 2024). Environ 35% des femmes atteintes de mucoviscidose sont stériles ou présentent une hypofertilité<sup>18</sup>

---

<sup>16</sup> Insuffisance hépatocellulaire : diminution massive du nombre de cellules du foie, entraînant (entres autres) fatigue, amaigrissement, anomalies sanguines, ictère (jaunisse) et dans les formes les plus sévères, hypoglycémie et troubles de la conscience, voire coma.

<sup>17</sup> Ostéoporose : fragilité excessive du squelette, due à la diminution de la masse osseuse.

<sup>18</sup> Hypofertilité : absence de grossesse après un an de rapports sexuels non protégés

contre 5 à 15% des femmes de la population générale (Haines & Middleton, 2022; Kazmerski et al., 2021).

## **6) Autres atteintes**

Les patient.e.s peuvent également présenter une déshydratation aiguë (majorée en cas de canicule), des pathologies cardiaques chez certains nourrissons et des allergies particulièrement problématiques vis-à-vis de certains antibiotiques (Hubert, 2017). Il y a de plus un risque augmenté de cancers digestifs chez tou.te.s les patient.e.s et plus particulièrement chez les patient.e.s greffé.e.s pulmonaires. Ces dernier.es ont également un risque accru de développer des lymphomes ou des cancers dermatologiques.

Avec l'âge, les patient.e.s sont également de plus en plus nombreux.ses à présenter des pathologies communes au vieillissement (troubles cardio-vasculaires, cancers) (Burgel et al., 2023). De plus, l'arrivée des nouvelles thérapies protéiques est en train de modifier et élargir encore plus ce champ des comorbidités des personnes adultes atteintes de mucoviscidose.

## **7) Impact psychologique**

L'ensemble des symptômes a bien entendu un impact sur la qualité de vie des patient.e.s, auquel s'ajoute la lourdeur et l'aspect chronophage de certains traitements. Comme d'autres maladies chroniques, la mucoviscidose rend les patient.e.s plus à risque sur le plan psychopathologique, et ils.elles sont deux à trois fois plus nombreux à développer des symptômes dépressifs et/ou anxieux en comparaison d'échantillons de population générale. (Quittner et al., 2016, 2020). Ces symptômes ont des impacts négatifs notamment sur l'adhérence aux traitements, l'état de santé somatique des patients, le nombre d'hospitalisations et la qualité de vie (Quittner, Goldbeck, Abbott, Duff, Lambrecht, Solé, Tibosch, Brucefors, et al., 2014).

## **V. La prise en charge**

Le suivi des personnes atteintes de mucoviscidose est assuré par un Centre Ressource et de Compétences de la Mucoviscidose (CRCM). Il en existe 47 en France, situés en milieux hospitaliers, qui peuvent accueillir un public pédiatrique, adulte ou mixte (Ameli.fr, 2024; Hubert, 2017). Au sein du CRCM, une équipe pluridisciplinaire (médecins, infirmier.es,

kinésithérapeute, psychologue, diététicien.ne, assistant.e social.e) a pour mission de poser le diagnostic de la mucoviscidose et de définir la prise en charge globale des patient.e.s. L'équipe coordonne ensuite la prise en charge grâce à un travail en réseau avec les autres services hospitaliers (notamment pour la gestion des atteintes ORL, le diabète, l'ostéoporose, la transplantation pulmonaire et l'infertilité) et les soins en ville (médecin traitant, kinésithérapeute, infirmier.e.s). La collaboration entre les soins de ville et le CRCM est indispensable pour un suivi optimal. Les patient.e.s sont généralement suivi.e.s de façon trimestrielle dans les CRCM, et réalisent un bilan annuel (incluant par exemple : examen fonctionnel respiratoire, examens bactériologiques, bilan digestif, bilan sanguin, radiographies, scanner, ou échographie, en fonction de l'atteinte du.de la patient.e) (Hubert, 2017). Les patient.e.s peuvent également être hospitalisé.e.s en cas de complications ou de traitements non administrables à domicile.

Sur le plan somatique, la prise en charge se divise en deux parties : la prise en charge symptomatique et les thérapies protéiques (désignées communément par le terme des « modulateurs CFTR », ou « modulateurs ») cherchant à réduire les effets des mutations génétiques.

## **1) Les traitements symptomatiques**

### **a) Prise en charge des troubles respiratoires**

#### **Traitement de fond**

Il est nécessaire pour favoriser l'expectoration du mucus. Ainsi la kinésithérapie est recommandée de façon fréquente, voire quotidienne, pour drainer les bronches. Le ou la kinésithérapeute accompagne les patient.e.s dans ce travail d'expectoration, mais également sur le plan de l'activité physique. En effet, celle-ci doit être quotidienne et l'exercice en général est recommandé pour espacer la survenue d'exacerbations respiratoires, et ralentir la dégradation des capacités respiratoires. Le ou la kinésithérapeute guide ainsi les patient.e.s dans leur gestion de l'effort avec la mise en place d'activité sportive raisonnée (Hubert, 2017; Vaincre la Mucoviscidose, 2023b).

Des traitements inhalés peuvent être prescrits en parallèle, comme des aérosols pour hydrater le mucus et ainsi le fluidifier et favoriser son expectoration. Des bronchodilatateurs peuvent également être prescrits pour les personnes souffrant d'asthme (Grasemann & Ratjen, 2023; Hubert, 2017).

### **L'antibiothérapie**

Elle est indiquée en cas d'exacerbation respiratoire (Hubert, 2017; Vaincre la Mucoviscidose, 2015a). Le ou les antibiotiques sont choisis en fonction des bactéries retrouvées dans les examens d'expectoration. L'administration peut se faire de différentes manières : par voie orale (sirop, comprimés), par aérosols (inhalation d'un médicament), ou par intraveineuse (IV). Lors d'une première infection, le traitement a pour objectif d'éradiquer les germes. En cas de chronicisation de l'infection, comme avec le *Pseudomonas*, l'antibiothérapie a pour objectif de diminuer la quantité de bactéries et de ralentir la dégradation respiratoire. Dans ces cas-là, « l'antibiothérapie par aérosols prend souvent le relais des cures IV. L'intérêt de ce mode de traitement est d'apporter l'antibiotique directement au site de l'infection avec un effet toxique minimum et une réduction des contraintes » (Vaincre la Mucoviscidose, 2015a).

### **Complications respiratoires**

Certaines complications (hémoptysie, pneumothorax) vont demander des interventions en milieu hospitalier voire des interventions chirurgicales (Hubert, 2017). Une hospitalisation, notamment en unité de soins intensifs, est nécessaire en cas d'exacerbation respiratoire sévère ou d'insuffisance respiratoire aiguë.

### **Insuffisance respiratoire chronique sévère**

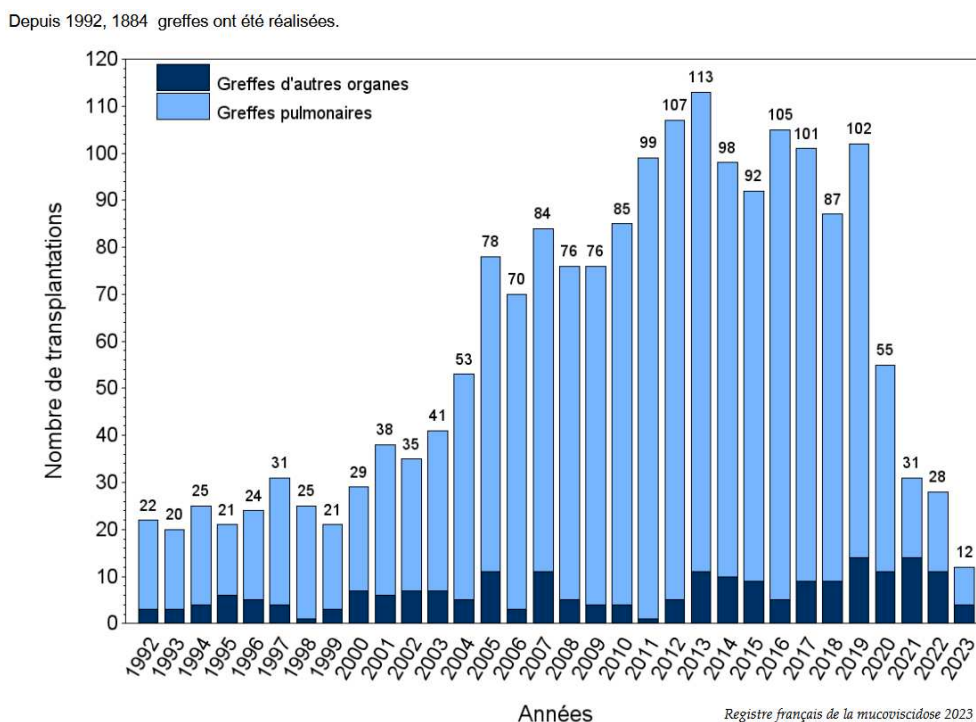
A partir d'un certain stade, évalué par la mesure des gaz dans le sang et la saturation en oxygène, les patient.e.s se voient prescrire une oxygénothérapie. A l'aide d'appareils, ils.elles peuvent ainsi respirer un mélange plus riche en oxygène, en général la nuit ou lorsqu'ils.elles se déplacent (Hubert, 2017).

La transplantation des deux poumons est préconisée pour les personnes souffrant d'une insuffisance respiratoire chronique avancée, notamment quand le VEMS est inférieur à 30%, ou lorsque la dégradation des capacités respiratoires est rapide, ou lorsque les exacerbations pulmonaires se rapprochent et réagissent mal aux antibiothérapies. Une procédure de « super urgence » a été mise en place en France en 2007, pour permettre un accès rapide à un greffon pour les personnes ayant un risque de mort imminente (Hubert, 2017). La mucoviscidose est le motif le plus fréquent de transplantation pulmonaire en France. Suite à la généralisation des modulateurs en 2020, le nombre de transplantations pulmonaires chez des patient.e.s atteint de mucoviscidose a diminué en France (Figure 6.) et dans le monde, et l'âge moyen à la transplantation a augmenté (Grasemann & Ratjen, 2023). En effet, de

nombreux.ses patient.e.s mis sous modulateurs se sont fait.e.s retirer de la liste d'attente de greffe car leur état de santé s'était amélioré.

**Figure 6.**

### *Nombre de transplantations en France depuis 1992*



*Note. Figure issue du Registre français de la mucoviscidose 2023 (Vaincre la Mucoviscidose, 2024a)*

D'autres types de greffe peuvent être préconisées notamment pour les atteintes non respiratoires (foie essentiellement, reins lorsqu'apparaît une insuffisance rénale terminale après plusieurs années sous immunosuppresseurs<sup>19</sup>, parfois pancréas ou îlots pancréatiques au moment de la transplantation pulmonaire). Les greffes peuvent être mono ou multi-organes. (Vaincre la Mucoviscidose, 2024a).

#### **b) Prise en charge digestive.**

Une alimentation de qualité joue un rôle important dans la prise en charge des troubles digestifs de la maladie. En effet, celle-ci doit être variée et riche en calories afin que les patient.e.s puissent avoir environ 120-130% des rations caloriques nécessaires à une personne non malade. Des compléments en vitamines A, D, E et K et en minéraux (zinc, fer notamment)

<sup>19</sup> Immunosuppresseurs : traitements pour éviter les rejets de greffe

doivent également être prescrits. Des compléments en enzymes pancréatiques viennent pallier le dysfonctionnement de la sécrétion du suc pancréatique et améliorer la digestion (Vaincre la Mucoviscidose, 2023c).

Le diabète exige une insulinothérapie, soit via des auto-injections après contrôle de la glycémie, soit avec l'utilisation d'une « pompe à insuline qui assure un débit d'insuline en permanence avec un supplément au moment des repas, ce qui permet une adaptation plus précise des doses » (Vaincre la Mucoviscidose, 2015b). Sa prise en charge est généralement mal vécue par les patient.e.s, notamment car perçue comme une épreuve supplémentaire de la maladie. Pourtant une prise en charge adéquate est un enjeu important pour prévenir les conséquences négatives du diabète sur les fonctions respiratoires, l'hyperglycémie favorisant les infections pulmonaires.

### **c) La douleur**

La mucoviscidose est fréquemment source de douleurs abdominales, thoraciques, dorso-lombaires, articulaires et/ou des maux de tête. Leur prise en charge est importante et conduit les professionnel.le.s à prescrire des antalgiques. La prise en charge de la douleur liée aux soins est également un sujet, et peut-être prise en charge via des patchs de crème anesthésiante ou l'utilisation du MEOPA (gaz diminuant la peur, la douleur et son souvenir) (Vaincre la Mucoviscidose, 2015c).

## **2) Les modulateurs de CFTR**

Les modulateurs sont des molécules prises en comprimés, qui ont pour but d'annuler ou de diminuer les défauts engendrés par les mutations CFTR, et de permettre la synthèse de protéines CFTR fonctionnelles et en quantité suffisante. Il existe actuellement quatre types de modulateurs, présentés dans le Tableau 2, qui agissent à différents moments de la synthèse de la protéine (Figure 7).

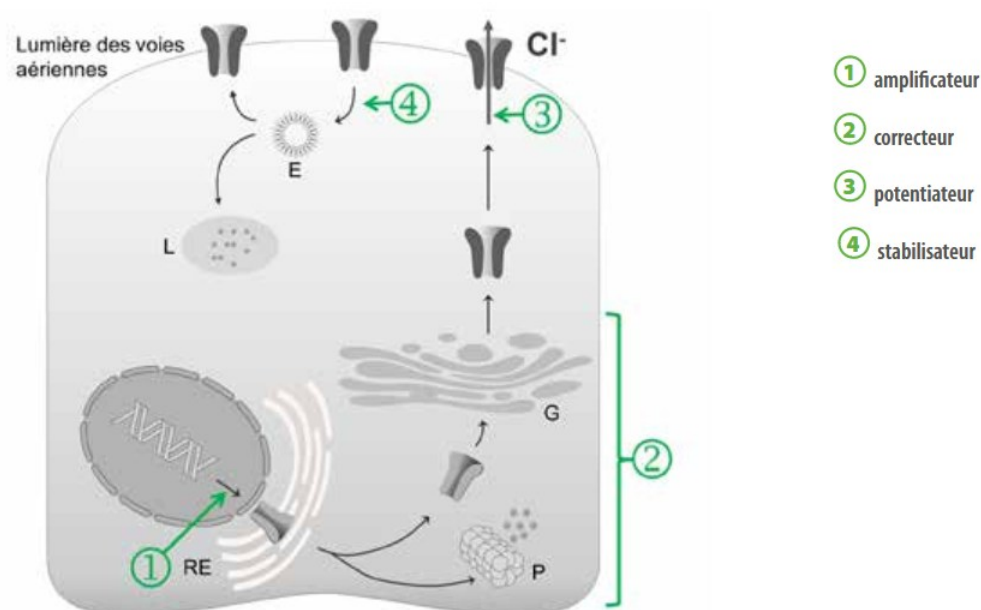
**Tableau 2.**

*Les modulateurs CFTR : types et fonctions*

| Types de modulateur CFTR | Fonction                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                         | Molécules commercialisées           |
|--------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|-------------------------------------|
| Les amplificateurs       | Augmenterait la synthèse de protéines CFTR. (Mutations de classe I)                                                                                                                                                                                                                                                                                                                              | ∅                                   |
| Les correcteurs          | Accompagnent la maturation des protéines CFTR et leur transport intracellulaire jusqu'à la membrane, notamment en « corrigeant » et rendant plus stables les protéines déficientes qui n'auraient normalement pas passé le contrôle de qualité. (Mutations de classe II)<br><br><i>Lorsqu'ils sont associés à un potentiateur, ils augmentent la quantité et l'activité de la protéine CFTR.</i> | Lumacaftor, Tezacaftor, Elexacaftor |
| Les potentiateurs        | Améliorent le fonctionnement de la protéine CFTR positionnées sur la membrane cellulaire. (Mutations de classe III, IV et V).                                                                                                                                                                                                                                                                    | Ivacaftor                           |
| Un stabilisateur         | Aurait pour but de limiter le turn-over des protéines CFTR et/ou d'en faciliter le recyclage. (Mutation de classe VI)                                                                                                                                                                                                                                                                            | ∅                                   |

**Figure 7.**

*Rôles des modulateurs sur la production de la protéine CFTR*



*Note. Image issue de l'article de Lebecque et al., (2019).*

Le premier traitement par modulateurs (Ivacaftor, Kalydeco®), utilisé en France depuis 2012, était à destination des personnes porteuses de mutation « gating » (classe III). Les patient.e.s porteur.se.s de mutations homozygotes F508del ont pu bénéficier du 2<sup>ème</sup> traitement (Lumacaftor/Ivacaftor, Orkambi®) commercialisé en 2016 (Vaincre la Mucoviscidose, s. d.). En lien avec les limites de la classification des mutations, les molécules actuellement disponibles ne marchent pas de la même façon pour différentes mutations (même celles de même classe) (Goetz & Savant, 2021; Lebecque et al., 2019). C’est notamment pour cela qu’elles sont utilisées seules ou en association les unes avec les autres, en fonction des types de mutation. Aujourd’hui quatre traitements sont proposés. Leur nom et utilisation sont présentés dans le Tableau 3 (Goetz & Savant, 2021; Vaincre la Mucoviscidose, 2023a).

**Tableau 3.**

*Traitements actuels par modulateurs*

| Nom du traitement | Molécule(s)                      | Mutations CFTR pour lesquelles le traitement fonctionne et est approuvé | Age minimum de prescription |
|-------------------|----------------------------------|-------------------------------------------------------------------------|-----------------------------|
| <b>Kalydeco®</b>  | ivacaftor                        | Mutations « gating » et autres mutations réactives                      | 4 mois                      |
| <b>Orkambi®</b>   | Lumacaftor/ivacaftor             | Mutations homozygotes F508del                                           | 1 ans                       |
| <b>Symkevi®</b>   | Tezacaftor/ivacaftor             | Mutations homozygotes F508del et autres mutations réactives             | 6 ans                       |
| <b>Kaftrio®</b>   | Elexacaftor/Tezacaftor/ivacaftor | Au moins une mutation F508del<br>Autres mutations réactives             | 2 ans                       |
|                   |                                  | Cadre de prescription compassionnelle                                   | 6 ans                       |

*Note. En vert : les deux traitements reconnus comme hautement efficaces.*

*En bleu : les traitements reconnus comme modérément efficaces*

L’arrivée du dernier traitement (Kaftrio®) a révolutionné la vie de nombreux.se.s patient.e.s car il est recommandé notamment pour tou.te.s les porteur.se.s d’une mutation F508del. Avec Kalydeco®, ils ont été reconnus comme des traitements hautement efficaces (Goetz & Savant, 2021; Vaincre la Mucoviscidose, 2023a). De nombreuses recherches se poursuivent pour développer de nouvelles molécules, et des essais cliniques sont en cours pour mieux comprendre les effets des traitements et étudier la possibilité de diminuer l’âge d’administration.

#### a) Effets cliniques des modulateurs

Les modulateurs ont des effets cliniques à différents niveaux et d'intensités différentes en fonction des génotypes et de facteurs individuels (Goetz & Savant, 2021; Grasemann & Ratjen, 2023). De façon très générale, les études ont montré :

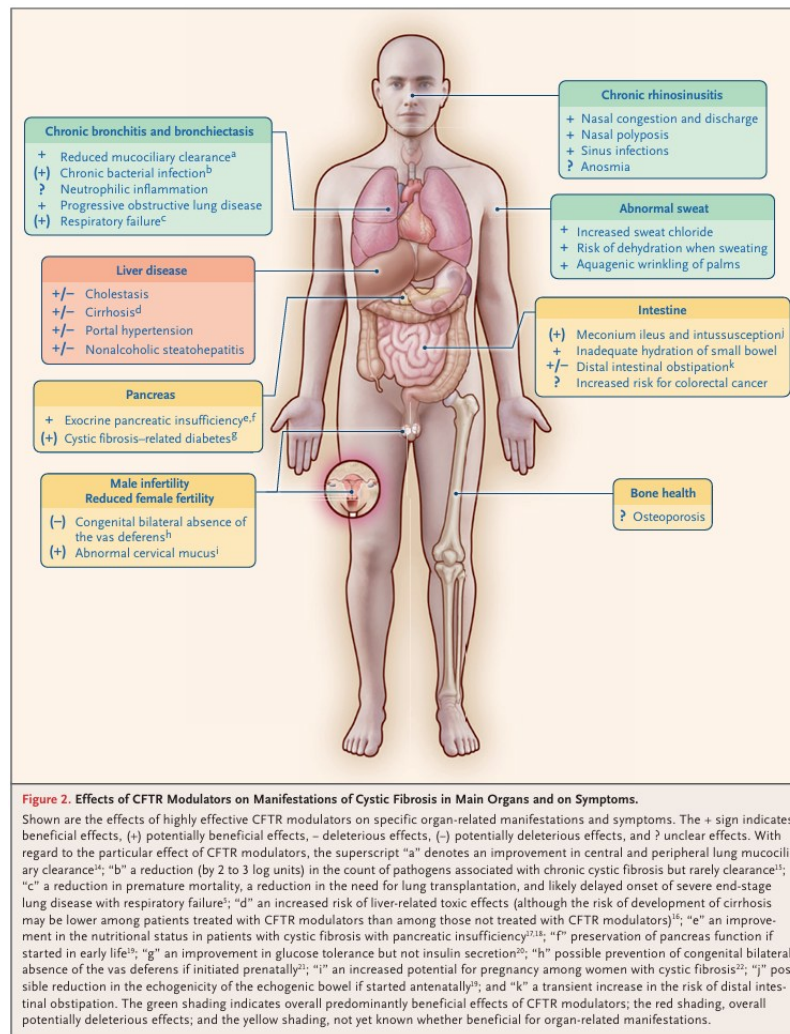
- Des améliorations du VEMS ou un ralentissement de la dégradation de la fonction respiratoire et moins d'exacerbations pulmonaires
- Une diminution des cures antibiotiques intraveineuses
- Une augmentation de l'indice de masse corporelle et des améliorations de croissance
- Une diminution du chlore dans la sueur
- Une amélioration de la fertilité féminine

La destruction irréversible des tissus pancréatiques commençant *in utéro*, les modulateurs n'ont un effet sur l'IPE que lorsqu'ils sont pris chez l'enfant et le plus tôt possible (Goetz & Savant, 2021). Cependant, les fonctions pancréatiques exocrines semblent tout de même pouvoir être améliorées, même si le traitement est pris chez des enfants plus âgés. L'impact sur la tolérance au glucose reste pour l'instant flou, de même que l'impact au niveau intestinal.

La figure de Graseman et Ratjen (2023) résume plus précisément les différents impacts des modulateurs sur l'ensemble des fonctions touchées par la mucoviscidose (Figure 8). Leur figure permet de constater l'amélioration de nombreuses fonctions, le peu ou l'absence d'impact sur certaines et de l'impact délétère pour d'autres. Elle montre également que l'impact sur certains organes n'a pas encore pu être apprécié.

**Figure 8.**

*Effet des modulateurs CFTR sur les différentes manifestations cliniques de la mucoviscidose.*



*Note. Figure issue de l'article de Grasemen et Ratjen (2023)*

Si des études longitudinales faites sur les patient.e.s des registres anglais et américains montrent, entre autres, une diminution stable du risque de mortalité et de transplantation pulmonaire chez les patient.e.s sous Kalydeco® sur les 5 années d'analyses (Goetz & Savant, 2021), nous avons, de façon générale, encore peu de recul sur l'impact à long terme des derniers traitements (Goetz & Savant, 2021; Grasemann & Ratjen, 2023).

## **b) Limites et effets secondaires**

Plusieurs effets secondaires ont été rapportés et peuvent être à l'origine d'une prise discontinue ou de l'arrêt du traitement (Goetz & Savant, 2021; Grasemann & Ratjen, 2023). Tous modulateurs confondus, les effets secondaires rapportés chez plus de 10% des patient.e.s

sont des démangeaisons, des douleurs abdominales, des nausées et vomissements, une augmentation de la toux ou des sensations d'oppression thoracique, une diminution du VEMS. L'Orkambi® entraîne plus fréquemment des effets secondaires sur le plan respiratoire que les autres modulateurs (Goetz & Savant, 2021; Grasemann & Ratjen, 2023), et le Kaftrio® aurait parfois un impact délétère en termes de santé mentale pour certain.e.s patient.e.s (Blaisonneau et al., 2024), sans toutefois empirer les symptômes préexistants. Les effets secondaires sont peuvent être dus à des interactions entre les modulateurs et d'autres médicaments pris par les patient.e.s. Des adaptations individuelles des dosages permettent de réguler en partie les effets indésirables (Grasemann & Ratjen, 2023). Les patient.e.s présentant des effets secondaires trop invalidants en comparaison des bénéfices apportés, arrêtent leur traitement par modulateurs.

Graseman et Ratjen (2023) relèvent également le manque de compréhension concernant les effets des modulateurs sur les infections pulmonaires et les agents pathogènes qui en sont responsables. En effet, avec l'amélioration symptomatique due aux modulateurs, les patient.e.s ne sont souvent pas ou plus en mesure de fournir des crachats pour la surveillance bactérienne (Grasemann & Ratjen, 2023; Vaincre la Mucoviscidose, 2024a). En parallèle, il y a actuellement un manque de recul sur l'impact d'un arrêt des traitements symptomatiques (notamment traitement de fond) pour les patient.e.s sous modulateurs.

Les modulateurs sont des traitements très onéreux et pour l'instant aucune étude n'a permis de constater que leur utilisation permettait de diminuer les couts de santé pour les patient.e.s. Cependant, comme le précisent Goetz et Savant « au vu de leur prix exorbitant, il n'y aura peut-être jamais assez d'évidences pour démontrer un bénéfice financier des modulateurs CFTR ; cependant, le bénéfice clinique des modulateurs hautement efficaces est évident » (2021, p. 3603).

Néanmoins, la recherche sur les modulateurs a encore de beaux jours devant elle. En effet les modulateurs actuels ne couvrent pas encore tous les besoins, puisque de nombreux.ses patient.e.s y sont encore éligibles (mutations non compatibles, pas de molécule avec effet sur les mutations de classe I, patient.e.s greffé.e.s), certain.e.s ne répondent pas aux traitements et d'autres ont trop d'effets indésirables pour maintenir le traitement (Grasemann & Ratjen, 2023; Vaincre la Mucoviscidose, 2024a).

### **3) Education thérapeutique et prise en charge psychologique**

#### **a) Education thérapeutique**

Pour un meilleur accompagnement et pour favoriser l'autonomisation des patient.e.s, l'éducation thérapeutique des patient.e.s (ETP) est fondamentale. Cela est d'autant plus le cas avec la mucoviscidose qui a de multiples facettes et demande souvent aux patient.e.s de combiner plusieurs traitements. Un groupe de coordination national, le GETHEM (Groupe Education THERapeutique et Mucoviscidose) créé en 2006, coordonne l'élaboration et la mise à disposition d'outils d'éducation thérapeutique à destination des patient.e.s et/ou des parents de patient.e.s sur l'ensemble des thématiques liées à la maladie. Le GETHEM est constitué de patient.e.s, de parents de patient.e.s et de professionnel.le.s (GETHEM, 2024). Il comprend actuellement plusieurs groupes de travail : « Adolescence et transition », « Transplantés : stress et transplantation », « Modulateurs et nutrition » et « Désir d'enfant, grossesse et parentalité ». Il sollicite différents acteur.rice.s pour développer des outils en lien avec les besoins des patient.e.s et de leur famille, et avec les avancées autour de la maladie. Nous avons notamment été sollicitées plusieurs fois au cours de notre recherche pour contribuer à la réflexion sur l'accompagnement de la parentalité des patient.e.s.

#### **b) Prise en charge psychologique**

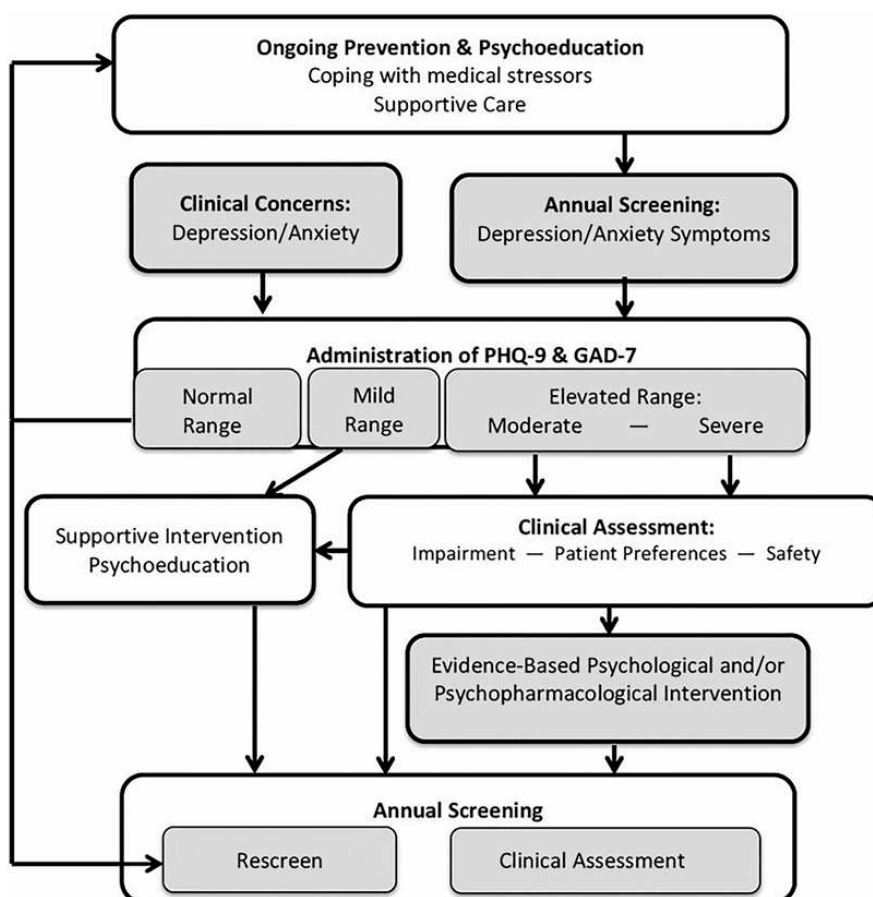
Un suivi psychologique, ou des entretiens de soutien psychologique peuvent être proposés au sein des CRCM, dans lesquels travaille au moins un.e psychologue. Une orientation en libéral peut également être proposée à la place ou en complément du suivi au CRCM. Un suivi psychiatrique en institution ou en libéral peut également être recommandé.

La question de la santé mentale chez les patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose a fait l'objet d'un travail de réflexion international entre l'European Cystic Fibrosis Society (ECFS) et la Cystic Fibrosis Foundation (CFF) états-unienne. Un comité de travail, dédié à cette question, a réfléchi à une standardisation du dépistage de l'anxiété et la dépression pour les patient.e.s adolescent.e.s et adultes (Quittner et al., 2016). En effet, différents questionnaires étaient utilisés en fonction des pays, voire des centres de soins. Le comité a ainsi recommandé l'usage de deux questionnaires, choisis pour : leur fiabilité et validité psychométrique, la précision de leurs seuils de détection des symptômes et le fait que ces seuils soient en lien avec les critères diagnostiques du DSM-5 (Statistical Manual of Mental Disorders, 5th Edition), la rapidité de passation des questionnaires et leur disponibilité dans de nombreuses langues. Les centres de

soins utilisent aujourd'hui le Patient Health Questionnaire 9 (PHQ-9) pour mesurer l'état dépressif des patient.e.s, qui inclut notamment un item d'évaluation du risque suicidaire, et le Generalised Anxiety Disort 7-item (GAD-7) pour évaluer l'anxiété. Le comité recommande l'utilisation des questionnaires dans le cadre de dépistages annuels systématiques, et en cas de suspicion de troubles anxiodépressifs. Il préconise leur administration par des professionnels de santé mentale lorsque cela est possible. Le comité a également développé des recommandations d'accompagnement des patient.e.s en fonction de leur niveau de difficultés, comme l'illustre leur modèle en Figure 9.

**Figure 9.**

*Un modèle flexible et par étape pour le dépistage et le traitement de la dépression et de l'anxiété.*



*Note. Figure issue de l'article de Quittner et al., (2016).*

Le comité a également élaboré des modèles plus précis sur la prise en charge des patient.e.s ou aidant.e.s présentant des scores combinés moyens de dépression et d'anxiété, ou ayant des scores élevés de dépression seule ou d'anxiété seule (Quittner et al., 2016). Ils y

évoquent notamment l'utilisation de thérapies cognitivo-comportementales, le référencement à des spécialistes en santé mentale, la prise d'antidépresseurs adaptés aux personnes atteint.e.s de mucoviscidose.

L'implémentation de ces outils semblent porter ses fruits pour améliorer la prise en compte et prise en charge des difficultés psychologiques, même si elle a encore ses limites, notamment dans les pays où la présence de psychologues n'est pas systématique dans les centres de soin (Quittner et al., 2020). Le comité de travail déplore également que les données en santé mentale issues de ce dépistage ne soient, pour le moment, pas prises en compte dans les registres nationaux.

#### **4) Conclusion**

La création des CRCM (et leurs équivalents dans les autres pays) est responsable de l'augmentation drastique de l'espérance de vie des patient.e.s et de l'amélioration significative de l'état clinique (notamment des capacités respiratoires) de très nombreux.ses patient.e.s sur les 20 ans dernières années (Burgel et al., 2023). Avec le vieillissement actuel de la population des patient.e.s, les enjeux sont d'arriver à prendre en charge des manifestations cliniques de plus en plus variées, auxquelles s'ajoutent les comorbidités liées à l'âge. Ils doivent de plus anticiper l'augmentation du nombre d'adultes à prendre en charge. En effet, la généralisation des modulateurs et leur impact impressionnant sur l'espérance de vie, risque de mettre ces centres sous tension. L'offre de soin va obligatoirement devoir se renforcer, au risque sinon, de ne plus pouvoir accompagner correctement tou.te.s les patient.e.s (Burgel et al., 2023).

## **VI. Historique condensé**

La mucoviscidose est une maladie complexe, dont la compréhension et la prise en charge ont pu s'améliorer grâce aux avancées scientifiques internationales (comme la découverte du gène CFTR, le développement des modulateurs), mais grâce à des facteurs sociétaux, comme en France la prise en charge à 100% par la sécurité sociale, le lobbying associatif et la célébrité d'un patient. Les événements majeurs ont été répertoriés dans le Tableau 4. Afin de contextualiser notre recherche, nous avons indiqué dans ce tableau les débuts de nos deux études.

**Tableau 4.**

*Chronologie des grandes avancées dans la connaissance et les traitements de la maladie, de la prise en charge et des événements marquants en France, début de nos études.*

| Année         | Événements                                                                                                                                                                                   |
|---------------|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| 1936          | Catégorisation comme pathologie à part entière                                                                                                                                               |
| 1965          | Création de l'Association Française de Lutte contre la Mucoviscidose (AFLM)                                                                                                                  |
| 1997          | Prise en charge à 100% par la Sécurité Sociale                                                                                                                                               |
| 1989          | Découverte du gène de la mucoviscidose<br>Première transplantation pulmonaire                                                                                                                |
| 1992          | Création de l'Observatoire National de la Mucoviscidose (ONM), qui devient en 2007, le Registre Français de la Mucoviscidose (dont sont issues toutes les données des patient.e.s en France) |
| 1994          | Thérapie génique pour la mucoviscidose : premiers essais humains                                                                                                                             |
| 2001          | L'AFLM devient Vaincre la Mucoviscidose (VLM)<br>Reconnaissance des CRCM comme lieux dédiés à la prise en charge de la mucoviscidose                                                         |
| 2002          | Mise en place du dépistage néonatal de la mucoviscidose                                                                                                                                      |
| 2004          | Grégory Lemarchal, atteint de mucoviscidose, remporte la Star Academy : coup de projecteur national sur la maladie                                                                           |
| 2007          | Mort de Grégory Lemarchal à 23 ans<br>Création de l'Association Grégory Lemarchal par ses parents                                                                                            |
| 2012          | Premier traitement modulateur qui agit sur la cause de la maladie (Kalydeco®)                                                                                                                |
| 2011          | Lancement d'un Plan d'Actions Prioritaires de l'association VLM pour 2011-2015, afin de récolter des financements de Missions d'intérêt général (12 millions d'euros en 2011, 19 en 2015)    |
| 2014          | 30 <sup>ème</sup> édition annuelle des Virades de l'espoir par l'association VLM (collecte de dons nationale ayant permis de récolter 106 millions d'euros depuis sa création)               |
| 2015          | Deuxième traitement modulateur qui agit sur la cause de la maladie (Orkambi®)                                                                                                                |
| 2019          | Début de notre recherche sur la parentalité (volet MucoPar), financée par l'Association Grégory Lemarchal                                                                                    |
| Décembre 2019 | Début de l'utilisation de Kaftrio® dans un cadre compassionnel pour les patients sévères                                                                                                     |
| 2021          | Accord de remboursement en France pour Kaftrio®, nouveau modulateur de CFTR beaucoup plus efficace, grâce notamment au lobbying des deux associations auprès des pouvoirs publics.           |
| 2021          | Début de la deuxième étude de notre recherche sur la parentalité (volet MucoKids), financée par l'Association Grégory Lemarchal                                                              |
| 2022          | Accès à Kaftrio® à partir de 6 ans, pour les patient.e.s atteint.e.s de la mutation F508del                                                                                                  |

*Note. En rouge les événements internationaux, en bleu les événements nationaux, en vert le début de nos études.*

### En résumé :

La mucoviscidose est une maladie autosomique récessive qui touche environ 8000 personnes en France, dont plus de la moitié sont aujourd'hui adultes.

La maladie est due à des mutations du gène CFTR qui code pour la protéine CFTR responsable de la production de mucus dans les différents systèmes de notre organisme (respiratoire, ORL, digestif, génital). Il existe 6 classes de mutations qui entraînent différents problèmes au niveau de la protéine CFTR (absence, immaturité, nombre insuffisant ou instabilité), et différents symptômes. De façon générale, le mucus est trop visqueux et peu mobile. Il bouche les canaux qu'il emprunte et favorise la prolifération bactérienne dans les bronches. L'atteinte principale est essentiellement pulmonaire, et les troubles respiratoires font la gravité de la maladie en engageant le pronostic vital. L'atteinte digestive et métabolique (pancréatique, cirrhose, diabète) peut entraîner de nombreuses complications au quotidien, des douleurs importantes, voire des complications engageant également le pronostic vital.

La prise en charge consiste en des traitements de fond, notamment pour maintenir le meilleur état respiratoire possible, et administrés en fonction des atteintes du patient (antibiothérapie, kinésithérapie, insulinothérapie, complémentation alimentaire etc.). A ceux-ci peuvent être associés les modulateurs CFTR qui interviennent directement sur les causes de la maladie et ont récemment permis une grande amélioration de l'état de santé et de la qualité de vie de nombreux patients. Malheureusement certains patients les tolèrent mal et d'autres présentent des mutations non compatibles avec les molécules existantes. Une greffe pulmonaire est proposée en cas d'insuffisance respiratoire sévère. L'éducation thérapeutique joue un rôle important dans ces prises en charge complexes et un accompagnement psychologique peut également être proposé.

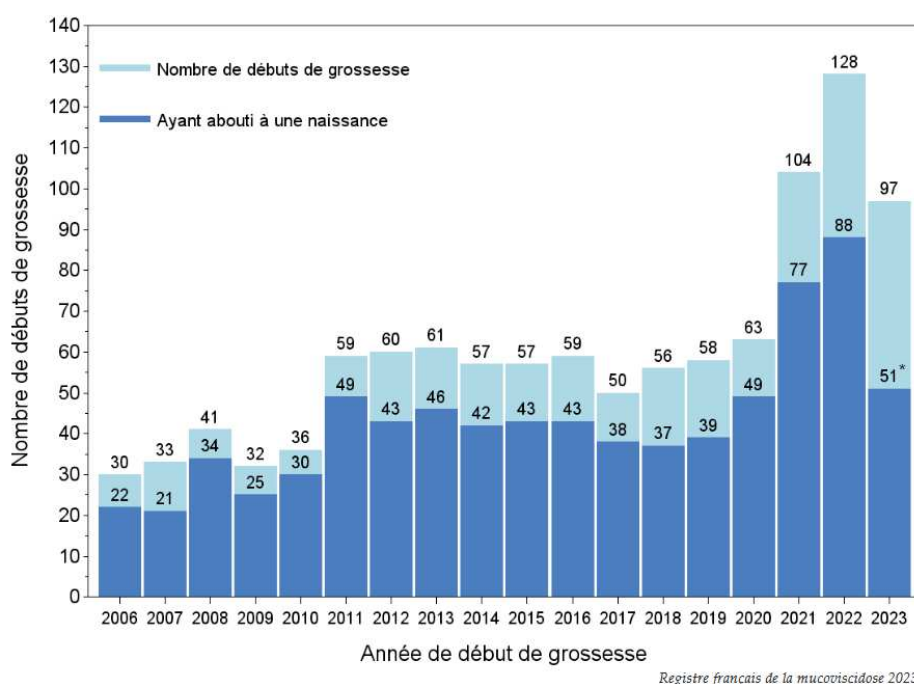
Au niveau national il existe une grande mobilisation associative qui a notamment contribué à l'organisation des soins au sein des CRCM, améliorant nettement la prise en charge des patients, et a permis d'accélérer les accords de remboursements des modulateurs et à financer de nombreuses recherches, dont la nôtre.

## B. Mucoviscidose et accès à la parentalité

Grâce à l'amélioration des traitements et leurs impacts positifs sur la qualité de vie et l'espérance de vie, de plus en plus de patient.e.s tendent à une normalisation de leur vie et souhaitent notamment devenir parents. Par exemple, en 2018, 78% des adolescentes et jeunes femmes américaines en exprimaient le souhait (Kazmerski et al., 2018). En France, le registre recensait 1426 patient.e.s majeur.e.s parents d'au moins un enfant, soit 29% des patient.e.s majeur.e.s. (Vaincre la Mucoviscidose, 2024a)<sup>20</sup>. Plus précisément, la parentalité concerne 34% des patientes majeures et 24% des patients majeurs. Depuis 2011, le nombre de grossesses chez les patientes a sensiblement augmenté dans notre pays (Figure 10).

**Figure 10.**

*Nombre de débuts de grossesse et de naissances depuis 2006.*



\* Certaines issues de grossesses n'étaient pas connues au moment du recueil des données. Les chiffres donnés pour 2023 sont donc présentés à titre informatif et ne doivent pas être considérés comme définitifs.

*Note. Figure issue du Registre français de la mucoviscidose 2023 (Vaincre la Mucoviscidose, 2024a)*

En France et dans d'autres pays, on observe une nouvelle augmentation importante en 2021-2022, mise en lien avec la généralisation des modulateurs et leurs effets positifs sur la

<sup>20</sup> Données non publiées, recueillies sur demande auprès de l'équipe du Registre.

fertilité féminine (Cystic Fibrosis Foundation, 2024; Vaincre la Mucoviscidose, 2024a). Sans que les raisons précises n'aient encore été identifiées, les professionnel.le.s, postulent que la glaire cervicale serait plus propice au passage des spermatozoïdes et que les meilleures conditions physiques générales des patientes sous modulateurs favoriseraient les grossesses (Jain, Kazmerski, et al., 2022; O'Connor et al., 2021). Cette question est devenue importante dans les centres de soin, qui prêtent depuis plus d'attention à la question de la contraception chez les patientes sous Kaftrio®, afin d'éviter les grossesses non désirées.

En France en 2023, l'âge moyen des patientes au 31 décembre de l'année de début de grossesse est de 30,6 ans. Chaque année, quelques femmes transplantées pulmonaires débutent une grossesse (entre 1 et 11 chaque année sur les 10 dernières années).

De façon moins marquée, le nombre de paternités semble également augmenter à l'international, bien que les modulateurs n'aient pas d'effet sur la stérilité des hommes déjà nés (Jain et al., 2023). En France, le nombre de paternités<sup>21</sup> dans l'année est relativement stable et varie entre 25 et 33 entre 2018 et 2023. Sur cette période, le registre français de la mucoviscidose a recensé un père ayant adopté et chaque année 3 pères ayant eu des enfants de façon naturelle. Les autres paternités recensées ont été obtenues grâce à l'Assistance Médicale à la Procréation (AMP) le plus souvent sans don de sperme (Vaincre la Mucoviscidose, 2019, 2020, 2021, 2022, 2023d, 2024a). Ainsi, en 2023, 28 paternités ont été recensées en France, dont 3 chez des greffés pulmonaires (11%) et 77% grâce à l'AMP, dont une paternité grâce à un don de sperme.

Chez les patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose la décision d'avoir un enfant est souvent mûrie suite à la confrontation entre le désir d'enfant et le niveau d'atteinte de la personne, ses troubles de fertilité, la question de la transmission et du dépistage génétique des conjoint.e.s et les recommandations des professionnel.le.s, autant de facteurs qui peuvent impacter la façon d'accéder à la parentalité (Haines & Middleton, 2022; Kazmerski et al., 2021; König & and Reinsch, 2024; Milo & Tabarini, 2022; Vanhollebeke & Van Steijvoort, 2025). Une étude européenne a d'ailleurs montré que les femmes atteintes de mucoviscidose prenaient bien en plus en compte ces aspects dans leur réflexion sur un projet de parentalité que les femmes atteintes d'autres pathologies respiratoires (Haines & Middleton, 2022). Une revue systématique de littérature sur la grossesse des patientes atteintes de mucoviscidose,

---

<sup>21</sup> Le Registre ne précise pas si les pères sont primipares ou non. Sans que cela soit explicite, le terme « paternités » semble y désigner le nombre de pères ayant eu un enfant dans l'année. Il n'est pas précisé si les pères ont eu un ou plusieurs enfants comme cela pourrait être le cas avec une grossesse gémellaire.

rassemble les facteurs pris en compte dans la décision des femmes en deux catégories : les barrières à la grossesse ou au projet (âge de la mère et période dans sa vie, génétique du partenaire, risques de santé pour la mère et le bébé, pour et contre du projet en termes de santé physique et mentale et d'impact financier) et l'environnement social (pression de la famille et du partenaire, envie de renforcer des liens familiaux etc.) (Milo & Tabarini, 2022). Une revue systématique, dédiée à la question de la prise de décision des patient.e.s, organise la question un peu différemment et rapporte d'autres facteurs comme : un désir d'accéder à une forme de normalité, l'impact possible sur l'enfant, la notion de ce qu'est être un bon parent, la façon dont sont impliqués les personnes sur qui peut s'appuyer socialement le patient.e (Vanhollebeke & Van Steijvoort, 2025). Les patient.e.s sont amené.e.s à questionner leur désir en lien avec les différents éléments rapportés et à questionner leur responsabilité à mettre au monde un enfant qui aurait un parent malade. Cette réflexion les confronte à plusieurs dilemmes et au besoin d'avoir un couple solide notamment dans sa capacité à collaborer. Cette revue insiste sur l'importance de continuer à accompagner les patient.e.s et leurs partenaires dans leur choix reproductifs. Pour accompagner tous les questionnements des patient.e.s ayant un projet de parentalité, les associations anglaise et belge ont chacune développé un livret détaillant les points à prendre en compte en amont du projet, les différentes options d'accès à la parentalité et comment le parcours pouvait se dérouler (Association Muco, s. d.; Cystic Fibrosis Trust, 2016). Récemment, les équipes américaines ont également développé un outil en ligne à destination de tou.te.s les patient.e.s en âge de procréer, pour faciliter la discussion et la prise de décision concernant un projet d'enfant (Kazmerski et al., 2024).

Les taux de stérilité et d'hypofertilité étant bien plus élevés que ceux de la population générale, les patient.e.s ont régulièrement recours à l'AMP pour avoir des enfants (Haines & Middleton, 2022; Jain, Kazmerski, et al., 2022; Kazmerski et al., 2019). Des différences de fertilités existent au sein même de la population de patient.e.s, les hommes étant presque tous stériles et certaines femmes ayant des facteurs de risques supplémentaires (diabète notamment) (Haines & Middleton, 2022). La grossesse chez les patientes atteintes de mucoviscidose est parfois déconseillée, notamment chez celles ayant de mauvaises capacités respiratoires. Elle est, dans tous les cas, surveillée et prise en charge comme une grossesse à risque (Kazmerski et al., 2021). L'adoption peut également être une option lorsque l'AMP est infructueuse ou pour les femmes présentant une contre-indication à être enceinte. Afin de mieux comprendre le parcours d'accès à la parentalité des patient.e.s, ce chapitre décrit en

quoi consiste ces options, et présente les particularités des grossesses chez les femmes atteintes de mucoviscidose.

## **I. Fertilité et procréation médicalement assistée**

Différentes options d'AMP sont proposées aux patient.e.s infertiles ou stériles. Elles vont dépendre des problématiques de chacun.e et de la génétique du partenaire.

En effet, lorsqu'un.e patient.e souhaite concevoir biologiquement, son ou sa partenaire est invité.e à faire des tests génétiques, pour voir s'il.elle est porteur.se d'une mutation sur le gène CFTR. Pour les couples avec un.e patient.e et un.e porteur.se sain.e, une AMP avec sélection embryonnaire est proposée (recommandée mais non obligatoire) (Association Muco, 2025; Cystic Fibrosis Trust, 2016). Ainsi, la mucoviscidose fait partie des maladies génétiques graves pour lesquelles la loi de bioéthique française autorise de procéder à un diagnostic pré-implantatoire (DPI) d'un embryon obtenu par Fécondation In-Vitro (FIV) (Francos Pérez et al., 2021). Pour cette maladie, les embryons porteurs sains ou non porteurs peuvent être implantés, ne sont « éliminés » que les embryons porteurs de deux mutations CFTR.

Les techniques d'AMP classiquement proposées aux femmes atteintes de mucoviscidose, sont les FIV et les inséminations intra-utérines (IIU).

La FIV permet la rencontre des gamètes et la fécondation de l'ovule en dehors du corps de la femme, dans une boîte de culture biologique (Ameli.fr, 2025b; Jain, Kazmerski, et al., 2022). Les ovules sont collectés après une stimulation hormonale des ovaires pour favoriser la croissance des follicules ovariens (futurs ovules). Les ovules peuvent provenir directement de la femme qui souhaite être enceinte, ou être issus d'un don d'ovocytes. Les follicules matures sont collectés lors d'une ponction effectuée par le vagin, sous anesthésie locale ou générale. Ils sont ensuite mis en contact avec le sperme du partenaire ou d'un donneur, pour qu'un spermatozoïde puisse féconder l'ovule. Deux ou trois jours après la fécondation, l'embryon qui s'est alors développé, est implanté dans l'utérus de la femme. Les embryons viables non implantés peuvent être congelés pour une implantation ultérieure.

L'IIU permet de libérer du sperme directement dans l'utérus de la femme via un cathéter, évitant ainsi les difficultés de passage au travers de la glaire cervicale trop épaisse et visqueuse responsable, entre autres, des difficultés de fécondation (Jain, Kazmerski, et al., 2022). L'IIU peut être proposée avec ou sans stimulation ovarienne en amont. Elle s'accompagne en revanche de risques infectieux pour les patientes.

Les taux de réussite de l'AMP chez les patientes atteintes de mucoviscidose se situent entre 20 et 40% pour les FIV, et 5 à 25% pour les IIU (Jain, Kazmerski, et al., 2022). Toutes techniques confondues, le taux de réussite (grossesse débouchant sur une naissance) est de 46-47% pour les patientes de moins de 35 ans (Kazmerski et al., 2021). Ainsi les patientes passent souvent par plusieurs cycles d'AMP avant d'arriver à avoir un enfant.

Pour les hommes, des FIV avec Injections Intracytoplasmique de Spermatozoïdes (ICSI) sont généralement proposées (Kazmerski et al., 2021). A la différence d'une FIV classique où plusieurs spermatozoïdes sont mis en contact avec l'ovule et la fécondation se fait d'elle-même, l'ICSI est une technique de fécondation directe de l'ovule (Ameli.fr, 2025b). Un spermatozoïde est sélectionné (notamment sur des critères de motilité et de forme pour favoriser les gamètes de meilleure qualité), et est ensuite directement implanté dans un ovule (Ameli.fr, 2025b; Fiv.fr, 2013). L'ICSI est une solution à la stérilité des hommes dont les gamètes sont peu nombreux et de moins bonne qualité, comme c'est souvent le cas chez les patients atteints de mucoviscidose. Les spermatozoïdes ne pouvant être obtenus de façon classique par la masturbation, ils sont prélevés directement au niveau de l'épididyme<sup>22</sup> ou des testicules grâce à une intervention chirurgicale (Fiv.fr, 2013; Kazmerski et al., 2021). Avant le développement de cette technique, les patients avaient plus fréquemment recours à des dons de sperme. Le taux de réussite des FIV pour les couples avec un père atteint de mucoviscidose est similaire à celui de la population générale et se rapproche de 50% (Kazmerski et al., 2021). Il y a en revanche un risque plus élevé de fausse-couche que dans la population générale. Aujourd'hui la technique de l'ICSI évolue grâce à des microscopes plus puissants qui permettent de faire une sélection plus précise des spermatozoïdes, pour favoriser les plus robustes et les plus à même de générer un embryon viable (Fiv.fr, 2013).

En France l'AMP est remboursée à 100% par l'Assurance Maladie pour un certain nombre de procédures pour les couples hétérosexuels, les couples de femmes, ou pour les femmes seules (Ameli.fr, 2023b). Le nombre maximal de procédures remboursées est fixé à pour six FIV et quatre IIU pour obtenir une grossesse. C'est-à-dire que si une grossesse débute après une ou des procédures, le couple ou la femme pourra de nouveau bénéficier du même nombre de procédures remboursées pour une deuxième grossesse, et ce même si la première grossesse n'a pas abouti à une naissance. Le prélèvement de gamètes doit avoir lieu avant le 43<sup>ème</sup> anniversaire de la femme et le 60<sup>ème</sup> de l'homme. L'AMP peut être réalisée jusqu'au 45<sup>ème</sup>

---

<sup>22</sup> Epididyme : canal enroulé sur le haut du testicule, où sont stockés les spermatozoïdes.

anniversaire de la femme et le 60<sup>ème</sup> de l'homme. Une participation financière à l'AMP réalisée à l'étranger est également proposée par l'Assurance Maladie.

Dans d'autres pays, l'AMP peut être totalement payante et très onéreuse comme aux Etats-Unis ou au Canada, n'être remboursée qu'en partie ou pour moins de tentatives comme en Angleterre où il existe même des différences entre les provinces du pays (Connolly et al., 2010; Human Fertilisation & Embryology Authority, s. d.). Cela représente bien entendu un frein non négligeable à l'accès à la parentalité pour certain.e.s patient.e.s.

Enfin, dans les pays où la loi l'autorise, les patient.e.s et leurs partenaires peuvent également avoir des enfants via une Gestation Par Autrui (GPA), soit en utilisant leurs gamètes, soit en faisant appel à des dons (Kazmerski et al., 2021). Cette option est actuellement interdite en France et n'a pas été remise en cause lors de la révision de la loi de bioéthique en 2021 (Vie publique, 2024). En revanche la loi s'est un peu assouplie pour permettre, dans certaines conditions précises, la reconnaissance des liens entre parents et enfants nés d'une GPA réalisée à l'étranger.

## **1) Grossesses et accouchements**

Il n'y a pas encore si longtemps, les professionnel.le.s de santé avaient plutôt tendance à décourager les patientes qui souhaitaient être enceintes, en lien avec les études qui relevaient les différents risques de la grossesse chez les femmes atteintes de mucoviscidose (Fijean et al., 2020; Kazmerski et al., 2021). Cependant, avec l'amélioration de l'âge moyen de survie, de plus en plus de patientes ont décidé d'être enceintes, et les études ont par la suite montré que la grossesse ne diminuait pas leur taux de survie (Haines & Middleton, 2022; Kazmerski et al., 2021). En France, une étude de 2016 a montré que pour les patientes prises en charge par une équipe pluridisciplinaire, les conséquences maternelles de la grossesse étaient similaires à celles de la population générale, hormis la présence de symptômes préexistants (IMC réduit, diabète) (Girault et al., 2016). De plus, les études ont montré que les patientes qui vivaient une ou des grossesses étaient généralement des patientes initialement en meilleure santé que celles qui n'avaient pas de grossesses (Kazmerski et al., 2021).

Certains impacts de la mucoviscidose sur le déroulé de la grossesse ont été bien documentés dans la période pré-modulateurs. Ainsi, les études ont relevé 2,5 fois plus de risques de développer un diabète gestationnel que pour les femmes de la population générale, même chez les patientes non diabétiques avant la grossesse, avec un risque augmenté pour

les patientes homozygotes pour la mutation F508del (Fijean et al., 2020). Un taux de prématurité (naissance avant 37 semaines d'aménorrhée) supérieur à celui de la population générale a également été observé chez les patientes, l'accouchement prématuré étant généralement déclenché en lien avec une dégradation de l'état maternel plutôt que pour une souffrance fœtale. A ce sujet, les chiffres apparaissent très variables d'une cohorte à l'autre (Fijean et al., 2020), et les patientes françaises par exemple, ne présenteraient pas plus de risques d'accouchement prématuré que les femmes de la population générale (Fijean et al., 2020; Girault et al., 2016). L'ensemble des patientes présenteraient en revanche un surrisque de développer des pathologies gravidiques<sup>23</sup> (prééclampsie, hypertension artérielle gravidique, hémorragie du post-partum par exemple) et des complications liées à la mucoviscidose et à leur difficulté à prendre du poids (Fijean et al., 2020; Kazmerski et al., 2021). Le VEMS antérieur à la grossesse apparaît comme un facteur déterminant en termes de pronostic de morbi-mortalité maternelle et fœtale. Ainsi les grossesses ont souvent été déconseillées chez les femmes avec un VEMS inférieur à 50-60%, même si certaines études ont rapporté des issues très favorables de grossesses chez des patientes avec un VEMS inférieur à 50% (Fijean et al., 2020; Haines & Middleton, 2022). Au niveau de l'enfant, les études n'ont pas révélé de différence significative en termes de retard de croissance intra-utérin. Un faible poids de naissance a souvent été observé, mais celui-ci serait probablement plus imputable à la prématurité qu'à la mucoviscidose (Fijean et al., 2020). Une étude française a relevé que les données des enfants des patientes à la naissance étaient similaires à celles des enfants de femmes contrôles issues de la population générale (Girault et al., 2016). Une récente étude Californienne relève en revanche un plus grand risque de malformations congénitales (notamment cardiaques) chez les enfants de patientes atteintes de mucoviscidose, en comparaison avec ceux des femmes de la population générale (Haines & Middleton, 2022).

Avec les modulateurs, les patientes sous traitement sont généralement en meilleure santé avant la grossesse ce qui la facilite, notamment dans leur capacité à prendre du poids (Kazmerski et al., 2021). Certaines patientes (âgées de plus de 35 ans, avec un IMC bas, et/ou une fonction respiratoire dégradée) ont dû maintenir ou reprendre leur traitement par modulateurs pendant la grossesse, alors qu'ils étaient pourtant déconseillés et que nous n'avons aujourd'hui que très peu de recul sur l'impact de ces traitements sur la grossesse, la

---

<sup>23</sup> Pathologies gravidiques : pathologies liées à la grossesse

santé des femmes et des nourrissons (Fijean et al., 2020; Haines & Middleton, 2022; Kazmerski et al., 2021). Nous savons que les modulateurs traversent la barrière placentaire et sont présents dans le lait maternel et quelques impacts sur le fœtus ont été rapportés, notamment une cataracte congénitale (Khan & Tran, 2025). Cependant les récentes études tendent à montrer la non-dangerosité des modulateurs pendant la grossesse. Le maintien du traitement est actuellement laissé à la discrétion de l'équipe médicale et de la patiente. Ainsi, les femmes ont de plus en plus tendance à rester sous modulateurs pendant leur grossesse. Une étude multicentrique est actuellement en cours aux États-Unis - the Maternal and Fetal Outcomes in the Era of Modulators (MAYFLOWERS) - et devrait apporter de nombreux éclairages sur le sujet (Jain, Magaret, et al., 2022). Les patientes non éligibles aux modulateurs restent à risque des différents éléments relevés dans les études de l'aire pré-modulateurs.

Une grande partie des traitements symptomatiques de la mucoviscidose peuvent et doivent être utilisés par les femmes enceintes ou allaitantes (Haines & Middleton, 2022; Kazmerski et al., 2021). Certains traitements sont en revanche déconseillés pendant le premier trimestre de grossesse et les traitements pour éviter les rejets de greffe (immunosuppresseurs) chez les patientes transplantées sont également problématiques car tératogènes<sup>24</sup>. Malheureusement leur diminution au cours de la grossesse conduit à plus de rejets de greffe (Kazmerski et al., 2021). Ainsi certains centres préconisent d'éviter les grossesses chez les patientes transplantées. D'autres les accompagnent, en préconisant d'attendre 2 ans après la greffe, pour pouvoir ensuite prescrire de façon sécurisée la plus petite dose possible d'immunosuppresseurs pendant la grossesse.

Que ce soit avec ou sans modulateurs, la grossesse des patientes atteintes de mucoviscidose mérite un suivi attentif à la fois par une équipe obstétricale spécialisée dans la gestion des grossesses à haut-risque et un centre de prise en charge de la mucoviscidose (Haines & Middleton, 2022; Kazmerski et al., 2021).

Des recommandations commencent à être développées concernant les questions de procréation et le suivi des grossesses de femmes atteintes de troubles respiratoires, et certaines spécifient les besoins des femmes atteintes de mucoviscidose (Haines & Middleton, 2022; Middleton et al., 2020). Les CRCM et équivalents ont un rôle important à jouer dans la prévention et l'information mise à disposition sur ces sujets (Kazmerski et al., 2021). Impliquer les partenaires des patientes dans les échanges sur la santé sexuelle et la reproduction est

---

<sup>24</sup> Tératogène : perturbateur du développement fœtal à l'origine de malformations congénitales.

d'ailleurs recommandé (Ehrenberg et al., 2022). Ils ou elles sont généralement en demande, notamment dans le cadre d'un projet de parentalité et leur implication favorise la mise en place d'un projet adapté et de bonnes pratiques. La question de la collecte et de la conservation des gamètes doit de plus être abordée avec tou.te.s les patient.e.s nullipares<sup>25</sup> candidat.e.s à une transplantation pulmonaire, en prévention des effets tératogènes des immunosuppresseurs sur ceux-ci (Kazmerski et al., 2021). Un bilan pré-conceptionnel est recommandé chez les patientes désireuses de grossesse (Fijean et al., 2020). Celui-ci doit notamment permettre d'évaluer si la patiente est dans une période de stabilité sur le plan respiratoire et nutritionnel. Avec les modulateurs, les enjeux de ce bilan évoluent, mais une stabilité de plusieurs mois reste nécessaire avant un début de grossesse. Pour les patientes non stabilisées, le bilan pré-conceptionnel est l'occasion de réfléchir, avec l'équipe pluridisciplinaire, à sa prise en charge pour l'aider à se stabiliser.

## II. L'adoption en France

Pour les couples n'arrivant pas à concevoir, ne souhaitant pas passer par l'AMP, ou composés d'une patiente ayant une contre-indication médicale à la grossesse, l'adoption est l'autre moyen en France pour devenir parent. Adopter signifie avoir la responsabilité légale de l'enfant, soit l'autorité parentale (Service-public.fr, 2024a). L'adoption peut être plénière (les liens de filiation sont remplacés, l'enfant n'a plus de liens avec sa famille d'origine) ou simple (l'enfant conserve ses liens avec sa famille d'origine).

En France les conditions pour adopter sont les suivantes (Service-public.fr, 2024a) :

- Les membres du couple doivent être marié.e.s, pacsé.e.s ou concubin.e.s, avoir au minimum 26 ans ou prouver qu'ils.elles vivent ensemble depuis au moins un an.
- Un parent seul peut adopter s'il ou elle a au moins 26 ans. S'il.elle est en couple, il.elle doit avoir reçu l'autorisation de son ou sa conjoint.e.
- Les adoptant.e.s doivent avoir au minimum 15 ans de plus que l'adopté.e, sauf exception (pour les fratries notamment, ou l'enfant du ou de la conjoint.e).
- Les mineur.e.s adoptables doivent être pupilles d'état, déclaré.e.s délaissé.e.s (abandonné.e.s), ou avoir reçu l'autorisation de leurs parents (ou des personnes

---

<sup>25</sup> Nullipare : sans enfant

ayant leur autorité parentale) d'être adopté.e.s. Les mineur.e.s de plus de 13 ans doivent donner leur consentement.

- Les parents adoptants (couple ou parent seul) doivent obtenir un agrément pour pouvoir adopter. Ils.elles sont ensuite inscrit.e.s sur une liste départementale, à partir de laquelle ils.elles pourront être choisi.e.s comme adoptant.e.s.
- Pour l'adoption de mineur.e.s à l'étrangers, les adoptant.e.s doivent s'adresser à un organisme agréé pour l'adoption à l'internationale, ou à l'Agence française d'adoption.

La législation française a récemment changé (février 2022), en abaissant notamment l'âge minimum des adoptant.e.s (28 ans auparavant), et afin de rendre plus d'enfants adoptables et de faciliter les démarches pour les parents.

L'adoption est un processus qui reste généralement long et peut s'avérer éprouvant. En général, l'acceptation de l'agrément est donnée 9 mois après l'évaluation du parent ou du couple adoptant. Ces derniers attendent ensuite en moyenne entre 1 et 4 ans avant de se voir confier un enfant (Notaires.fr, 2022). La procédure est longue car il y a plus de demandes d'adoptions que d'enfants à adopter. Ainsi, entre 2012 et 2022, le nombre de pupilles d'état adoptés a varié entre 884 et 999 (Observatoire national de la protection de l'enfance, 2023), alors que le nombre d'agréments en cours de validité s'élevait par exemple à 9350 en 2021 (APGL, s. d.). En parallèle, la convention de la Haye (Convention sur la protection des enfants et la coopération en matière d'adoption internationale, 1993), favorisant l'adoption des enfants dans leur pays natal, a été ratifiée par de plus en plus de pays. Si c'est une excellente chose pour la protection des enfants, cela a en parallèle généré une diminution importante du nombre d'adoptions d'enfants étrangers en France (3847 adoptions en 2005 vs 176 en 2023) (France Diplomatie, 2025), rendant cette voie d'adoption plus complexe.

### En résumé :

Avec l'amélioration de leur qualité de vie et espérance de vie, de plus en plus de patient.e.s deviennent parents. La mucoviscidose étant responsable de troubles de la fertilité importants, particulièrement chez les hommes, elle conduit souvent les patient.e.s à avoir recours à l'AMP ou à l'adoption.

Pour les patient.e.s souhaitant avoir un enfant biologique, il est recommandé que le.la partenaire soit testé.e pour vérifier s'il.elle est porteur.se d'une mutation CFTR. En cas de présence de mutation, l'AMP est recommandée avec la possibilité d'effectuer un diagnostic pré-implantatoire sur les embryons fécondés.

L'AMP propose généralement aux femmes d'avoir recours soit à une insémination intra-utérine, soit à une FIV. Pour les hommes une ICSI est généralement proposée pour maximiser les chances de fécondation. Les patient.e.s peuvent également avoir recours à des donneurs de gamètes.

Les issues des grossesses en France seraient semblables à celle de la population générale, mais plusieurs études dans d'autres pays ont relevé des taux supérieurs d'accouchements prématurés et de césariennes. A moins d'avoir une fonction respiratoire très diminuée et dans certains cas d'être greffée pulmonaire, la grossesse des patientes n'est plus contrindiquée comme elle l'était. Elle reste néanmoins une grossesse à risque qui appelle à un bilan pré-conceptionnel et un suivi particulier. Des recommandations commencent à être développées pour ces grossesses. Les modulateurs améliorent la fécondité des femmes et les études tendent à montrer qu'ils seraient sans danger pendant la grossesse. Nous manquons néanmoins encore de recul à ce sujet.

L'adoption plénière est aujourd'hui réservée aux adultes de plus de 26 ans et selon certaines conditions. Le processus est long, notamment car il y a moins d'enfants à adopter que de parents adoptants ayant obtenu un agrément.

## C. La parentalité

*« La parentalité désigne l'ensemble des façons d'être et de vivre le fait d'être parent. »*

*Pierre Bourdieu*

### I. La parentalité : historique du terme et contextualisation

Le terme parentalité est venu progressivement compléter voire remplacer celui de parenté dans plusieurs contextes. Ce dernier, renvoyant à la question des alliances, des liens biologiques, des ancêtres communs et du lien juridique entre personnes d'une même famille, ne suffisait plus pour décrire les différents processus à l'œuvre au sein des familles au XX<sup>ème</sup> siècle (Solis-Ponton, 2002). Le sens du concept de parentalité peut paraître évident, notamment car il renvoie tout d'abord à la notion de « parent », du latin *parens* (mère, père ou autres descendants). Cependant, il s'avère d'autant plus complexe, que c'est un concept qui décrit et englobe différents aspects en fonction de son domaine d'utilisation (Latuillière, 2015; Neyrand, 2015). La complexité du terme apparaît dès que l'on questionne la notion de parent. Du côté biologique le parent est celui dont le gamète a permis de donner la vie, et pour la femme, également celle dont le corps a porté l'enfant. Cette notion a été chamboulée par le développement international des pratiques d'AMP et, dans certains pays, de la GPA. Ainsi, du côté des autres champs d'application, l'aspect biologique a pu être totalement mis de côté. Aujourd'hui en France, d'un point de vue juridique le parent est celui qui a l'autorité parentale, qu'il ait un lien biologique ou non avec l'enfant, comme dans le cadre de l'adoption. D'un point de vue socio-anthropologique le parent est un individu présent au sein d'une structure familiale, qui réalise un certain nombre de tâches (soins, éducation notamment) à l'égard de l'enfant, qu'il soit un parent biologique ou non et qu'il ait ou non l'autorité parentale. D'un point de vue psychologique, être parent renvoie à l'identité de parent d'un individu, au processus de transformation interne liée à l'apparition de cette identité, et à la responsabilité qu'il ou elle porte vis-à-vis de l'enfant en question.

La parentalité se comprend de fait différemment selon ces champs d'application, et est d'autant plus complexe à définir que c'est un terme relativement récent et de plus en plus politique (Martin, 2003; Neyrand, 2015, 2016). Son utilisation première remonte aux années trente et aux travaux de l'anthropologue Bronisław Malinowski, parlant alors en anglais de « *parenthood* » pour « désigner les fonctions de soin, d'éducation, de nomination, d'attribution d'identité, dévolues aux parents » (Neyrand, 2016, paragr. 5). Le concept est

repris en France en 1961 dans le champ de la psychanalyse (Hatchuel, 2019; Houzel, 2002; Neyrand, 2015), pour parler des adultes entourant l'enfant et du lien psychique entre le parent et l'enfant. Son utilisation sociologique pour parler des changements dans l'organisation familiale (place du père qui évolue et n'est plus juste un chef de famille, familles monoparentales ou recomposées) va contribuer à faire émerger le terme dans les discours public dans les années 80 (Martin, 2003; Neyrand, 2015). Il devient véritablement grand public dans les années 90. En 1999, un rapport sur la parentalité paraît, commandité par le ministère de l'Emploi et de la Solidarité (Houzel, 1999). Ce travail dont nous détaillerons les conclusions dans la partie « approche psychologique de la parentalité », a permis de conceptualiser la parentalité en trois axes : l'exercice, l'expérience et la pratique de la parentalité. Ce travail a également contribué à faire ressortir l'importance du maintien du lien parent-enfant, même quand les parents sont défaillants, et/ou qu'il y ait un recours à des parents substitutifs (placement en famille d'accueil). Ce travail a servi de fondation au développement de la politique de soutien à la parentalité française actuelle et fait ainsi partie des références fondamentales dans le champ de la parentalité en France.

Faisant aujourd'hui l'objet de nombreux sujets d'études dans différents domaines d'application le terme parentalité peut donner l'impression d'un concept un peu « fourre-tout » (Latuillière, 2015). Il est donc essentiel de préciser le sens auquel on se réfère dans un travail comme le nôtre. Cependant, nous ne pouvons pas nous limiter à définir le concept au sens psychologique. Comme le précise (Neyrand, 2015, p. 147), les différentes définitions peuvent « être sollicitées à tour de rôle ou parfois toutes ensemble, ou être, au contraire, ignorées » et le champ d'application de la psychologie est nécessairement coloré par l'ensemble des autres dimensions. Ainsi, nous allons présenter plusieurs grandes approches du terme de la parentalité (anthropologique, sociologique, juridique, politique et psychologique) pour mieux comprendre ce à quoi peut renvoyer le terme et contextualiser ce qui a pu être mobilisé dans notre étude. Après ces présentations, nous explorerons ce à quoi renvoient les notions de devenir et être parent en psychologie. Sans pouvoir être exhaustifs, nous présenterons certaines des grandes théories derrière ces notions, et observerons les impacts de la parentalité en termes de psychopathologie, de vie conjugale, et de bien-être. Enfin nous aborderons la question de la parentalité des individus souffrant d'une maladie ou d'un handicap.

## II. Les différentes approches de la parentalité

### 1) Approche juridique

#### a) Être parent selon le droit français : l'autorité parentale

Le droit français reconnaît aujourd'hui comme parent d'un enfant, les adultes exerçant l'autorité parentale. Celle-ci est définie comme « l'ensemble des droits et des devoirs que les parents ont vis-à-vis de leur **enfant mineur**. Ces droits et devoirs doivent être exercés **dans l'intérêt de l'enfant**. Ils doivent le protéger dans sa sécurité, sa santé, et sa moralité. Ils doivent également assurer son éducation et permettre son développement dans le respect dû à sa personne. Pour exercer leur fonction, les parents ont un devoir de commandement et de surveillance sur l'enfant et ses biens. » (Service-public.fr, 2024c).

Le législateur précise que « l'autorité parentale s'exerce dans le respect dû à la personne de l'enfant, sans violences physiques ou psychologiques. » (Service-public.fr, 2024b) et il précise spécifiquement les droits et devoirs des parents à l'égard de l'enfant. Ainsi les parents ont le devoir de surveillance et de protection (sécurité, surveillance des déplacements, des relations, des communications), d'éducation (scolaire, intellectuelle, morale et culturelle), d'assurer la santé, l'entretien matériel (hébergement, alimentation, et autres besoins), sur la vie privée et l'image de l'enfant. Les parents sont responsables de la gestion des biens de l'enfant et ont la jouissance légale des biens de leur enfant.

En principe, l'autorité parentale est exercée par les deux parents, sous-entendus les parents biologiques, qu'ils soient en couple ou séparés. Les parents ne peuvent renoncer à l'exercice de l'autorité parentale que sur décision d'un juge, selon certaines conditions. Cependant, dans certains cas, l'exercice de l'autorité parentale n'est dévolu qu'à un seul parent (reconnaissance tardive de l'enfant plus d'un an après sa naissance, décès d'un des parent, décision du juge de retrait à l'un des parent, adoption par un parent seul, incapacité à manifester sa volonté en cas de maladie/handicap ou absence).

En cas d'adoption plénière, les adoptants exercent l'autorité parentale qui a été totalement retirée/abandonnée par les parents biologiques. En cas d'adoption simple, les adoptants peuvent exercer l'autorité parentale au même titre que les parents d'origine, pour qui le lien de filiation est maintenu.

L'autorité parentale court jusqu'à la majorité de l'enfant, sauf en cas d'émancipation de celui-ci, ou de retrait de l'autorité parentale. Si les deux parents (ou le parent seul détenteur de l'autorité parentale) décèdent, l'enfant est placé sous tutelle.

La loi française prend donc compte de la dimension biologique et généalogique de la parentalité, en considérant qu'en principe les parents d'un enfant sont ses parents biologiques, mais permet également de s'affranchir de ces dimensions dans une certaine limite. Il est à noter qu'un géniteur n'est cependant pas parent d'office : il doit se reconnaître parent juridiquement, soit à la déclaration de naissance de son enfant, soit avec le processus d'adoption.

#### **b) Evolution du concept d'autorité parentale et implications juridiques**

Le droit de la famille suit les évolutions sociales et en 1970, la notion de puissance paternelle est remplacée par celle d'autorité parentale conjointe (Vie publique, 2021) pour les parents de couples mariés. A partir de la réinstauration du divorce par consentement mutuel en 1975 (Ministère de la justice, 2009), la notion de faute d'un des deux époux n'est plus prise en compte par le juge en charge de définir le parent qui aura la garde de l'enfant. En effet, la décision doit maintenant être prise en vue de favoriser le bien-être supérieur de l'enfant. A partir de la loi Malhuret en 1987, l'autorité parentale conjointe est accordée aux pères des couples non mariés (avant uniquement la mère la détenait même si le père avait reconnu l'enfant) et aux parents divorcés (Vie publique, 2021). La notion de garde de l'enfant est alors remplacée par celle de résidence de l'enfant. Une forme de consensus autour de l'importance de la coparentalité émerge alors, basée sur l'idée que les enfants doivent idéalement maintenir des liens avec leurs deux parents. C'est dans ce sens que le concept d'autorité parentale conjointe de 1970 a depuis été renforcé en 1987 puis à nouveau par la loi de la résidence alternée de 2002 (LOI n° 2002-305 du 4 mars 2002 relative à l'autorité parentale (1), 2002; Vie publique, 2021). Cette dernière loi promeut explicitement la résidence alternée, et permet au juge de prendre des mesures permettant de maintenir les liens avec les deux parents, et ce, pour favoriser le développement émotionnel et psychique de l'enfant (Encyclopédie du droit, 2023; Vie publique, 2021).

## **2) Approche anthropologique**

Dans l'approche anthropologique le terme parentalité renvoie aux fonctions exercées par les parents à l'égard de leur enfant (exemple : procréation, soins et nourrissement, éducation). Dans ses premiers travaux, Malinowski a révolutionné la manière de penser la parenté. Il a très tôt considéré que la famille individuelle était un phénomène quasiment

universel, tout en notant que sa configuration était profondément variable en fonction du contexte social de la famille, et des multiples formes de mariages (Pulman, 2002). Il précise également que l'unité sociale constituée par la famille « subit de profonds changements, dès lors que d'autres éléments de la structure sociale se modifient » (Malinowski par Pulman, 2002, p.746). Ainsi ses travaux, et ceux qui ont suivis, réalisés au sein de différentes sociétés, ont permis de montrer de nombreux cas de figures et de statuer que la parentalité se concevait et s'exerçait très différemment en fonction des règles de filiation des sociétés et des systèmes de parenté (Neyrand, 2015). Par exemple, Goody qualifie en 1982 de « parenthood » la pratique familiale très courante en Afrique occidentale de se voir confier un enfant d'une autre famille pendant quelques années. Elle est la première à concevoir la parentalité selon cinq dimensions (Dimensions 1 à 5 de la Figure 11), et Godelier complète son travail en ajoutant deux dimensions (dimensions 6 et 7 de la Figure 11) (Godelier, 2014; Hatchuel, 2019; Neyrand, 2015).

**Figure 11.**

*Les sept dimensions de la parentalité.*

|                                            |                                                                      |                                                                                      |                                       |
|--------------------------------------------|----------------------------------------------------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------|---------------------------------------|
| 1. Concevoir et/ou engendrer               | 2. Doter l'enfant à la naissance d'un nom et d'une identité sociale  | 3. Avoir des droits et des devoirs vis-à-vis de l'enfant                             | 4. Élever, nourrir, protéger l'enfant |
| 5. Former<br>Instruire<br>Éduquer l'enfant | 6. Avoir le droit d'exercer sur l'enfant certaines formes d'autorité | 7. S'interdire pour certains parents d'entretenir des rapports sexuels avec l'enfant |                                       |

*Note. Figure issue de l'article de Godelier (2014 p.359)*

Godelier précise que « les 7 fonctions de la parentalité doivent être assumées par un certain nombre d'individus des deux sexes et de générations différentes selon la nature de leurs rapports de parenté avec un enfant de sexe masculin ou féminin qui vient de naître. Et selon la nature du système de parenté auquel ces individus appartiennent, ces fonctions peuvent être réparties entre un certain nombre d'individus, de sexe et d'âge différents, qui sont dans des rapports spécifiques de parenté avec l'enfant, rapports définis par le système de parenté existant. » (2014, p. 359). Il explique également que toute famille, ou système de parenté est régi par des règles appartenant au 6 composantes suivantes (Godelier, 2014) :

Descendance et filiation : composante qui précise la forme d'appartenance des enfants à un ou des groupes d'adultes. Dans certaines sociétés les enfants sont reliés au groupe du père, dans d'autres à celui de la mère, dans d'autres aux groupes du père et de la mère soit de façon égalitaire (comme en France), soit de façon différenciée (liens différents en fonction du sexe du parent), enfin, dans certains groupes, l'appartenance varie en fonction du sexe de l'enfant.

Formes d'alliance : composante qui dessine les règles des alliances autorisées ou interdites entre les individus et les familles.

Principes de résidence pour un nouveau couple : ils régissent le lieu d'installation de la nouvelle famille.

Terminologies de parenté : elles renvoient aux noms utilisés pour désigner les différents parents (père, mère, fils, fille, oncle, tante, grands-parents etc.)

Représentations sociales du processus de la conception des enfants : elles renvoient aux différentes croyances concernant les rôles des hommes et des femmes pour « fabriquer » les enfants. Celles-ci sont empruntées de l'imaginaire collectif, au-delà de la biologie, comme par exemple la croyance qu'un fœtus devient et naît enfant car un dieu lui donne une âme.

Godelier fait le constat qu'en France, « l'axe de l'alliance, devient de plus en plus flexible pour intégrer de nouvelles formes d'union entre des personnes de sexe différent ou de même sexe » et que « l'axe de la filiation (descendance) reste, lui, très ferme tout en se modifiant pour accueillir une série d'innovations sociales (l'autorité parentale, les familles recomposées etc.) » (2014, p. 365). Ainsi, il liste les principales évolutions sociales impactant les structures familiales et la parentalité en France et en Europe occidentale (Figure 12).

**Figure 12.**

*Evolutions récentes impactant les structures familiales en France et en Europe occidentale.*

| Évolution contemporaine : France et Europe occidentale |                                                                                                                                                                                                           |
|--------------------------------------------------------|-----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| 1.                                                     | Le couple ne fait plus famille.                                                                                                                                                                           |
| 2.                                                     | Le mariage n'est plus une condition nécessaire pour fabriquer une famille ni bien sûr pour vivre en couple.                                                                                               |
| 3.                                                     | L'autorité parentale partagée par le père et la mère a remplacé l'autorité paternelle (Lois de 1970, 1987 et 1993). Les responsabilités des parents ne cessent pas après leur séparation ou leur divorce. |
| 4.                                                     | En France, un tiers des unions se terminent au bout de 7 ans par une séparation ou un divorce.                                                                                                            |
| 5.                                                     | Multiplication des familles recomposées.                                                                                                                                                                  |
| 6.                                                     | Multiplication des familles monoparentales.                                                                                                                                                               |
| 7.                                                     | Unions libres.                                                                                                                                                                                            |
| 8.                                                     | Homoparentalité (familles lesbiennes, familles gays) légalisée par la Loi du Mariage pour Tous, 2013.                                                                                                     |
| 9.                                                     | Mères porteuses – en débat en France, à la différence de l'Espagne et de la Hollande, etc.                                                                                                                |
| 10.                                                    | Clonage reproductif. Interdit sur le plan international.                                                                                                                                                  |

*Note. Figure issue de l'article de Godelier (2014 p.365)*

### 3) Approche sociologique

Pour le sociologue Martin (2003), l'apparition du mot « parentalité » vient refléter un nouveau besoin, à savoir désigner la relation entre les parents et les enfants dans un contexte de nombreux changements sociaux et du droit de la famille (cf. évolutions listées par Godelier en Figure 12). Le couple qui faisait (généralement) famille est devenu très instable, en lien avec l'augmentation constante du nombre de divorces entre les années 60 et années 2000, le taux de divorce étant alors passé de 9% à 40% (Martin, 2003). Malgré une diminution du nombre de divorces depuis 2005 (Tableaux de l'économie française, Insee, 2020), cela a profondément changé la structure et le fonctionnement de nombreuses familles. Si la famille nucléaire stable des Trente Glorieuses pouvait se contenter du terme « parenté » pour parler de ce qui avait trait aux parents, le terme a montré ses limites pour parler de la complexification récente des familles. Ainsi c'est maintenant l'arrivée de l'enfant qui vient faire famille, et avec le néologisme parentalité, la sociologie a pu questionner les places parentales, notamment dans les nouvelles structures familiales que certains appellent « nouvelles parentalités » (monoparentalité, beau-parentalité, homoparentalité) (Martin, 2003; Neyrand, 2011, 2015). La sociologie de la famille permet également d'historiciser les différentes formes de parentalité

dans un contexte sociétal en mouvement perpétuel, et d'articuler ce qui définit un parent (juridiquement notamment) - désigné par le terme « parenthood » en anglais - et l'art de « parenter » c'est-à-dire d'effectuer les activités attendues ou prescrites liées aux enfants - désigné par le terme « parenting » en anglais.

Concernant les structures familiales en France, trois grands types sont actuellement considérés par l'INSEE (Institut National de la Statistique et des Etudes Economiques) : la famille traditionnelle, la famille monoparentale et la famille recomposée (sans préciser l'hétérosexualité ou l'homosexualité des parents ou des couples) (Algava et al., 2021; Bodier et al., 2015).

Les familles traditionnelles sont des familles avec un couple marié ou non, vivant uniquement avec les enfants du couple. Ce type de structure familiale reste majoritaire en France, bien qu'elle ait évolué sur le plan du type d'union (Tableaux de l'économie française, Insee, 2020). En effet, le nombre d'unions libres et le nombre de PACS (Pacte Civil de Solidarité) chez les couples avec ou sans enfants ont significativement augmenté depuis les années 90 et depuis l'instauration du PACS en 1999 ; en parallèle, la durée des unions a diminué (Algava et al., 2021; Bodier et al., 2015; Martin, 2003; Tableaux de l'économie française, Insee, 2020). Ainsi, les couples mariés dans les familles traditionnelles ne sont plus la norme comme auparavant et leur nombre a largement baissé au profit des autres types d'unions. Le mariage reste néanmoins l'union la plus fréquente dans les familles traditionnelles avec enfants.

Le terme monoparentalité est apparu dans les années 70 pour rendre compte des familles où un parent vit seul avec au moins un enfant (Algava et al., 2021; Neyrand, 2011). Cette situation, loin d'être nouvelle, était très souvent stigmatisée auparavant, et sa fréquence n'a cessé d'augmenter, en lien notamment avec l'augmentation du taux de divorces (Algava et al., 2021; Bodier et al., 2015; Martin, 2003). Ainsi, en 2020, les familles monoparentales représentaient 25% des familles en France, contre 20% en 2011 (Algava et al., 2021; Bodier et al., 2015). La monoparentalité concerne plus souvent les femmes, et est plus souvent associée à de la pauvreté que d'autres formes familiales. Ainsi, 41% des enfants vivant avec un seul parent vivent en dessous du seuil de pauvreté monétaire, contre 21% dans les autres conditions familiales (Algava et al., 2021). Les conditions de vie des familles monoparentales maternelles est généralement moins favorable en termes de niveau de vie, de taille et de qualité de logement. Ce constat n'est pas récent et a conduit à la mise en place de différentes

aides financières pour ces familles, comme l'ASF (Allocation de soutien familial) (Solidarites.gouv.fr, 2022b).

En parallèle, la notion de pluri-parentalité s'est largement répandue pour conceptualiser la réalité de nombreuses familles où les deux parents reconnus par la loi ne sont pas les seuls à « parenter » l'enfant. Autrefois la pluri-parentalité était souvent vécue en deux temps, notamment dans le cadre du remariage après veuvage. La particularité des nouvelles structures familiales réside dans le fait que l'enfant peut côtoyer ses deux parents et d'autres figures parentales en même temps, et même vivre différentes expériences de pluri-parentalité lors de séparations et recompositions familiales successives. En 2020, les familles recomposées représentent 9% des familles en France (Algava et al., 2021). L'INSEE définit ainsi la famille recomposée : « Une famille recomposée comprend un couple marié ou non et au moins un enfant d'une union précédente de l'un des conjoints. Les enfants qui vivent avec leurs parents et des demi-frères ou demi-sœurs font aussi partie d'une famille recomposée » (Algava et al., 2021, p. Documentation). La beau-parentalité varie selon l'âge des enfants, les relations entre ex-conjoints, la durée de la recomposition, le genre du parent, le type d'organisation résidentielle etc. En France le beau-parent n'a en principe aucun statut légal auprès des enfants de son ou sa partenaire, tandis que la loi au Royaume-Uni permet le partage de l'autorité parentale avec le beau-parent, quels que soient le statut juridique ou l'orientation sexuelle du couple (Service des études juridiques - Sénat, 2009). Pourtant l'existence d'un beau-parent au sein de la structure familiale impacte les relations ainsi que l'organisation et l'exercice des tâches familiales. Cependant, grâce à un arrêté de la Cour de cassation de 2006, les parents peuvent demander une délégation d'autorité parentale, qui « permet de partager ou de transférer les droits et les devoirs du ou des parents dans l'intérêt de l'enfant » (Service-public.fr, 2024b, p. Délégation Volontaire). Concrètement, cela permet au beau-parent de pouvoir prendre certaines fonctions ou décisions auprès des institutions (école, hôpital), à la place ou lors de l'absence du parent. Les nouveaux partenaires assument donc des fonctions parentales, mais n'ont en revanche pas le statut de parent.

L'homoparentalité, est un terme relativement récent, créé par l'Association des parents et futurs parents gays et lesbiens (APGL) en 1997 (Gross, 2018). Il avait pour but de rendre visible ce qui était jusqu'à lors caché, et désigne « toute situation familiale où un parent au moins s'identifie comme homosexuel » (Gross, 2018, p. 32). Cette notion a pu émerger grâce aux changements sociaux (des structures familiales et du regard porté sur l'homosexualité), les progrès scientifiques autour de la procréation, et a été renforcé par la loi de 2013 autorisant

le mariage et l'adoption aux couples homosexuels, et plus récemment la loi de 2021 autorisant l'AMP pour les couples de femmes. Elle amène une autre forme de pluri-parentalité, notamment pour les couples qui font des enfants avec une personne extérieure au couple ou entre couples homosexuels. Les enfants peuvent alors avoir 3 ou 4 parents. Cela amène des problématiques nouvelles pour les parents, concernant notamment l'autorité parentale et les droits des parents ne l'ayant pas, ou encore l'organisation du temps de résidence de l'enfant. Il est à noter qu'aujourd'hui en France, à l'exception des rares couples homosexuels qui arrivent à adopter de façon plénière un enfant, le deuxième parent du couple, n'a qu'un statut social et non juridique vis-à-vis de l'enfant (Gross, 2018). Ainsi, si le couple est marié, ce parent ne peut bénéficier que d'une adoption simple (pas de lien de filiation, car pas de substitution aux parents d'origine comme dans l'adoption plénière). Si le couple n'est pas marié ce parent ne peut prétendre qu'à une délégation d'autorité parentale, comme les beaux-parents des familles recomposées.

Toutes ces évolutions familiales et ces nouvelles formes de parentalité, qu'elles soient reconnues juridiquement ou non, ont conduit les sociologues à parler aujourd'hui de pluri-parentalités plurielles.

#### **4) Approche politique : parentalité et soutien à la parentalité**

En lien avec les travaux de Houzel et son équipe, le soutien à la parentalité s'institutionnalise à la fin du XXe siècle, grâce notamment à la création en 1998 du REAAP (Réseau d'Ecoute, d'Appui et d'Accompagnement des Parents) et l'implication des CAF (Caisses d'Allocation Familiales) (Neyrand, 2015). En parallèle, plusieurs économistes internationaux s'intéressent au sujet et promeuvent l'investissement dans le soutien à la parentalité, au travers de différentes méthodes, dans une optique d'économies à moyen et long termes, ce qui inspire au fur et à mesure de nombreuses politiques publiques (Sitruk, 2023).

En France, un comité national de soutien à la parentalité (CNSP) est créé en 2010 ayant notamment pour mission de « contribuer à la conception, à la mise en œuvre et au suivi de la politique et des mesures de soutien à la parentalité définies par l'Etat et les organismes de la branche famille de la sécurité sociale » (Legifrance.fr, 2010, p. Article D141-9). Il se réunit en 2011 pour établir une définition de la parentalité et du soutien à la parentalité et relève alors la problématique du concept de parentalité, utilisé dans le domaine public tout en présentant des connotations très différentes en fonction de son milieu d'utilisation (Comité National de

Soutien à la Parentalité, 2011). Le comité s'était alors donné comme mission d'élaborer une définition partagée, qui puisse se traduire sur le plan opérationnel dans la politique publique de soutien à la parentalité. Les membres du comité se sont accordés sur de nombreux points, notamment le caractère multi-dimensionnel du terme, leur permettant de formaliser une définition n'excluant aucune dimension du concept. Ainsi, « la parentalité désigne l'ensemble des façons d'être et de vivre le fait d'être parent. C'est un processus qui conjugue les différentes dimensions de la fonction parentale, matérielle, psychologique, morale, culturelle, sociale. Elle qualifie le lien entre un adulte et un enfant, quelle que soit la structure familiale dans laquelle il s'inscrit, dans le but d'assurer le soin, le développement et l'éducation de l'enfant. Cette relation adulte/enfant implique un ensemble de fonctions, de droits et d'obligations (morales, matérielles, juridiques, éducatives, culturelles), exercés dans l'intérêt supérieur de l'enfant, en vertu d'un lien prévu par le droit (autorité parentale). Elle s'inscrit dans l'environnement social et éducatif où vivent la famille et l'enfant. » (Comité National de Soutien à la Parentalité, 2011, p. 2).

Le CNSP n'est en revanche pas arrivé à élaborer à ce moment-là, une définition commune à la notion de soutien à la parentalité. Les auteur.e.s du rapport ont cependant précisé que « le soutien à la parentalité ne peut être qu'universaliste, fondé sur les initiatives locales, dans une relation de reconnaissance et de confiance dans le parent et à l'aide d'une mise en réseau des parents, des professionnels et des élus. » (Comité National de Soutien à la Parentalité, 2011, p. 2). Depuis 2021, une définition a été rédigée dans le Code de l'action sociale et des familles, définissant le soutien à la parentalité comme « toute activité consistant, à titre principal ou à titre complémentaire d'une autre activité, notamment celle d'accueil du jeune enfant, à **accompagner les parents** dans leur rôle de **premier éducateur** de leur enfant, notamment par des actions d'écoute, de soutien, de conseils et d'information, ou à favoriser l'entraide et l'échange entre parents. Une charte nationale de soutien à la parentalité, prise par arrêté du ministre chargé de la famille, établit les principes applicables aux actions de soutien à la parentalité » (Solidarites.gouv.fr, 2022a).

Cette prise en compte politique du concept de parentalité, et plus particulièrement de son soutien, a fait émerger certaines problématiques. Notamment le fait que, tout en renvoyant à la singularité de chaque famille d'élever et d'éduquer un enfant, il admet implicitement l'idée de normes éducatives et une « bonne manière d'éduquer un enfant » (Demichel-Basnier & Corbin, 2021). Ces deux aspects se côtoient en permanence dans le cadre de la législation et du travail de la protection de l'enfance. Actuellement en France, l'état se

sent responsable de l'accompagnement des évolutions sociétales majeures, comme la transformation des familles et les parents sont considérés comme des personnes qu'il est nécessaire de soutenir dans l'exercice de leur rôle de parent, notamment parce que la société est inquiète de leurs capacités à être de « bons parents » et à agir dans l'intérêt supérieur de l'enfant (Sitruk, 2023). En parallèle certains parents expriment également un besoin à être accompagnés. Dans ce contexte, la parentalité est donc un concept ambigu « consistant à imposer des pratiques normées, tout en se dispensant de le faire expressément » (Demichel-Basnier & Corbin, 2021, p. 200). Ceci questionne forcément les modalités d'accompagnement et de soutien à la parentalité des travailleurs du secteur, et ce d'autant plus lorsque qu'il est question du placement de l'enfant (Demichel-Basnier & Corbin, 2021; Neyrand, 2016). Avant les années 80, les familles d'accueil se substituaient aux parents d'origine, alors qu'aujourd'hui, elles sont pensées pour être des familles suppléantes et l'accent est mis sur le maintien des liens entre les enfants placés et leurs parents d'origine. (Neyrand, 2016). Pourtant, sur le terrain, la parentalité supplétive et la coéducation prônées entre les familles d'accueil et les parents d'origine sont souvent compliquées. On observe une substitution de la pratique de la parentalité associée à une prise en compte des affects et du statut de responsable légal du parent d'origine (Sellenet, 2016). Cette question des normes éducatives suscite donc des tensions et des contradictions, « comme l'imposition d'injonctions paradoxales, où soutien et contrôle se mêlent parfois indistinctement, aussi bien dans le dispositif de parentalité global, que dans les dispositifs spécifiques comme l'accueil familial. » (Neyrand, 2016, paragr. 14). Ainsi, la politisation du terme parentalité, légitimée par le motif inébranlable de l'intérêt supérieur de l'enfant, questionne également la forme de contrôle social qu'elle implique, et le fait de reporter la responsabilité de l'éducation principalement sur les parents, sans prendre en compte l'impact des rapports sociaux dans lesquels ils sont pris, sur leurs capacités à éduquer (Neyrand, 2015). De plus, l'avènement politique du terme a fait glisser le débat public sur la question de la prévention de la délinquance et de la répression, notamment en lien avec la confusion autour de la responsabilité des parents (Neyrand, 2011, 2016; Sitruk, 2023). Aujourd'hui bien ancrée dans les politiques publiques, la politique de soutien à la parentalité apparaît ainsi toujours en construction et basée sur certaines contradictions.

## 5) Approche Psychologique

C'est donc dans le champ de la psychologie, et plus précisément de la psychanalyse, que le terme de parentalité fait sa première apparition en France, dans les écrits Racamier en 1961. A l'époque, il s'intéresse à la psychose puerpérale<sup>26</sup>, et choisit de traduire le terme anglais « motherhood » par « maternalité », plutôt que maternité, afin de donner au terme une dimension plus dynamique et de décrire l'ensemble des processus psycho-affectifs sous-jacents à la maternité (Houzel, 2002). Il précise alors que ce néologisme peut être complété par ceux de « paternalité » et de « parentalité », sans les détailler. En s'appuyant sur les travaux de psychanalystes anglo-saxons (Birbring, Benedek), il décrit la maternité comme « une phase du développement psychoaffectif de la femme » (Houzel, 2002, p. 62), qui, comparablement à la phase de l'adolescence, engendre une crise identitaire et des remaniements internes profonds. Ce processus est aujourd'hui appelé processus de « transition vers la parentalité », de « parentification », de « parentalisation », ou plus simplement le « devenir parent ».

Le terme de parentalité reste quasiment inusité jusqu'en 1985, où Clément l'utilise alors notamment pour décrire les comportements parentaux pathologiques et parler de dysparentalité (Besse, 2011). Depuis, il est largement utilisé, et souligne l'idée importante « qu'il ne suffit ni d'être géniteur ni d'être désigné comme parent pour en remplir toutes les conditions, encore faut-il « devenir parent », ce qui se fait à travers un processus complexe impliquant des niveaux conscients et inconscients du fonctionnement mental. » (Houzel, 2002, p. 62). Ainsi, Lebovici caractérise la parentalité comme « le produit de la parenté et aussi le fruit de la parentalisation des parents » (Solis-Ponton, 2002).

Ces concepts se retrouvent dans les dimensions de la parentalité proposées par Houzel et ses collaborateurs (Houzel, 1999), évoquées en introduction du chapitre, et plus particulièrement dans celles de l'expérience et de la pratique de la parentalité. La dimension de l'exercice de la parentalité renvoie aux aspects juridiques de la parentalité, c'est-à-dire les aspects du droit qui régissent aujourd'hui la parenté, la filiation et certains droits et devoirs conférés par le statut juridique de parent (Houzel, 2002, 1999). En cela cette dimension n'a rien de très psychologique. Néanmoins, Houzel précise qu'elle renvoie également à des aspects plus psycho-individuels, notamment les lois et les interdits qui organisent la psyché de chaque

---

<sup>26</sup> Psychose puerpérale : trouble psychiatrique grave, survenant généralement dans la première semaine du post-partum. Il est caractérisé par un état de confusion, de délire et de troubles de l'humeur, et est considéré comme une urgence psychiatrique notamment à cause des risques pour la mère (suicide) ou pour l'enfant (infanticide). (Ameli.fr, 2023a)

individu dans leur représentation de la parentalité (comme l'interdit de l'inceste et les différences entre les générations). Les deux autres dimensions renvoient plus explicitement aux processus du devenir parent et de l'être parent, d'un point de vue expérientiel et pratique. Ainsi la dimension de l'expérience de la parentalité renvoie au vécu subjectif (conscient et inconscient) du devenir et de l'être parent. Cela concerne de nombreux aspects, notamment les questions du désir d'enfant et de la transition vers la parentalité, sur lesquels nous reviendrons plus en détails, ainsi que les émotions liées aux interactions avec son enfant, la satisfaction ou les difficultés émotionnelles liées au statut de parent etc. (Favez, 2017; Houzel, 2002, 1999). La pratique de la parentalité renvoie à toutes les tâches instrumentales et les soins parentaux effectués au quotidien par les parents pour leur enfant. Ces soins peuvent être de nature « physique » (soins corporels, habillement, alimentation, rendez-vous médicaux) ou psychique (attachement, interactions affectives qualitatives et autres aspects émotionnels). De façon résumée, ces dimensions renvoient à tout ce qui concerne les comportements, les affects, les représentations ainsi que les droits et devoirs d'un parent vis-à-vis de ses enfants et de son rôle de parent. Les psychanalystes précisent que cela s'applique que l'enfant soit né, en gestation ou encore non conçu (Missonnier, 2022).

Selon Houzel et son équipe, des dysfonctionnements de la parentalité peuvent apparaître au niveau de chacun des trois axes de la parentalité, se manifestant soit par des excès, soit par des manquements (Houzel, 1999). Ainsi dans l'exercice de la parentalité, un excès se caractériserait par une forme de rigidité du parent (dans ses demandes et exigences envers l'enfant), tandis qu'un défaut se traduirait par une implication diminuée ou nulle dans l'exercice de ses devoirs et droits de parent. Dans l'axe de l'expérience, l'excès de parentalité se retrouverait dans des attitudes et comportements parentaux de fusion/confusion avec l'enfant (difficulté à reconnaître la singularité de l'enfant, inceste) et un défaut de parentalité s'exprimerait par le rejet de l'enfant, de la déception à son égard, voire de la maltraitance. Enfin, sur l'axe de la pratique de la parentalité, un excès se caractériserait par des comportements de surstimulation ou de surprotection, tandis qu'un manquement impliquerait des négligences, voire des carences dans les soins (alimentation, hygiène) et un manque de stimulation.

En parallèle de l'organisation de la parentalité en trois dimensions, le groupe de travail de Houzel a proposé le concept de parentalité partielle, « pour désigner la part que des parents, même très malades, peuvent assumer, au moins en partie, sur tel ou tel axe de la parentalité, moyennant souvent des accompagnements et des médiations, qui garantissent la

sécurité de l'enfant et qui améliorent les compétences des parents » (Houzel, 2002, p. 70). Cette notion, importante d'un point de vue juridique, a notamment contribué à la réorganisation de la protection de l'enfance afin de maintenir le lien parent-enfant autant que possible. D'un point de vue psychologique, elle présente l'intérêt de permettre aux individus ayant des difficultés ou des incapacités à exercer leur rôle de parent, de pouvoir néanmoins continuer à se penser parents.

Au-delà de la psychanalyse, de nombreuses études se sont intéressées aux processus et au vécu individuel de chaque parent. Il est important de noter que des recherches actuelles s'intéressent également à comprendre les processus en jeu entre les deux parents ou entre les différents membres de la famille, et à ce qu'on peut appeler le « devenir famille » (Mellier & Gratton, 2015). Ces études ne considèrent ainsi plus l'addition des places de chacun des protagonistes de la famille (père(s), mère(s) et enfant), mais prennent en compte les relations au sein de la triade parents-enfant, voire dans la famille plus étendue ou entre les différents acteurs ayant « la responsabilité conjointe d'élever un enfant » (Favez, 2017, p. 8). On parle alors de coparentalité. Les trois dimensions de la parentalité peuvent s'appliquer à cette notion de coparentalité, même si les aspects juridiques de la première dimension sont loin de couvrir l'ensemble des situations de coparentalité rencontrées en France, et se limitent souvent à l'idée d'un exercice conjoint entre deux personnes. Au niveau de l'expérience, être coparent renvoie à l'idée de collaborer avec un ou plusieurs individus dans la prise en charge de l'enfant, « d'être parent avec ». « La coparentalité désigne alors une fonction relationnelle et psychologique spécifique de la relation entre adultes en charge d'un enfant » (Favez, 2017, p. 18). Cette fonction impacte notamment l'identité du couple qui se dédouble et devient un couple parental, en plus du couple conjugal. Il est à noter que cette fonction s'applique à toute « équipe parentale », quelle que soit sa structure. Ainsi on parlera alors de système parental, notion qui sera ensuite transformée en système coparental (Favez, 2017). Afin de mieux comprendre le fonctionnement du coparentage, plusieurs modèles ont été développés depuis le début des années 2000 et un méta-modèle a été proposé pour récapituler l'ensemble des composantes des autres modèles (Favez & Frascarolo-Moutinot, 2013). Ce dernier modèle fait état de six dimensions au coparentage : le soutien, le conflit, la division du travail, l'engagement dans le parentage, l'accord éducatif et la triangulation.

Dans ce travail, où nous considérons la parentalité et la coparentalité dans une approche psychologique, nous souhaitons utiliser les termes de parentalité et coparentalité

dans toute leur complexité. Ainsi, nous considérons que ces termes renvoient à l'ensemble des processus et représentations du « devenir et être » parent et du « être parents ensemble », processus propres à chaque parent et à chaque système coparental, influencés par les histoires individuelles, le contexte sociojuridique et la forme choisie pour être parent. Nous prenons également en compte la notion de parentalité partielle, pertinente dans le cadre de maladies somatiques graves d'un parent. Cependant, face à des notions si complexes, certaines dimensions et approches seront, au sein de ce travail, plus mobilisées que d'autres, afin de mieux observer certains processus ciblés.

### En résumé :

La parentalité est un terme complexe dont la définition varie selon le champ d'application.

En droit, être parent en France, signifie être détenteur de l'autorité parentale. Celle-ci est généralement réservée aux deux parents (biologiques ou adoptifs), et en complément des parents initiaux, à une personne désignée par l'adoption simple. Un parent doit se déclarer pour être reconnu comme tel.

L'approche anthropologique s'intéresse à toutes les fonctions des parents. Cette approche a permis de rendre compte de la quasi-universalité du système « famille », tout en soulignant des fonctionnements très variables d'une culture à l'autre. Goody puis Godelier ont défini sept dimensions à la parentalité et Godelier a précisé les six types de règles qui régissent tout système familial.

L'approche sociologique permet d'historiciser et contextualiser socialement les grandes évolutions de la famille au cours des dernières décennies. Ainsi, à la suite des changements de lois sur l'autorité parentale et l'augmentation des divorces, le nombre de familles monoparentales a explosé et la beau-parentalité est devenue commune. Le concept de pluri-parentalité s'est alors développé. Enfin, le terme d'homoparentalité a rendu visible une pratique jusqu'à lors cachée et qui évolue en lien avec les récentes lois sur le mariage et l'adoption pour toutes et tous.

L'approche psychologique de la parentalité en France est apparue en 1961 avec Racamier. Désignant alors le processus de maturation du parent, le concept a été repris dans les années 80, et a fait l'objet d'un rapport en 1999 mené par Houzel, définissant la parentalité en trois axes : l'exercice, la pratique, et l'expérience. Ce rapport a servi de support au développement des politiques de soutien à la parentalité et a insisté sur l'importance du maintien du lien au parent, même celui ne pouvant assurer qu'une parentalité partielle. Les études sur la parentalité ont longtemps focalisé sur le vécu individuel des parents. Depuis quelques décennies elles s'intéressent à l'expérience commune et à la notion de coparentalité.

## D. Devenir et être parent – Psychologie de la parentalité

### I. Désir d'enfant

#### 1) L'origine du désir

La notion de désir d'enfant renvoie aujourd'hui à « l'affirmation d'un choix délibéré, [à] la décision sciemment élaborée de faire un bébé » (Gravillon, 2016, p. 28). Cette conceptualisation est assez récente, car autrefois, la société prescrivait de faire des enfants et de les faire dans le cadre du mariage. « Il existait certes un désir d'avoir des enfants, mais pas un désir d'enfant au sens d'une réalité psychologique. Ce dernier était comme censuré, on ne parlait pas comme ça ». (Delassus par Gravillon, 2016, p. 28) Les individus, et surtout les femmes, n'avaient pas la possibilité de penser la procréation en termes de désir personnel. C'était un malheur pour un couple de ne pas avoir d'enfant et une femme inféconde était considérée comme inutile socialement.

L'avènement de la contraception (pilule légalisée en 1967) et la légalisation de l'IVG (Interruption Volontaire de Grossesse) en 1975, ont contribué au changement de paradigme de cette notion ou du moins à l'ajout d'une autre origine au désir d'enfant : la possibilité que celui-ci soit pensé et vécu de façon individuelle et personnelle (Gaille, 2011; Gravillon, 2016; Jacob Alby & Vivès, 2015). Pourtant, tout n'est pas aussi simple que le slogan du Mouvement Français du Planning Familial de la fin des années 70 « Un enfant si je veux, quand je veux ! » (Masquelier-Savatier, 2013). A l'échelle mondiale, cela ne s'applique aujourd'hui qu'à un petit nombre d'individus. Même pour cette minorité, la réalisation du désir reste dépendante de facteurs que le sujet ne peut contrôler, ou que partiellement, tels que la fécondation, le déroulement de la grossesse et de l'accouchement, ainsi que de la santé de l'enfant (Gaille, 2011).

De plus, d'autres aspects sont également identifiés comme étant à l'origine du désir d'enfant. D'un point de vue biologique, le patrimoine génétique est réputé pour être à l'origine chez les hommes et les femmes, comme chez les autres mammifères, des comportements permettant d'assurer la perpétuation de l'espèce (Gaille, 2011). L'âge et la maturité du parent sont d'autres aspects biologiques qui peuvent être à l'origine du désir de parentalité (Roskam et al., 2015). En fonction de ces aspects, l'individu peut estimer qu'il est temps pour lui de devenir parent.

D'un point de vue socio-culturel, le désir d'enfant peut également être motivé par l'envie d'accéder au rôle et au statut social de parent (reconnaissance de la société, et statut financier particulier avec les allocations et congés parentaux) (Roskam et al., 2015). La question du réseau social peut également entrer en jeu, avec le besoin de maintenir des liens avec les amis s'engageant dans la parentalité. Des injonctions sociétales existent aussi, en lien avec l'identité des individus. Ainsi, les enquêtes relèvent que la société continue d'inscrire les femmes dans un devoir de procréation, notamment en perpétuant l'idée que l'identité de femme est liée à la maternité (Debest & Hertzog, 2017). Des injonctions existent également du côté des hommes, notamment à prouver leur puissance et leur virilité en fécondant une partenaire. Cependant, un homme non-père est socialement bien plus accepté qu'une femme non-mère. De façon générale, la psychologisation du désir aurait contribué à transformer l'idéologie du devoir patriotique d'enfanter en une valorisation du désir de devenir mère. Cette valorisation n'en reste pas moins un puissant vecteur de pression sociale (Debest & Hertzog, 2017; Gaille, 2011).

Inévitablement pris dans ces considérations sociales et biologiques, le désir personnel au sens psychologique du terme n'est pas toujours évident à comprendre et à identifier. Ainsi, certains auteurs distinguent volonté (ou envie) d'avoir un enfant, du désir d'enfant (Gravillon, 2016). La volonté correspondrait aux aspects conscientisés de la question et le désir à ses aspects inconscients. Cette sémantique permettrait de modéliser l'ambivalence de nombreuses personnes, ayant un désir ou un non-désir inconscient qui s'oppose à une volonté ou non volonté conscientisée. Pour les psychanalystes ce désir prendrait racine dans l'enfance (Dayan et al., 2014). A titre individuel, le désir d'enfant serait notamment porté par un sentiment de confiance en soi (de pouvoir être un bon parent), des valeurs morales (importance accordée au fait de donner la vie), du développement de soi (être parent comme un moteur à son propre développement) (Roskam et al., 2015).

## **2) Droit à l'enfant et solidarité procréatrice**

Le concept du désir d'enfant dans nos sociétés soulève la question du « droit à l'enfant » et à la façon dont la société organise ce droit et à qui elle le donne (Gaille, 2011; Gravillon, 2016). L'organisation de l'adoption, le développement de l'AMP sont des mesures qui prennent en compte ce droit pour les couples infertiles. Les législations sur le mariage et l'adoption pour toutes et tous, puis l'AMP pour toutes, sont venues renforcer ce droit d'enfant

et le reconnaître à (presque) tous les individus quelle que soit leur orientation sexuelle. Gaille (2011) parle d'une solidarité procréatrice, pour parler de tout ce qui est organisé pour répondre à ce droit d'enfant. Elle précise que cette solidarité peut être pensée dans le cadre de l'intérêt d'un Etat (renouvellement de la population et des générations), mais qu'elle peut également être pensée indépendamment de cet intérêt étatique. En effet, le désir d'enfant émerge généralement dans l'intimité d'un couple ou d'un individu selon sa propre logique, bien souvent sans avoir pour finalité le renouvellement de la population. Dans ce deuxième contexte de pensée, la solidarité procréatrice implique l'acceptation préalable que le désir d'enfant a une forme de légitimité morale, ou « tout au moins de reconnaître à priori qu'il [ce désir d'enfant] peut être l'expression d'un aspect de la vie humaine susceptible de fonder une relation d'aide, qui vaut qu'on se montre solidaire à son égard » (Gaille, 2011, p. 123). Considérer qu'une telle solidarité procréatrice existe dans la société, confère un statut particulier à l'individu désirant un enfant, et demande à ce que la société se donne les moyens de l'aider à faire aboutir ce désir (Gaille, 2011). Ainsi, comme c'est le cas dans notre société, les médecins n'œuvrent plus (seulement) pour prendre en charge des pathologies de la fertilité, mais pour répondre à ce désir d'enfant. Cela suscite bien des questions et des dilemmes sur les limites que doivent avoir ces aides, d'autant que les connaissances scientifiques en termes de procréation restent relativement récentes et les savoirs toujours en construction. Gaille (2011) précise que nous sommes dans un état d'incertitude sur de nombreux sujets liés à ces questions et que nous n'avons actuellement « guère de solution pour faire face à ces dilemmes, sinon d'opter pour la voie du cas par cas, d'accepter les erreurs, les volte-face et l'évolution des prises de position, autrement dit : d'apprendre avec le temps qui passe et les générations qui se succèdent » (Gaille, 2011, p. 160). Si l'on considère les difficultés de conception de plus en plus fréquentes, liées notamment à l'âge de plus en plus tardif de conception des femmes, pourtant significativement moins fécondes après 35 ans, et la baisse spectaculaire de la quantité et de la qualité des spermatozoïdes chez les hommes, ces questions organisant la solidarité procréatrice vont continuer d'animer les débats scientifiques et sociétaux des prochaines années.

Enfin, malgré tous les dispositifs pour répondre à ce droit d'enfant (AMP, ouverture de l'adoption à toutes et tous), de nombreux couples et individus vivent une longue attente avant d'arriver à concevoir ou adopter, et certains finissent même par renoncer à la parentalité. En lien avec le droit à l'enfant, la pression sociale et le désir personnel, cette attente ou ces renoncements (auxquels s'ajoutent souvent des échecs de procréation) font souffrances voire

peuvent être vécus de façon catastrophique ou traumatique (Masquelier-Savatier, 2013). Les psychologues clinicien.ne.s sont, de fait, de plus en plus confronté.e.s à la question de l'accompagnement de l'infertilité, et de l'impossibilité à accéder au désir d'enfant.

## **II. Devenir parent**

Désirer un enfant est la prémisse de la parentalité. La grossesse puis la naissance, ou l'arrivée de l'enfant adopté dans le foyer, marquent l'entrée dans la parentalité. Devenir parent implique nécessairement de nombreux changements dans la vie d'un individu. Les aspects pratiques et organisationnels apparaissent de manière évidente : avoir tout le nécessaire pour s'occuper d'un enfant (vêtements, poussettes, biberons et autres nourritures, couches, définir l'espace qui sera le sien, changer de voiture/logement, trouver un système de garde etc.). En parallèle un changement beaucoup plus discret, et pourtant fondamental, a lieu à l'intérieur de chaque parent. En effet, cet événement est majeur pour l'individu qui le vit, puisqu'il implique l'accès à une nouvelle identité (mère ou père) et de nouveaux rôles. Le processus est modelé par la société et la culture dans lequel s'inscrit l'individu, son histoire personnelle, sa filiation et par le moment où l'enfant arrive dans sa vie. « Malgré l'idée que l'on peut s'en faire, [...] on ne naît pas père ou mère le jour de la naissance de son enfant. On ne devient pas parent à la naissance d'un enfant » (Ben Soussan, 2007, p. 13). Se sentir parent est un processus qui peut aller vite ou prendre un certain temps et certain.e.s, pourront ne jamais se sentir parent d'un enfant dont il.elle était désigné.e comme le parent. De plus, la parentalité et ce sentiment d'être parent évoluent tout au long de la vie de l'individu, de ses interactions avec l'enfant et des familles qui se composent, se défont, ou se recomposent autour de l'enfant.

Depuis les premiers travaux de Paul-Claude Racamier, de nombreuses recherches dans le champ de la psychanalyse, de la psychologie du développement et de la santé se sont intéressées au processus du devenir parent, au départ plutôt chez les mères et plus récemment chez les pères (Houzel, 2002; Roskam, 2015). « Les psychanalystes ont décrit les conflits infantiles réactivés chez les parents par la naissance de leur enfant et par les soins dont il a besoin aux stades précoces (archaïque et œdipien). Les développementalistes ont investigué les changements provoqués par la transition vers la parentalité, dans les caractéristiques individuelles comme la personnalité ou les patterns d'attachement des pères et des mères. Les psychologues de la santé et les psychobiologistes ont, quant à eux, focalisé leur intérêt sur les remaniements hormonaux intervenant chez les parents autour de la

naissance de leur enfant et sur les effets de ces remaniements sur la santé mentale des mères et des pères. » (Roskam, 2015, p. 2) La plupart des études se focalisent sur les parents primipares, alors qu'avoir un deuxième enfant ou plus, est également un événement amenant son lot de chamboulements internes et relationnels (notamment les nouvelles dynamiques familiales et l'instauration de relation de fratrie) (Galdiolo & Roskam, 2015). Cette transition à l'arrivée de chaque nouvel enfant affecte non seulement les parents, mais également les enfants. Sans pouvoir développer la question de façon exhaustive, ni détailler les impacts sur la fratrie, nous présentons ici les grands processus de la transition vers la parentalité et certains modèles théoriques permettant de comprendre la complexité du processus.

### **1) Les composantes biophysiques**

La grossesse est un état qui induit énormément de modifications physiologiques chez la femme (hormonales, du volume et de la composition du sang, de la gestion métabolique des glucides et lipides, digestives, squelettiques, respiratoires, cardiaques, rénales etc.) qui ont pour but d'assurer le bon développement du fœtus et de préparer le corps de la mère à l'accouchement (Bessagnet & Desmoulière, 2023). Les modifications hormonales sont particulièrement importantes, augmentation des œstrogènes et de la progestérone en première ligne, et on observe également l'augmentation des hormones du stress, qui permettent d'une part de préparer la mère aux contraintes de l'accouchement et de l'autre de préparer le fœtus à sa vie extra-utérine. Ces hormones du stress augmentent encore à la naissance pour rediminuer ensuite, mais restent plus élevées pendant le post-partum que pendant la grossesse, pour permettre à la mère de s'adapter aux exigences de son nouveau rôle. Ce qui est intéressant de noter, c'est que certaines modifications hormonales apparaissent chez les femmes, mais également chez les hommes, comme l'augmentation du cortisol chez les pères à la naissance. La testostérone est une hormone qui favorise la libido, particulièrement active lorsqu'un individu recherche un.e partenaire, et dont le taux diminue lorsque l'individu est installé dans une relation stable (Luberti & Carré, 2024). À la naissance d'un enfant, le taux de testostérone diminue de façon importante chez les deux parents et encore plus si le parent s'investit dans les soins et l'éducation de son enfant (Gettler et al., 2011; Grebe et al., 2019; Kuzawa et al., 2010). Ainsi, le parent se focalise sur sa cellule familiale et non sur la recherche d'un.e partenaire. Des niveaux plus bas de testostérone chez les pères à la naissance prédiraient même un meilleur investissement auprès de l'enfant dans les mois

suivants (Kuo et al., 2018). Chez la femme, cette diminution conduit également à une diminution du désir de grossesse pour qu'elle puisse se focaliser sur le nouveau-né. Ainsi, pour les femmes comme les hommes, devenir parent se caractérise par un processus de modification de l'état physiologique.

## **2) Réactivation des conflits internes**

Dans l'approche psychanalytique, la parentalité est un processus mental d'individuation qui amène ou réactive de nombreux conflits internes (Ben Soussan, 2007; Missonnier, 2022). Dès les tous premiers travaux sur le sujet, la parentalité est comprise comme une étape développementale et de maturation de la vie d'un individu (Benedek, 1959). Cette conceptualisation s'appliquait d'abord aux femmes, puis aux hommes, avec l'idée que la parentalité serait à l'origine de changements. Les études suivantes ont permis de conceptualiser qu'en premier lieu, les nouveaux parents doivent se séparer de leurs propres parents pour pouvoir endosser ce nouveau statut. Ils étaient enfants, ils deviennent parents, renversent la situation et renoncent à leur place d'enfant (Ben Soussan, 2007; Cadiz & Passone, 2015). Ensuite, l'entrée dans la parentalité engendre un processus identificatoire à ses propres parents « en réactivant des conflits inconscients avec des images parentales ambivalentes » (Cadiz & Passone, 2015, p. 92). Les interactions avec l'enfant vont amener le nouveau parent à renouer avec ses expériences infantiles. En projetant ses vécus infantiles sur ceux de son enfant, il va alors réactiver certaines blessures internes (Dayan, 2007). Ainsi avec son nouveau rôle, le parent vit une réorganisation psychique. Celle-ci est évolutive et soumise aux différentes étapes de la vie sociale et affective de l'enfant qui peuvent chacune venir réactiver les blessures mal cicatrisées du parent. La projection des états infantiles du parent sur son enfant pourra contribuer à un processus de réparation de ses figures parentales. Si la relation parent-enfant est favorable, le parent peut alors gagner en maturité et estime de soi (Anthony & Benedek, 1970). Dans certains cas la réorganisation psychique est trop complexe, et les réactivations émotionnelles peuvent engendrer un glissement du parent dans la psychopathologie et/ou des troubles du comportement, perturbant généralement la parentalité et la relation à l'enfant (Anthony & Benedek, 1970; Dayan, 2007).

## **3) La parentalité comme expérience transformative**

Dans le domaine de la psychologie développement, devenir parent est considéré

comme un événement de vie majeur du développement à l'âge adulte (Roskam et al., 2015). Cet événement s'apparente à une crise, crise qui peut être le déclencheur de changements de fonctionnement pour l'individu au niveau biologique, psychologique et social.

Ainsi, comme d'autres événements de vie, la parentalité peut induire des expériences transformatives (ET) à l'âge adulte, à l'origine de transformation du self<sup>27</sup> d'un individu. Les ET sont généralement classées selon leur conséquences positives ou négatives. Socialement la parentalité est généralement considérée comme une ET positive. Pourtant, la naissance d'un enfant s'accompagne presque toujours d'un certain nombre de difficultés (stress, fatigue, troubles anxio-dépressifs, perturbations des relations conjugales, impact sur le travail, etc.) sur lesquelles nous reviendrons. Celles-ci impactent plus ou moins sévèrement les parents, pouvant les amener à vivre la parentalité comme une ET négative et, de fait, ressentir des sentiments contradictoires. Depuis les années 2000, des recherches longitudinales ont cherché à observer les changements impliqués par la parentalité, en étudiant l'impact de la transition parentale sur certains facteurs, comme les traits de personnalités et les styles d'attachement. Une étude a par exemple observé que les styles d'attachement<sup>28</sup> des parents restaient très stables contrairement à ce qui était envisagé (Galdiolo & Roskam, 2017). Les résultats concernant les changements de personnalité apparaissent hétérogènes, avec des études trouvant très peu de changements (Galdiolo & Roskam, 2012, 2014), d'autres en observant plusieurs (Asselmann & Specht, 2021; Leikas et al., 2023), notamment moins d'extraversion dans les premières années de parentalité et avec des variations selon l'âge ou du sexe du parent. La poursuite d'études longitudinales sur le temps long permettra de mieux observer et comprendre ces changements possiblement induits par la parentalité en termes d'expérience transformative.

#### **4) La réorganisation identitaire à la naissance/arrivée de l'enfant.**

L'approche développementale s'est également intéressée à l'impact du devenir parent en termes de changement identitaire. Le self des individus est constitué de nombreuses identités (de genre, professionnelle, de couple, en lien avec ses loisirs et passions, en tant qu'ami, en tant que malade etc.) (Abrams, 2004; Goodman, 2018; Roskam et al., 2015). Ces

---

<sup>27</sup> Self : « Ensemble d'images et de conceptions de soi dépendantes d'un processus cognitif qui donne une impression de continuité au sein de sa vie » (Roskam et al., 2015, p. 119).

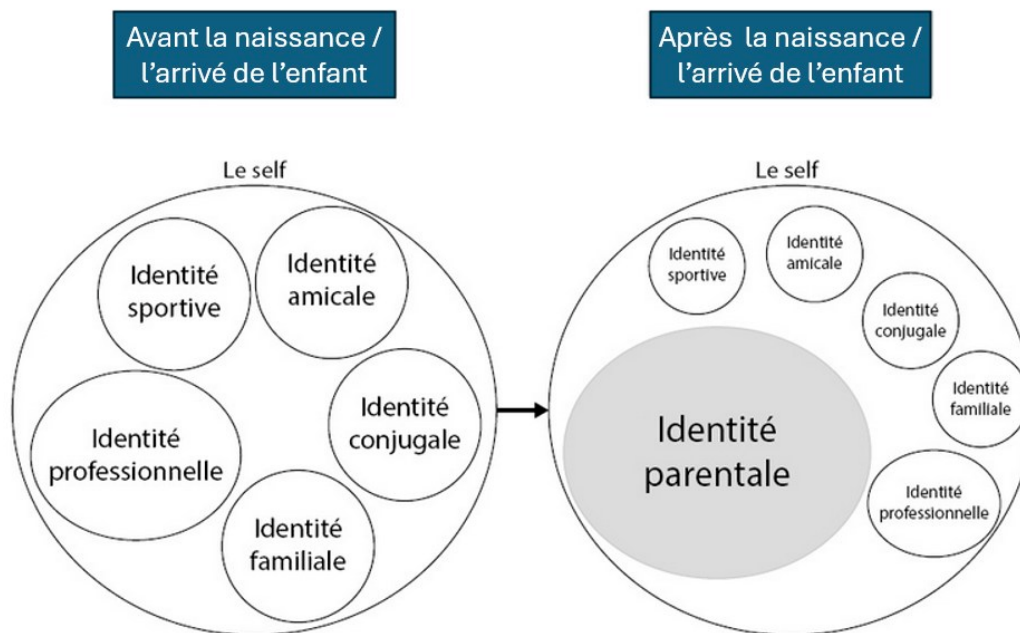
<sup>28</sup> Style d'attachement : référence à la théorie de l'attachement présentée dans la même partie, au chapitre IV. Être Parent, p. 95 (« Rôle affectif : le parent comme figure d'attachement »).

identités ont plus ou moins d'importance en fonction de ce que vit et valorise le plus l'individu. Lorsqu'il.elle devient parent, une nouvelle identité (père ou mère) se développe : l'identité parentale, ou le self parental. Cette notion renvoie à la représentation mentale qu'un individu se fait de son rôle de parent, et de tout ce qui entoure sa relation avec l'enfant duquel il.elle s'identifie parent (Delmore-Ko et al., 2000; Partridge, 1988). Cette identité parentale est composée de plusieurs éléments : les traits de personnalités que l'individu s'attribue en tant que parent, les émotions liées à son vécu de la parentalité, la représentation qu'il.elle a de sa relation avec ses figures parentales, les valeurs, croyances et idéaux véhiculés par la société au sujet de la parentalité, la représentation qu'il.elle a du « parent idéal » et la perception qu'il.elle a de ses comportements en tant que parent, en lien avec l'importance qu'il.elle accorde à son rôle parental (Delmore-Ko et al., 2000; Partridge, 1988).

Selon la théorie de l'identité, les individus cherchent à maintenir une forme d'équilibre entre leurs perceptions d'une situation engageant une de leur identité, l'identité en question et les rôles liés à cette identité (P. J. Burke, 1991; Cast, 2004). Ainsi les individus cherchent à contrôler les situations sociales dans lesquelles ils s'engagent, pour que celles-ci correspondent à leurs identités, et vont chercher à se comporter de manière cohérente avec l'identité engagée dans une situation donnée. L'apparition et l'incarnation de la nouvelle identité parentale va forcer une réorganisation du self et des autres identités, comme l'illustre la Figure 13 (Goodman, 2018). Les individus doivent revoir leur façon d'investir les autres identités pour trouver un équilibre cohérent dans cet ensemble plus complexe, d'autant plus que l'identité parentale va légitimement prendre beaucoup de place. Ainsi certaines identités vont être comme « mises en pause » pendant un temps, prendre moins de place ou disparaître totalement. On observe par exemple, et assez classiquement, une mise en pause de l'identité professionnelle des mères suite à l'accouchement et, chez les hommes comme les femmes une diminution de la place prise par l'identité de couple au profit de celle de parent (C. P. Cowan et al., 1985; Goodman, 2018).

**Figure 13.**

*Réorganisation des sous-identités d'un nouveau parent*



*Note. Figure issue de l'ouvrage de Roskam et Mikolajczak (Goodman, 2018)*

Cette réorganisation est majoritairement vécue de façon positive. De nombreux individus trouvent de la satisfaction dans leur nouvel équilibre, notamment car leur rôle parental leur donne la sensation d'être une meilleure personne (Delmore-Ko et al., 2000), améliore leur sentiment de bien-être et de bonheur, particulièrement pour les femmes et lors de l'arrivée du premier enfant, et parce qu'il est vécu comme quelque chose qui apporte du sens à leur vie (Aassve et al., 2012; Baranowska & Matysiak, 2011; Myrskylä & Margolis, 2014; Yu et al., 2019). L'augmentation des sentiments positifs serait majorée par un accès tardif des parents à la parentalité, un niveau élevé d'éducation des parents et le fait de vivre dans un pays ayant des politiques plus favorables aux familles (Aassve et al., 2012; Myrskylä & Margolis, 2014).

Certains facteurs faciliteraient une transition positive dans la parentalité, comme le fait de percevoir la parentalité comme un aspect normal de la vie, prendre du plaisir à voir l'enfant grandir, être préparé.e et avoir des connaissances sur la parentalité, se sentir soutenu.e socialement, recevoir du soutien professionnel et des informations sur le parcours de santé (Barimani et al., 2017). Il arrive néanmoins que devenir parent soit globalement mal vécu, voire que l'individu regrette d'être devenu parent. Cela arrive notamment quand l'individu ne s'épanouit pas, ou pas autant qu'il.elle l'avait imaginé, dans son rôle parental et lorsqu'il.elle a

du mal à faire le deuil de sa vie d'avant (Goodman, 2018). De nombreux facteurs peuvent également perturber la transition vers la parentalité, comme le fait d'avoir des attentes irréalistes, le sentiment de stress ou de perte de contrôle, le manque de sommeil, le manque de soutien et d'information de la part des professionnel.le.s de santé, le manque de préparation et d'information à la réalité de la situation de parent (Barimani et al., 2017), ou encore la nouvelle répartition plus inégalitaire des rôles dans le couple (traditionnellement la mère qui arrête de travailler, pendant que le père continue de travailler) (Mickelson & Marcussen, 2023). Enfin, cette nouvelle identité de parent peut aussi conduire à l'épuisement lorsque le parent la surinvestit au détriment des autres (Goodman, 2018).

### **III. Développement de la parentalité – Stades parentaux**

Selon l'approche développementale, la parentalité est considérée comme une étape du développement d'un individu adulte. Malgré une augmentation du nombre d'adultes ne voulant pas d'enfant, la parentalité reste d'ailleurs une forme de norme puisqu'une très grande majorité d'individus (entre 78 et 80% en France) ont eu au moins un enfant dans leur vie (Maurin, 2021; Mickelson & Marcussen, 2023; Robert-Bobée, 2006). Dans cette conception, devenir parent renvoie donc à une identité qui se construit, s'intègre et évolue, à un rôle qui s'apprend et change avec l'âge de l'enfant et en lien avec la vie propre de l'adulte. Ainsi, plusieurs théories ont cherché à modéliser cette notion de développement de la parentalité, notamment en postulant que les parents traversent toutes et tous des stades de maturation de leur parentalité. Voici comment certaines de ces théories ont pensé et articulé cette notion de développement de la parentalité.

#### **1) Stades psychanalytiques**

En parallèle de son travail décrivant la parentalité comme une étape développementale dans la vie d'un individu, Benedek (1959) a théorisé la parentalité en termes de stades parentaux. Ainsi elle postule que la parentalité se vit au travers de trois grandes phases de vie. Il s'agit de trois phases assez larges, aux contours assez flous : la petite enfance où il y a une forme de parentalité totale avec l'enfant qui semble appartenir complètement aux parents, l'adolescence où les parents expérimentent le début du phénomène du « nid vide », et la grand-parentalité où les parents s'occupent de leurs petits-enfants.

## 2) Stades cognitifs parentaux de Newberger

A l'image des travaux de Piaget<sup>29</sup> (1935) sur les grandes étapes de développement intellectuel des enfants, des travaux ont cherché à identifier des étapes de développement psycho-cognitif parental. Ainsi, dans sa thèse de doctorat, Newberger (1980) a développé le concept de « parental awareness » pour parler des mouvements cognitifs et psychologiques internes du parent. Ce concept de conscience parentale doit être compris comme un système interne où s'organise un ensemble de connaissances avec lequel le parent va comprendre les réactions et les comportements de son enfant pour pouvoir ensuite y répondre. Elle postule qu'il existe plusieurs étapes dans la conscience parentale. Idéalement les parents avanceraient jusqu'au dernier niveau et auraient ainsi conscience d'aspects plus complexes concernant leur enfant et leurs interactions avec celui-ci. Les quatre stades sont les suivants :

- Niveau 1 : l'orientation égoïste. Le parent n'a conscience de son enfant qu'en projetant sa propre expérience sur celui-ci. Ses actions parentales sont organisées uniquement en lien avec ses propres besoins.
- Niveau 2 : l'orientation conventionnelle. Le parent comprend son enfant grâce à des ressources extérieures (culture, tradition, autorité). Les actions parentales s'organisent autour de pratiques et recommandations socialement établies.
- Niveau 3 : l'orientation subjective individualisée. Le parent a conscience de l'individualité de son enfant. Ainsi ses actions parentales ne s'organisent plus autour d'obligations prédéterminées socialement, mais en lien avec la reconnaissance et l'identification des besoins propres de l'enfant.
- Niveau 4 : l'orientation interactionnelle. Le parent a conscience que, tout comme lui, son enfant est un système psychique indépendant et changeant et que leurs deux systèmes interagissent et s'influencent mutuellement. Le parent comprend alors que dans sa relation à son enfant il est possible de trouver un équilibre prenant en compte plus seulement les besoins de l'enfant, mais également les siens.

Avec cette théorie, Newberger postule qu'il existe un lien entre le niveau de conscience parentale et les comportements parentaux. Ainsi elle a pu observer que les parents ayant un

---

<sup>29</sup> Piaget a théorisé le développement intellectuel de l'enfant en quatre grandes stades 0-2 ans, stade sensorimoteur. 2-7 ans, stade préopératoire. 7-12 ans stade opératoire concret. 12-16 ans, stade formel. Piaget présente l'évolution de l'intelligence des enfants comme linéaire avec la nécessité de passer par un stade pour accéder au suivant. Sa théorie a posé les fondements de la psychologie développementale. Certains de ces aspects ont été en question par les recherches récentes.

faible niveau de conscience parentale (niveau 1) sont plus à risque de présenter des difficultés dans leur rôle parental (Newberger, 1980; Newberger & Cook, 1983). Les négligences et maltraitements parentaux sont par ailleurs observées chez des parents ayant un faible niveau de conscience parentale. La Figure 14 présente la modélisation de l'influence du niveau de conscience parentale sur le bon fonctionnement du rôle parental. Ce modèle a également permis d'observer que le niveau de conscience parentale augmentait avec l'âge des individus et n'était lié ni au sexe, ni au groupe ethnique, ni au statut social (Newberger & Cook, 1983).

**Figure 14.**

*Interaction du niveau de conscience parentale et de la relation parent-enfant*

|                                       |                | <i>Average Level of Reasoning</i> |                                |
|---------------------------------------|----------------|-----------------------------------|--------------------------------|
|                                       |                | <i>Low Parental Awareness</i>     | <i>High Parental Awareness</i> |
| <i>Average Expectable Environment</i> | <i>Stress</i>  | High Probability of Dysfunction   | Possible Dysfunction           |
|                                       | <i>Support</i> | Possible Dysfunction              | Low Probability of Dysfunction |

*Note. Figure issue de l'article de Newberger (1980)*

Malgré son haut niveau de fiabilité, ce modèle présente néanmoins quelques limites (Roskam et al., 2015). Notamment, la réalité du processus de maturation de conscience parentale n'est, dans les faits, ni fixe, ni linéaire. De plus, le modèle focalise sur des caractéristiques intrinsèques sans prendre en compte l'environnement socio-culturel. Enfin en termes cliniques, ce modèle peut être problématique car stigmatisant pour les parents qui n'accèdent pas au niveau de conscience supérieur considéré comme le « meilleur » stade.

### 3) Les six stades de la parentalité selon Galinsky

D'autres théories ont proposé des modèles plus généraux et incluant des données bio-psycho-sociales et comportementales. En s'appuyant sur la théorie du développement adulte

de Levinson<sup>30</sup>, Galinsky a conceptualisé le développement parental en six stades (Tableau 5) (Galinsky, 1987). A chaque stade est associé une étape développementale de l'enfant et une tâche parentale à accomplir. Les tâches parentales sont à accomplir sur le plan psycho-cognitif, comportemental et/ou relationnel avec l'enfant. L'accomplissement d'une tâche permet au parent de progresser et de transitionner vers le stade suivant. Selon ce modèle, une réalisation partielle ou nulle d'une des tâches parentales menacerait la suite du développement parental.

**Tableau 5.**

*Six stades de développement parental selon Galinsky*

| Stade                                                               | Age de l'enfant                        | Tâche à accomplir                                                                                                                                                                                                                           |
|---------------------------------------------------------------------|----------------------------------------|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| <b>1 : Image-making stage</b><br><i>Stade de créations d'image*</i> | Projet d'enfant/ grossesse – naissance | Préparation à la parentalité : imagination de l'enfant à venir (enfant rêvé). Le parent doit anticiper des changements à faire pour s'adapter à la nouvelle vie et au nouveau rôle, et préparer l'accouchement.                             |
| <b>2 : Nurturing stage</b><br><i>Stade de l'éducation</i>           | 0 – 2 ans                              | Confrontation aux différences entre l'enfant-rêvé et de l'enfant réel. Le parent doit s'adapter à l'enfant réel et s'y attacher (devenir la base sécurité qui permettra à l'enfant d'explorer le monde).                                    |
| <b>3 : Authority stage</b><br><i>Stade de l'autorité</i>            | 2 – 5 ans                              | Le parent doit endosser la responsabilité éducative de l'enfant (fixer les règles, communiquer efficacement, gérer les conflits, soutenir l'autonomie etc.).                                                                                |
| <b>4 : Interpretive stage</b><br><i>Stade d'interprétations</i>     | 5 – 12 ans                             | Le parent doit accompagner les enfants dans la compréhension de leur expérience du monde (répondre aux questions, apporter des connaissances, aider au développement de valeurs morales chez l'enfant et à sa confrontation avec d'autres). |
| <b>5 : Independant stage</b><br><i>Stade de l'indépendance</i>      | Adolescence                            | Le parent doit accepter les transformations physiques, psychiques et identitaires de l'enfant, le développement de sa sexualité et la re-modélisation de la relation parent-enfant que toutes ces transformations imposent.                 |
| <b>6 : Departature Stage</b><br><i>Stade du départ</i>              | Début de l'âge adulte                  | Le parent doit accepter la séparation et l'individuation de l'enfant, et établir de nouveaux modes relationnels au sein de la famille et du couple.                                                                                         |

*Note. \* traductions autodidactes, vocabulaire non consacré en français*

Ce modèle est très pertinent lorsque l'on s'intéresse aux histoires individuelles des parents et qu'on souhaite resituer certains événements dans l'histoire de leur parentalité ou de leur vie personnelle (Roskam et al., 2015). En revanche, il apparait trop linéaire par rapport

<sup>30</sup> Levinson : a développé entre 1976 et 1978 un modèle du développement adulte, dans lequel la vie d'un individu est un cycle constitué d'une succession d'étapes, appelées « structures de vie ». Ces structures de vie débutent et se terminent à un certain âge, et les phases de transitions entre deux structures permettent à l'individu de réexaminer la structure qu'il quitte pour la modifier et entrer dans la nouvelle (Bédard, 2009).

à la réalité du processus (Demick, 2002), et il focalise trop sur l'impact de l'âge de l'enfant sur le passage à un stade, alors que d'autres éléments peuvent également générer le changement. Il ne prend ainsi pas en compte les paramètres socio-culturels qui rentrent en jeu et oublie les aspects propres du parent. Enfin, il ne situe pas clairement les éléments marquant le début ou la fin d'un stade.

#### **4) Approche holistique**

Notamment en critiquant le modèle de Galinsky, Demick (2002) a proposé une approche holistique du développement parental, prenant en compte les aspects psychologiques de l'individu (affects, cognitions, comportements) et les composantes environnementales. Dans sa proposition, l'individu et l'environnement sont en interaction et ne peuvent être pensés indépendamment l'un de l'autre. Le développement de la parentalité est conçu comme quelque chose de non linéaire, comme une succession de progrès et régressions à mettre en lien avec les capacités propres de l'individu d'atteindre des objectifs qu'il.elle s'est fixé.e à court ou long terme. Selon cette approche, l'expérience du parent varie donc en fonction de son environnement et le parent cherche continuellement à s'adapter et à trouver de nouveaux équilibres dans son rôle parental et dans sa relation à l'enfant. Demick (2002) propose certaines polarités, liées à certains types d'expériences, sur le continuum desquelles les réponses des parents peuvent varier (Tableau 6).

**Tableau 6.**

*Continuum des réponses parentales possibles sur l'axe de certaines polarités*

| Fonctionnement minimal                                                                                                                                                                            | Continuum                                                       | Fonctionnement optimal                                                                                                                                                                                                         |
|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|-----------------------------------------------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| <b>Interfused (Mélangé*)</b><br><i>Absence de différenciation</i><br>Le parent répond à toutes les volontés de l'enfant                                                                           | Différenciation et hiérarchisation des<br>buts et des fonctions | <b>Subordinated (Subordonné)</b><br><i>Différenciation optimale</i><br>Le parent peut distinguer les buts à courts vs à long terme et les organiser pour décider à quelles demandes de l'enfant il peut répondre positivement. |
| <b>Syncrétic (Syncrétique)</b><br><i>Fusion</i><br>Le parent ne distingue pas ses états mentaux, ou ses sentiments de ceux de son enfant                                                          | Capacités à distinguer les<br>phénomènes mentaux                | <b>Discrete (Distinct)</b><br><i>Distinction</i><br>Le parent distingue les états mentaux qui lui sont propres à ceux de son enfant                                                                                            |
| <b>Diffuse (Diffus)</b><br><i>Perception de la structure comme uniforme et homogène</i><br>Le parent perçoit et juge son enfant au travers d'une expérience brève                                 | Prise en compte de la complexité des<br>structures              | <b>Articulate (Articulé)</b><br><i>Perception d'une structure comme un tout composée de différentes parties.</i><br>Le parent perçoit et juge son enfant sur une impression générale constituée de nombreuses expériences      |
| <b>Rigid (Rigide)</b><br><i>Comportement non flexible</i><br>Le parent est inflexible concernant un comportement (aspect éducatif), quelle que soit la prise en compte de celui-ci par son enfant | Niveau de rigidité d'un<br>comportement                         | <b>Flexible</b><br><i>Comportement qui peut évoluer</i><br>Le parent peut adapter son comportement en fonction de son enfant et du contexte de la situation                                                                    |
| <b>Labile</b><br><i>Comportement inconstant</i><br>Le parent change fréquemment les réponses et règles données à l'enfant                                                                         | Constance du comportement                                       | <b>Stable</b><br><i>Comportement constant</i><br>Le parent est cohérent et constant dans les réponses et règles qu'il donne à l'enfant                                                                                         |

*Note. \* traductions autodidactes, vocabulaire non consacré en français*

En considérant que le parent est malléable et a la capacité de vivre de nombreux changements, cette approche permet de mieux prendre en compte la réalité du fonctionnement quotidien des parents, que les modèles précédents (Roskam et al., 2015). Elle implique également que le développement d'un parent est incessant. Ainsi le parent serait un être inscrit dans un processus développemental potentiellement constant, pouvait être perturbé par des éléments intrapersonnels, intrapersonnels et environnementaux.

### En résumé :

Le désir d'enfant prend ses origines dans des facteurs biologiques, socio-culturels et individuels. Auparavant dicté par la société, la question de la procréation a pu, avec l'avènement de la contraception, se déplacer sur le registre plus individuel du choix de chacun d'être ou non parent. Ce changement de paradigme soulève la question du droit à l'enfant, et la question de la solidarité procréatrice que ce droit sous-tend.

Devenir parent se vit en premier lieu dans le corps, notamment avec la grossesse chez la femme, et avec les modifications hormonales chez les deux parents. En parallèle et selon l'approche psychanalytique, devenir parent implique la réactivation de conflits psychiques et une réorganisation psychique. En psychologie développementale, l'accès à la parentalité est considéré comme une crise dans la vie d'un individu, qui génère une expérience transformative. Une réorganisation identitaire est également à l'œuvre en lien avec la création de l'identité parentale et le remaniement des autres sous-identités. L'expérience transformative et la réorganisation identitaire associées à la parentalité peuvent être plus ou moins bien vécues par le parent.

Devenir parent est à la fois une étape développementale de la vie d'un adulte et quelque chose qui se développe au cours de la vie du parent. Ce développement se fait sur le plan cognitif (niveaux de conscience parentale), par stades correspondant à des étapes de vie (stades de Benedek ou de Galinsky), et dans une recherche incessante d'équilibre dans le rôle de parent, en lien avec l'environnement et la relation à l'enfant (approche holistique).

## IV. Être parent

Dans le cadre de la parentalité, la psychologie s'intéresse depuis longtemps à décrire, entre autres, comment le parent exerce sa parentalité en termes d'affectivité, de lien à l'enfant, de style éducatif, et ce qui détermine ces styles et autres comportements parentaux. Contrairement à la systémie qui considère la famille comme un tout étant plus que la somme de parties, les études empiriques en psychologie de parentalité ont distingué des sous-ensembles au sein la famille, pour pouvoir comprendre et opérationnaliser les relations familiales (Roskam et al., 2015). Dans cette optique, la famille est décomposée en systèmes relationnels, notamment des systèmes verticaux (relations parents-enfants) impliquant une hiérarchie et une différence de pouvoirs et des systèmes relationnels horizontaux (relations parent-parent ou enfant-enfant) au sein desquels les individus se perçoivent comme semblables. Ces distinctions ont permis d'étudier les interactions entre les individus d'un système, et plus particulièrement dans le système parent-enfant. Ce chapitre propose de présenter l'être parent au travers de certaines théories qui ont modélisé certains phénomènes en jeu au sein du système parent-enfant, notamment le rôle affectif et éducatif des parents auprès de l'enfant et les déterminants parentaux.

### 1) Rôle affectif : le parent comme figure d'attachement.

La théorie de l'attachement, développée par Bowlby (1969) et largement reprise et étudiée depuis, postule que le bébé est, de façon innée, motivé à chercher la proximité et la protection d'un adulte. Par différents types de comportements (pleurs, sourires, déplacements), le bébé va tenter de s'assurer cette proximité avec l'adulte, afin de faire face à son inconfort physique, sa peur et sa détresse psychique. Avec ces comportements, le bébé active ce qu'on appelle son système d'attachement et sollicite l'intervention de sa figure d'attachement, c'est à dire la personne en charge de prendre soin de lui, généralement un parent. En réponse aux comportements de l'enfant, la figure d'attachement va activer un système de « caregiving », à savoir tous les comportements visant à assurer la proximité avec l'enfant et son réconfort (Cassidy, 2008). L'activation de ce système de caregiving est dépendant de signaux internes (hormones, croyances, état physique et psychologique) et externes (état physique et psychologique de l'enfant, environnement hostile ou rassurant) (Cassidy, 2008; George & Solomon, 2008). Lorsque le système de caregiving du parent est activé, le système d'attachement du bébé ne l'est pas (ou peu) et l'enfant a la possibilité

d'explorer l'environnement. L'enfant qui sait pouvoir compter sur sa figure d'attachement en cas de besoin (même si elle n'est pas physiquement présente), va la percevoir comme une base de sécurité, lui permettant de se sentir bien et d'explorer. Lorsque le parent est en incapacité d'activer ou de maintenir activé son système de caregiving, l'enfant active son système d'attachement pour chercher réconfort et proximité, et arrête alors d'explorer. Selon cette théorie, le parent, en tant que figure d'attachement, joue ainsi un rôle affectif essentiel dans la vie de l'enfant. De plus, il contribue activement au développement des futurs modes relationnels de son enfant. En effet, à partir des réponses données par sa ou ses figures d'attachement à ses comportements, et notamment des patterns récurrents, le bébé intériorise des fonctionnements relationnels. Il développe ainsi des Modèles Internes Opérants (MIO), qui seront la base de ses relations à l'autre. Les MIO sont définis comme « un ensemble de règles conscientes ou inconscientes concernant l'organisation des informations pertinentes en lien avec l'attachement ainsi que l'accès à ces informations » (Main et al., 1985; Roskam et al., 2015, p. 65). Les MIO permettent d'anticiper, d'interpréter (donner du sens) et de guider les interactions entre individus et sont à l'image de la confiance en soi et à l'autre. Au cours de sa vie et de ses interactions, chaque individu internalise plusieurs MIO qui sont plus ou moins spécifiques et plus ou moins interreliés entre eux. Ainsi certains MIO sont très généraux et permettent de s'adapter à un grand nombre de situations relationnelles et d'autres sont plus spécifiques et permettent de s'adapter de façon plus précise à une situation relationnelle donnée. Les MIO vont s'activer en fonction de trois facteurs : la force du MIO (nombre d'expériences à partir duquel il s'est formé et nombre de fois où il a été utilisé de façon fonctionnelle), son adéquation avec la situation relationnelle et son niveau de spécificité (il y a généralement une utilisation préférentielle des MIO plus spécifiques) (Collins, 2003; Collins & Read, 1994). Les MIO basés sur les expériences parents-enfants étant très forts et hautement spécifiques, ils ont de fait une grande probabilité d'être activés dans de nombreuses situations relationnelles de proximité. Ils sont notamment assez déterminants chez les adultes devenus parents de leur façon d'interagir avec leur propre enfant.

En s'appuyant sur la théorie de Bowlby, et grâce à une expérience étudiant les réactions de bébés dans le cadre de séparations/retrouvailles avec leur mère, Ainsworth (1978) a ensuite catégorisé les enfants selon trois styles d'attachement :

- Groupe A : attachement insécure évitant
- Groupe B : attachement sécure
- Groupe C : attachement insécure ambivalent

Les recherches suivantes ont permis de révéler un quatrième groupe (D) avec un attachement désorganisé (Main & Solomon, 1986). Cette typologie en quatre groupes est aujourd'hui la plus utilisée. Les enfants du groupe B sont des enfants qui, de manière constante, bénéficient de réponses suffisamment rapides et adaptées à leurs besoins par leurs figures d'attachement. Les figures d'attachement de ces enfants sont impliquées dans la relation et présentent des systèmes de caregiving flexibles et équilibrés. Leur façon de répondre les rend dignes de confiance et laisse la place à l'expression des émotions de l'enfant. Grâce à ces interactions répétées de qualité, l'enfant construit une image de soi positive et développe la confiance en sa capacité de maîtriser ce qui lui arrive. Les enfants du groupe A bénéficient de figures d'attachement moins adaptées dans leurs réponses. Les figures d'attachement ont tendance à suractiver leur système de caregiving et à se montrer surprotectrices avec l'enfant, voire intrusives et excessivement affectueuses, tout en pouvant parfois être indisponibles pour répondre aux besoins de l'enfant. Les enfants de ce groupe suractivent le système d'attachement. Les enfants du groupe C bénéficient de figures d'attachement manifestant peu d'émotion et qui n'apprécient pas la proximité nécessaire au système de caregiving. Les enfants apprennent à désinvestir la sphère affective au profit de la sphère explorative et désactivent le système d'attachement.

Ces trois styles d'attachement sont aujourd'hui considérés comme organisés, même les insécures. Les styles d'attachement des groupes B et C seraient des styles organisés en adaptation aux caractéristiques des figures d'attachement (Green & Goldwyn, 2002). Les enfants du groupe D n'entrent dans aucune des catégories précédentes et sont ceux qui n'ont pas réussi à organiser un système d'attachement fonctionnel. Ils présentent « tous des comportements désordonnés, incomplets, de la confusion ou de l'appréhension envers la figure d'attachement » (Green & Goldwyn, 2002; Roskam et al., 2015, p. 72). Le système de caregiving des figures d'attachement de ces enfants est généralement dérégulé par les propres angoisses de l'adulte ou restreint par de faibles ressources psychologiques. Ces figures d'attachement se sentent alors incapables de protéger et prendre en charge l'enfant et/ou évitent les situations d'attachement pour ne pas vivre la sensation de perte de contrôle face à la détresse de l'enfant (George & Solomon, 2008).

Le style d'attachement d'un individu apparaît comme relativement stable au cours de sa vie, sans pour autant être figé. Aujourd'hui, on considère qu'il résulte d'une interaction entre des caractéristiques individuelles et environnementales, et qu'il doit être vu non comme un prédictor direct de la santé mentale, mais comme un facteur de protection ou de risque.

Cette théorie est centrale dans la façon de penser le développement individuel et les interactions parent-enfant. Elle permet de penser le parent dans son rôle affectif auprès de l'enfant, notamment en termes de base de sécurité, et de base relationnelle en générale.

## 2) Rôle éducatif : Les styles parentaux

Baumrind (1971, 1978), a été pionnière dans la recherche sur les styles éducatifs en développant la théorie des styles parentaux. En étudiant d'un côté les interactions et comportements sociaux d'enfants de 3 à 6 ans et de l'autre, les comportements à domicile et le discours de leurs parents, elle a mis en évidence une corrélation entre les types de comportements des enfants et des styles parentaux particuliers. Elle a tout d'abord relevé trois styles parentaux : autocratique, démocratique, et permissif. Par la suite, son travail lui a permis de distinguer deux styles au sein du style permissif : le style permissif et le style désengagé. Ces styles sont fondés sur deux grandes dimensions : le contrôle et le soutien. La dimension du contrôle renvoie au niveau d'encadrement de l'enfant et aux exigences du parent envers l'enfant. La dimension du soutien renvoie au niveau d'attention porté à l'enfant et l'encouragement de son individualité et de son indépendance. Selon leur style parental, les parents ont des niveaux de contrôle ou de soutien élevés ou faibles, comme le présente le Tableau 7.

**Tableau 7.**

*Niveau de soutien et de contrôle du parent selon son style éducatif (Baumrind, 1971, 1978)*

|                    | Style démocratique | Style autocratique | Style permissif | Style désengagé |
|--------------------|--------------------|--------------------|-----------------|-----------------|
| Niveau de contrôle | Elevé              | Elevé              | Faible          | Faible          |
| Niveau de soutien  | Elevé              | Faible             | Elevé           | Faible          |

Dans le style parental démocratique, les parents instaurent un cadre important tout en permettant à l'enfant d'être autonome, notamment en expliquant les règles et en étant à l'écoute de ses besoins individuels. Ce style apparait comme le style optimal, favorisant chez les enfants des plus grands niveaux d'indépendance, de responsabilité sociale, d'ajustement en général, et de réussite scolaire (Baumrind, 1991; Baumrind et al., 2010; Bosca & Cojocaru, 2023; Maccoby & Martin, 1983). Dans le style autocratique, les parents instaurent un cadre

strict et valorisent l'obéissance au détriment de l'individualité et l'autonomie de l'enfant. Ce style parental est associé à plus de difficultés chez les enfants, notamment en termes de communication, d'interactions sociales, et d'estime d'eux-mêmes (Baumrind et al., 2010; Maccoby & Martin, 1983). Dans le style permissif, les parents prônent la bienveillance avec l'enfant, n'imposent pas de cadre et laissent l'enfant prendre les décisions bien qu'il/elle puisse ne pas être assez mature pour le faire. Les enfants de ces parents sont généralement moins persévérants, plus impulsifs et présentent plus d'immaturité affective (Baumrind, 1971; Baumrind et al., 2010; Maccoby & Martin, 1983). Dans le style désengagé, les parents imposent peu de cadre et se montrent détachés émotionnellement. Ils sont impliqués au minimum dans leur rôle parental, et poussé à l'extrême, ce style parental est considéré comme de la négligence. Il est corrélé avec de nombreuses difficultés chez les enfants, comme des difficultés de régulation émotionnelle, de faibles performances scolaires, des troubles de l'humeur et des difficultés sociales (Baumrind, 1991; Baumrind et al., 2010).

Les styles parentaux ont fait l'objet de nombreuses études pour étudier leurs conséquences sur les enfants et d'autres paramètres. Il a notamment été montré qu'il existait un lien entre le style d'attachement du parent et ses comportements éducatifs (P. A. Cowan et al., 1996; George & Solomon, 1996). Ainsi, le parent présentant un attachement et des MIO de type sécure, a plus de chance d'utiliser des comportements éducatifs de soutien. À l'inverse, un parent avec un attachement insécure, une image négative de lui-même et d'autrui aurait plutôt recours à des comportements éducatifs de contrôle. Ce lien a été observé chez les mères comme les pères (P. A. Cowan et al., 1996; Madigan et al., 2007; Roskam et al., 2011).

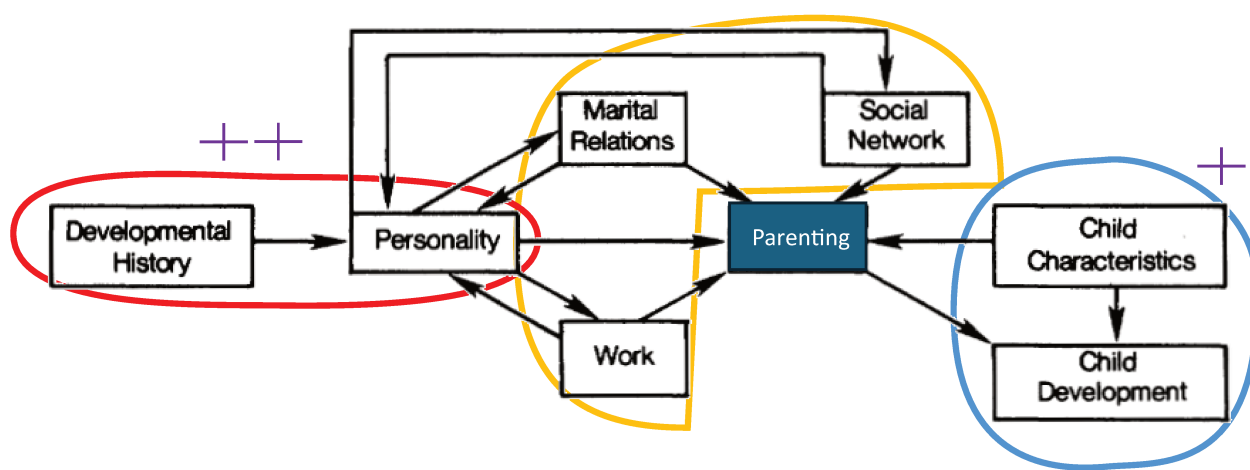
### **3) Les déterminants parentaux**

Afin de comprendre pourquoi les parents exercent leur parentalité d'une certaine façon, Belsky (1984) s'est basée sur la littérature existante pour proposer un modèle pionnier expliquant les déterminants de comportements parentaux. Les comportements parentaux désignent tout ce que les parents mettent en œuvre pour que l'enfant réalise certains comportements et pour favoriser son développement ; cela renvoie à des notions telles que le style éducatif et les attitudes parentales. Dans son modèle (Figure 15), Belsky avance que la parentalité est multi-déterminée et que les comportements parentaux seraient influencés par trois types de facteurs : les caractéristiques du parent, celles de l'enfant et le contexte social. Les caractéristiques du parent comprennent la personnalité du parent et toutes les expériences de développement du parent, notamment ses patterns d'attachement,

l'éducation reçue et la qualité de la relation avec ses propres parents. Les caractéristiques de l'enfant renvoient aux traits de personnalité de l'enfant, son tempérament, et les difficultés qu'il rencontre (handicap, maladie, trouble du développement notamment). Le contexte social renvoie au contexte de vie du parent (situation maritale, professionnelle, type de famille et nombre d'enfants, relations sociales) ainsi que les ressources à sa portée et les stressseurs auxquels il est confronté en termes financier, matériel, d'habitat, de garde d'enfant, d'accès aux loisirs, etc.

**Figure 15.**

*Modèle des déterminants parentaux*



**Légende :** Caractéristiques du parent Caractéristiques de l'enfant Contexte social  
 + : poids des caractéristiques en tant que déterminants

*Note. Figure issue de l'article de Belsky (1984). Nous avons ajouté les éléments en couleur*

Belsky précise que certains facteurs sont plus déterminants que d'autres. Ainsi les facteurs relevant du parent ont plus de poids que ceux de l'enfant, ayant eux-mêmes plus de poids que ceux du contexte social. Elle ajoute que l'histoire développementale et la personnalité du parent déterminent indirectement les comportements parentaux, et influencent d'abord tout le contexte de la relation parent-enfant, notamment le contexte conjugal, professionnel et social du parent.

Ce modèle présente de nombreux intérêts tant sur le plan empirique que clinique. Sur le plan empirique il a été testé de nombreuses fois et a permis de mettre évidence que, dans les caractéristiques parentales, les cognitions du parent (croyances et théories à propos du développement et de l'éducation et l'enfant) étaient un déterminant très fort de la parentalité

et d'observer l'existence de liens entre types de personnalités et attitudes parentales (ex : le névrosisme<sup>31</sup> est un facteur de risque d'inconstance dans les comportements éducatifs, quand l'extraversion est plutôt liée à une parentalité stimulante et cadrante), sans pour autant que les troubles de la personnalité suffisent à expliquer une parentalité délétère (Prinz et al., 2009). Il a également permis d'observer que les styles éducatifs n'étaient que partiellement transmis entre les générations (Bailey et al., 2009). Du côté des déterminants de l'enfant, il a permis de montrer l'influence du comportement et du tempérament de l'enfant sur les comportements éducatifs du parent. Ainsi plus l'enfant présente des comportements socialement inadaptés et des difficultés de régulation émotionnelle, plus le parent aura des comportements de contrôle et un style éducatif moins chaleureux (Meunier et al., 2011). Le modèle transactionnel, présenté dans la partie suivante, apporte un éclairage supplémentaire à ce sujet. Au niveau environnemental, le niveau de revenu, le niveau d'éducation et la relation conjugale notamment, impactent la parentalité. Ainsi, le stress quotidien provoqué par un faible revenu peut mettre à mal la qualité de la relation parent-enfant (Flouri et al., 2010), un certain niveau d'éducation confère au parent plus de capacités de résolution de problème et de flexibilité mentale qu'il peut mobiliser dans sa parentalité (Hoghugh & Long, 2004), enfin des conflits au sein du couple impactent négativement la relation parent-enfant (Kitzmann, 2000).

Sur le plan clinique, le modèle de Belsky permet de proposer des interventions de soutien à la parentalité qui considèrent les difficultés parentales comme multi-déterminées et non comme relevant seulement des caractéristiques du parent (Roskam et al., 2015). Les trois types de facteurs permettent également de développer différents axes d'intervention (parent, enfant, environnement), et la considération de leur poids inégal permet de prioriser certains axes en lien avec les situations.

#### **4) Modèle transactionnel**

En s'intéressant à la question du développement de l'enfant, Sameroff et Chandler (Sameroff & Chandler, 1975) ont proposé l'utilisation du modèle transactionnel de la parentalité pour expliquer les fonctionnements familiaux. C'est un modèle écologique large, qui postule que les comportements d'un individu sont le fruit, non pas uniquement des

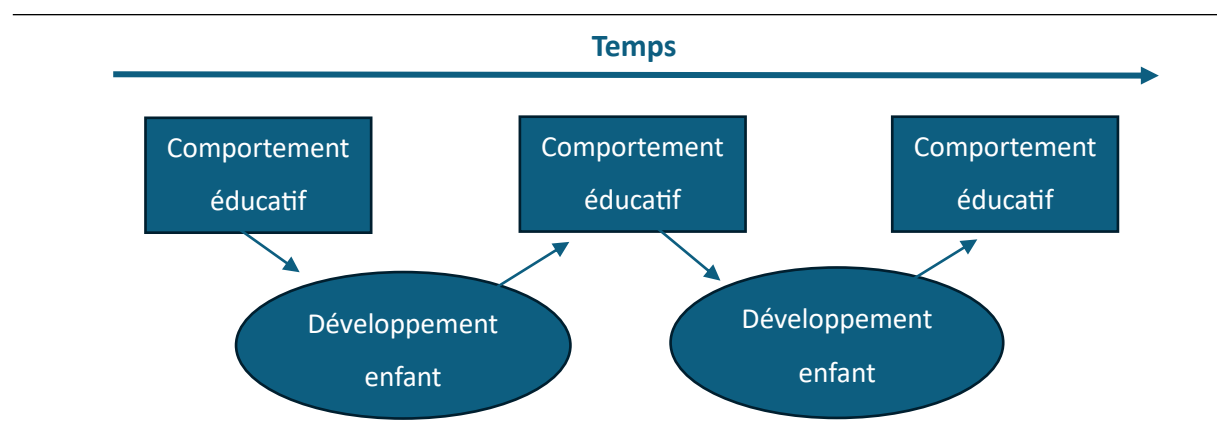
---

<sup>31</sup> Névrosisme : type de personnalité prédisposée à ressentir des émotions négatives (colère, anxiété, dépression).

interactions de celui-ci avec son environnement, mais d'une transaction continue entre l'individu et l'environnement (Fiese & Sameroff, 1989; Sameroff, 1975; Sameroff & Chandler, 1975). Ce modèle est intéressant pour comprendre la question de l'être parent, puisque qu'il relève l'existence dans le temps d'une influence bidirectionnelle, entre l'enfant et son parent. Ainsi l'un et l'autre se développent au sein de leurs interactions, le parent et l'enfant sont les individus qu'ils sont parce qu'ils interagissent ensemble. Plus concrètement, ce modèle postule une succession de transactions, comme illustré en Figure 16, au cours desquelles les enfants se développent et se comportent d'une certaine façon en réponse à des comportements éducatifs, et où les parents adoptent certains comportements éducatifs en réponse au développement et comportement de leur enfant. Les agissements de l'un ont ce qu'on appelle un effet récursif (capacité à se répéter indéfiniment) sur les agissements de l'autre. La transaction avec l'enfant est donc un déterminant supplémentaire de la façon dont le parent exerce sa parentalité.

**Figure 16.**

*Transactions parent-enfant selon le modèle transactionnel de la parentalité*



La nécessité d'évaluer le modèle en mesures répétées sur du temps long et avec des analyses complexes pour observer les effets bidirectionnels rendent le modèle plus difficile à valider empiriquement. Cependant, plusieurs études ont montré des effets réciproques négatifs entre des comportements de contrôle parental et de problèmes de comportements de l'enfant à différents âges (Combs-Ronto et al., 2009; Larsson et al., 2008; Meunier et al., 2011), entre une moins bonne qualité de comportements parentaux et des difficultés comportementales des enfants (Ahmad et al., 2024). D'autres études ont montré l'existence d'effets récursifs entre des conduites d'opposition de l'enfant et une discipline non constante

(J. D. Burke et al., 2008) ou entre les comportements problématiques de l'enfant et des comportements éducatifs négatifs maternels (Zadeh et al., 2010).

Sur le plan clinique, ce modèle a permis notamment de proposer des interventions à destination des psychologues pédiatriques pour prendre en charge les difficultés des enfants sous le prisme des transactions familiales et autrement qu'en regard soit des problématiques de l'enfant soit de celles du parent (Fiese & Sameroff, 1989).

## **5) Sentiment de compétence parentale et attribution causale**

Le modèle de Belsky a permis de montrer l'importance majeure des cognitions parentales en tant que déterminants de la parentalité. Pour conclure ce chapitre sur l'être parent, nous souhaitons présenter deux types de cognitions parentales : les attributions causales et le sentiment de compétences parentales. Ces concepts éclairent la façon dont les cognitions impactent la façon d'exercer la parentalité et nous avons observé qu'ils étaient souvent mobilisés dans les récits des participant.e.s de notre étude.

### **a) Les attributions causales**

Dans sa quête perpétuelle de sens, les individus ont tendance à attribuer des causes aux événements qu'ils vivent ou observent, notamment à leurs comportements ou à ceux des autres (Augoustinos et al., 2006). En termes de parentalité, cette notion est importante car les explications qu'un parent donne aux comportements de son enfant vont directement impacter sa réponse émotionnelle et comportementale. On peut considérer l'explication des attributions causales selon trois dimensions : le locus de contrôle<sup>32</sup> (interne ou externe), la stabilité (versus l'instabilité), le contrôle (versus l'absence de contrôle). En termes de locus, les comportements des enfants peuvent donc être expliqués soit par des caractéristiques internes et dispositionnelles (ex : sa personnalité), ou être expliqués par des caractéristiques situationnelles (ex : maladie du parent) (Himelstein et al., 1991). En parallèle du locus, la cause du comportement peut être plus ou moins stable (ex : un handicap est une cause stable, alors qu'un choix personnel est une cause malléable), et plus ou moins contrôlable (ex : les habitudes ou attitudes parentales sont contrôlables contrairement à certains événements de

---

<sup>32</sup> Locus de contrôle : lieu de contrôle ou de maîtrise. C'est la croyance de l'individu sur ce qui détermine ou explique un événement. Lorsque le locus est interne, la personne considère qu'il a une influence sur les événements (via sa personnalité, son tempérament ou son intelligence par exemple). Lorsque le locus est externe, la personne considère que l'influence dépend de facteurs extérieurs sur lesquelles il n'a pas de prise (hasard, conditions environnementales, les autres etc.).

vie, comme un épisode aigu de la maladie du parent). Ainsi, face à des comportements d'enfants similaires, l'attribution causale, c'est-à-dire l'interprétation de ces comportements, peut varier d'un parent à l'autre. Cela influence directement les réponses parentales.

#### **b) Le sentiment de compétence parentale**

Pour qu'un parent soit investi dans sa parentalité, il est essentiel qu'il ait confiance dans ses capacités à assumer ce rôle et qu'il croit en son pouvoir éducatif. Ainsi il est intéressant d'observer de quoi se nourrit le Sentiment de Compétence Parentale (SCP). Cette notion est basée sur le concept de sentiment de compétence développé par Bandura (1977), qui renvoie à la confiance d'un individu en sa capacité à pouvoir réaliser avec succès un comportement. Le SCP fait lui référence à la capacité que ressentent les parents d'influencer positivement le comportement et le développement de leur(s) enfant(s) (Coleman & Karraker, 1998, 2000). En se référant à la théorie initiale de Bandura, le SCP implique un certain nombre de connaissances concernant la parentalité et le développement de l'enfant, et un certain niveau de confiance du parent en ses aptitudes parentales (Coleman & Karraker, 1998). Ces deux pôles sont prédictors de la réussite du parent à assumer son rôle de façon adaptée et en lien avec sa vision de la parentalité. Ce SCP va se développer à partir de quatre grandes sources d'information : les feed-backs, l'expérience vicariante, la persuasion verbale et les états physiologiques et émotionnels. Ainsi le SCP est fortement influencé par les feed-backs tirés des interactions actuelles et passées entre le parent et l'enfant. Des interactions généralement apaisées vont renforcer le SCP, contrairement aux interactions difficiles et conflictuelles. Le SCP va également être influencé par l'observation d'autres parents engagés dans des tâches parentales similaires (expérience vicariante). En confrontant ses pratiques à celle des autres (observation et partage d'expérience), le parent modifie son SCP de façon plus ou moins positive. Les retours formulés par d'autres (persuasion verbale) sur les comportements parentaux influencent également le SCP. Concernant les personnes extérieures impliquées dans l'expérience vicariante et la persuasion verbale, plus la personne est proche du parent (fratrie, famille, ami.e très proche), plus l'impact sur le SCP sera important. Enfin l'état physiologique (niveau de tension, fatigue, douleurs) et les émotions liées à l'exécution d'une tâche parentale, influencent également le SCP. Par exemple, un parent tendu et fatigué pourra ressentir de l'appréhension face une tâche parentale à exécuter avec son enfant, ce qui affaiblira son SCP.

### En résumé :

Sur le plan affectif, être parent c'est offrir un système de caregiving adapté aux besoins de l'enfant et à l'activation de son système d'attachement. Le système de caregiving permet à l'enfant de percevoir son parent comme une base de sécurité sur laquelle s'appuyer psychiquement pour explorer son environnement. Les interactions parents-enfants forgent des MIO qui servent de références à l'enfant pour ses interactions sociales. En fonction de l'adéquation entre les systèmes de caregiving et d'attachement, les enfants vont s'organiser selon un certain style d'attachement (sécure, insécure évitant, insécure ambivalent et désorganisé). En termes de parcours de vie, ces styles d'attachement doivent être vus comme des facteurs de protection ou de risque pour les individus. Le style sécure offre le plus de protection et le style désorganisé confronte au maximum de risques.

Sur le plan éducatif, quatre grands styles ont également été observés, basés sur le niveau de contrôle et de soutien du parent : autocratique, permissif, démocratique et désengagé, vis-à-vis de son enfant. Le style démocratique est décrit comme le style optimal pour le bon développement des enfants, et le style désengagé est celui associé avec le plus de difficultés comportementales et émotionnelles chez les enfants. Il existe des liens entre les styles d'attachement et les styles éducatifs parentaux.

Selon le modèle de Belsky, la parentalité est déterminée par trois types de facteurs : les caractéristiques individuelles du parent, les caractéristiques de l'enfant et le contexte environnemental. Les caractéristiques du parent ont plus de poids que celles de l'enfant, qui ont plus de poids que l'environnement. Les études basées sur ce modèle ont notamment montré l'influence fondamentale des cognitions parentales sur la parentalité et permis d'identifier certains facteurs de l'enfant et de l'environnement ayant des influences notables.

Le modèle transactionnel postule que la parentalité résulte non pas juste d'interactions entre le parent et l'enfant, mais qu'elle est la résultante de transactions entre les deux parties. Le parent et l'enfant s'influencent mutuellement et en permanence.

Enfin, l'attribution causale et le SCP sont des cognitions parentales jouant un rôle essentiel dans la parentalité. L'interprétation du comportement de l'enfant à partir des trois dimensions de l'attribution causale (locus, stabilité, et contrôlabilité) influence la réponse du parent au comportement. Le SCP prédit la capacité d'un parent à assumer ses tâches parentales. Il se renforce ou s'affaiblit au cours des interactions avec l'enfant, en fonction que le parent les juge réussies ou ratées.

## V. Impacts négatifs de la parentalité et bien-être parental

De nombreuses études ont documenté l'impact de la parentalité en termes de santé mentale. Certaines ont observé qu'être parent était un prédicteur d'une meilleure santé mentale en milieu de vie (Kalucza et al., 2015). En parallèle, de nombreuses études ont observé que la parentalité pouvait être associée à des troubles anxio-dépressifs de sévérité variable, des troubles psychotiques et du stress pouvant parfois conduire jusqu'au burn-out. Au sein de ces nosographies, certaines pathologies sont spécifiques à la parentalité, comme la dépression du post-partum, la psychose puerpérale ou le burn-out parental. Nous allons présenter succinctement les différents troubles fréquemment observés chez les parents.

Afin de rester dans le champ de la parentalité « typique » et en lien avec notre étude qui excluait les parents avec des troubles psychotiques, nous ne développerons pas ici la notion de la psychose puerpérale qui est une maladie psychiatrique grave et touchant uniquement 1 à 2 femmes pour 1000 (Ameli.fr, 2023a).

Nous présenterons ensuite les impacts possibles de la parentalité sur la relation conjugale, et certaines problématiques de la parentalité adoptive. Nous finirons en étudiant la notion du bien-être des parents.

### 1) Troubles dépressifs et parentalité

#### a) Troubles dépressifs et dépression du post-partum

La dépression du post-partum (DPP) est une complication fréquente, puisque selon une revue systématique de littérature, elle touche 10 à 20% des femmes dans le monde durant l'année suivant leur accouchement (Woody et al., 2017). En France hexagonale, sa prévalence était de 16,7% en 2021 (Doncarli et al., 2023). Les mères présentent « une tristesse intense et inexplicable, une labilité émotionnelle, des troubles du sommeil, des croyances négatives avec un sentiment de culpabilité, une perte d'intérêt pour le nourrisson, une dépréciation de [leurs] compétences maternelles, voire des idées suicidaires » (Ameli.fr, 2025a). Les grandes classifications des troubles psychiatriques considèrent que la DPP apparaît dans les 4 semaines (DSM-5<sup>33</sup>) ou 6 semaines (CIM-11<sup>34</sup>) post-accouchement (Doncarli et al., 2023). Cependant, les

---

<sup>33</sup> DSM-5 : Manuel Diagnostic et Statistique des troubles mentaux, 5<sup>ème</sup> édition (American Psychiatric Association, 2013)

<sup>34</sup> CIM-11 : Classification Internationale des Maladies, 11<sup>ème</sup> édition (Organisation Mondiale de la Santé, 2019)

troubles dépressifs<sup>35</sup> apparaissant avant la fin de la première année post-accouchement sont généralement considérés comme rentrant dans le cadre de la DPP. De récentes études ont montré que les pères (5 à 10,4% d'entre eux) pouvaient également traverser un syndrome similaire à la DPP décrite chez les mères, qui se déclare généralement un peu plus tardivement que chez les mères (Gawlik et al., 2014; Paulson & Bazemore, 2010; Tissot et al., 2019). En diminuant ce que Ainsworth a appelé la « sensibilité maternelle » (capacité à comprendre les émotions et signaux de communication du bébé), la DPP perturbe les capacités des parents à s'accorder à l'enfant et à répondre à ses besoins, et, par conséquent, perturbe l'instauration de liens d'attachement sécurisés, (Tissot et al., 2019). Les études ont relevé différents facteurs de risque à ces DPP, certains étant liés à la mère (notamment âge élevé, antécédents de dépression et de troubles psychiatriques auto-déclarés, anxiété et/ou dépression pendant la grossesse, accouchement difficile, césarienne, sentiment d'un manque d'auto-efficacité, personnalité très introvertie, névrosisme) (Bell et al., 2016; O'hara & Swain, 1996; Perren et al., 2005; Robertson et al., 2004; Verkerk et al., 2005; Weisman et al., 2010) ou au père (symptômes anxieux ou dépressifs pendant la grossesse) (Gawlik et al., 2014), d'autres à l'enfant (tempérament difficile, problème de santé) (Britton, 2011; Howell et al., 2006; McGrath et al., 2008), et d'autres à l'environnement (manque de soutien social perçu, difficultés financières, faible satisfaction conjugale, survenue d'événements stressants pendant la grossesse ou au début du post-partum, dépression chez la mère) (Bell et al., 2016; Howell et al., 2006; Milgrom et al., 2008; O'hara & Swain, 1996; Paulson & Bazemore, 2010; Robertson et al., 2004).

D'autres épisodes dépressifs, en lien avec la parentalité, peuvent survenir par la suite. Ils sont liés à certains facteurs de risque similaires à ceux de la DPP, notamment ceux liés à l'enfant, et le risque serait majoré dans le cadre de trouble du spectre autistique de l'enfant (Benson, 2018; Vasilca & David, 2018). On observe en revanche d'autres types de facteurs de risque liés à la mère : jeune âge, célibat, être migrante, victime de maltraitance dans l'enfance ou de violences domestiques, faible revenu, logement instable, stress important, consommation excessive d'alcool (Delaney, 2017; Kim et al., 2018; Liang et al., 2019).

---

<sup>35</sup> Les troubles dépressifs : sont caractérisés par trois grands symptômes : humeur dépressive, abattement, et perte d'énergie, auxquels s'associent au moins deux autres symptômes (comme des troubles cognitifs (concentration, mémorisation), une perte d'appétit, des troubles du sommeil, des sentiments de culpabilité et d'inutilité, une diminution de l'estime de soi, idées suicidaires) sur une période d'au moins deux semaines (American Psychiatric Association, 2013).

## **b) Troubles anxieux et parentalité**

Bien que l'anxiété soit souvent une comorbidité de la dépression, les troubles anxieux<sup>36</sup> postnataux ont été beaucoup moins étudiés que la dépression du post-partum (Mickelson & Marcussen, 2023). C'est un sujet qui a peu mobilisé la recherche avant 2005, et le DSM-5 n'a pas classifié l'anxiété périnatale comme un trouble à part entière (American Psychiatric Association, 2013). Pourtant l'anxiété est souvent une comorbidité de la dépression et est très répandue pendant la grossesse et après l'accouchement. Elle peut se manifester seule ou associée à une DPP (Dennis et al., 2017; Fairbrother et al., 2016). Ainsi une méta-analyse a relevé que, durant la première année post-accouchement, le taux de prévalence global des troubles anxieux chez les femmes était de 15,2%, et de 4,1% pour les troubles anxieux généralisés (anxiété généralisée et persistante) (Dennis et al., 2017). En France hexagonale et en 2021, la prévalence des troubles anxieux chez les femmes était de 27,6% deux mois après leur accouchement (Doncarli et al., 2023). De façon générale, les mères auraient un niveau élevé d'anxiété pendant le post-partum, qui tendraient à diminuer vers les 12 mois de l'enfant (Dennis et al., 2018). Concernant les pères, une revue systématique de littérature a relevé que la prévalence de l'anxiété chez les pères (tous niveaux d'anxiété confondus) s'élevait entre 4,1% et 16% en période prénatale et entre 2,4 et 18% en période postnatale (Leach et al., 2016). Une méta-analyse a recensé des études ayant observé un lien entre l'anxiété périnatale paternelle et la dépression maternelle, les difficultés conjugales, ou le stress parental. Dans leurs analyses, les auteurs ont trouvé que le stress parental était un facteur de risque pour l'anxiété paternelle périnatale (Chhabra et al., 2020).

## **c) Stress et parentalité**

Devenir et être parent amènent les individus à vivre de nombreuses expériences/périodes génératrices de stress. Le stress correspond à « l'ensemble des modifications biopsychologiques qui émergent chaque fois que l'individu a l'impression que ses ressources (temps, capacités...) sont insuffisantes pour faire face aux demandes de l'environnement » (Mikolajczak, 2015, p. 13-14).

---

<sup>36</sup> Les troubles anxieux : renvoient à des symptômes de type : peur intense, inquiétude excessive, attente avec appréhension. 6 grands troubles anxieux sont répertoriés : le trouble anxieux généralisé, le trouble obsessionnel compulsif, le stress post-traumatique, le trouble panique et la phobie sociale, troubles qui peuvent se manifester en post-natal (M. L. Jacob & Storch, 2013).

Nous l'avons vu, le niveau des hormones de stress augmente chez la femme durant la grossesse, et ce particulièrement pendant le premier et le troisième trimestre (Bessaguet & Desmoulière, 2023; Da Costa et al., 1999). On parle de stress ou d'anxiété prénataux et les concepts de stress ou d'anxiété spécifiques à la grossesse renvoient eux aux différents stressseurs que la mère perçoit au sujet de sa grossesse et de l'état de santé de son fœtus (complications, douleurs, troubles fœtaux etc.). Idéalement, le système de stress reste modérément activé, mais les interactions entre les prédispositions de la mère à ressentir du stress ou de l'anxiété, les événements de vie stressants survenant pendant la grossesse (décès de proches, séparation, perte d'emploi, catastrophes naturelles etc.) et le stress spécifique à la grossesse, peuvent générer une suractivation du système (Da Costa et al., 1999; Lorenzino & Mikolajczak, 2015). Au sein des différents types de stressseurs auxquels une femme enceinte est exposée, le stress spécifique à la grossesse est reconnu comme le facteur le plus prédictif de l'accouchement prématuré [augmentation du risque] et d'un poids de naissance moins élevé, voire trop bas (Dole et al., 2003; Kramer et al., 2009; Lobel et al., 2008). Il serait également responsable, dans certains cas, de conduites à risques pour la santé de la mère et du fœtus (alimentation déséquilibrée, augmentation du tabagisme et de la prise de caféine, diminution de l'activité physique) (Lobel et al., 2008). Les événements de vie majeurs, comme le décès d'un proche pendant la grossesse peuvent également impacter négativement la durée de la grossesse (Dole et al., 2003; Dunkel Schetter & Lobel, 2012), et dans certains cas, engendrer des malformations congénitales du fœtus (Dunkel Schetter & Lobel, 2012). Comme précédemment évoqué, les pères sont également confrontés à la question du stress et de l'anxiété prénataux (Chhabra et al., 2020).

Une fois l'enfant né, tout parent est confronté en permanence à une triple injonction : répondre aux besoins de son enfant, continuer à fonctionner normalement sur le plan personnel, conjugal et professionnel, et satisfaire les attentes de la société (enfant en bonne santé, bon citoyen, éduqué) (Mikolajczak, 2015). Le parent doit répondre à ces injonctions quel que soit l'état de son enfant (niveau de santé, capacités et comportements) et le sien (disponibilité, niveau de fatigue). En parallèle le parent doit également penser à s'occuper de lui afin d'être en capacité d'assumer toutes les tâches et missions qui lui incombent. Ainsi, être parent augmente l'exposition des individus à des stressseurs. Cinq grands types de stressseurs ont été identifiés dans le contexte de la parentalité, partagés par tous les parents :

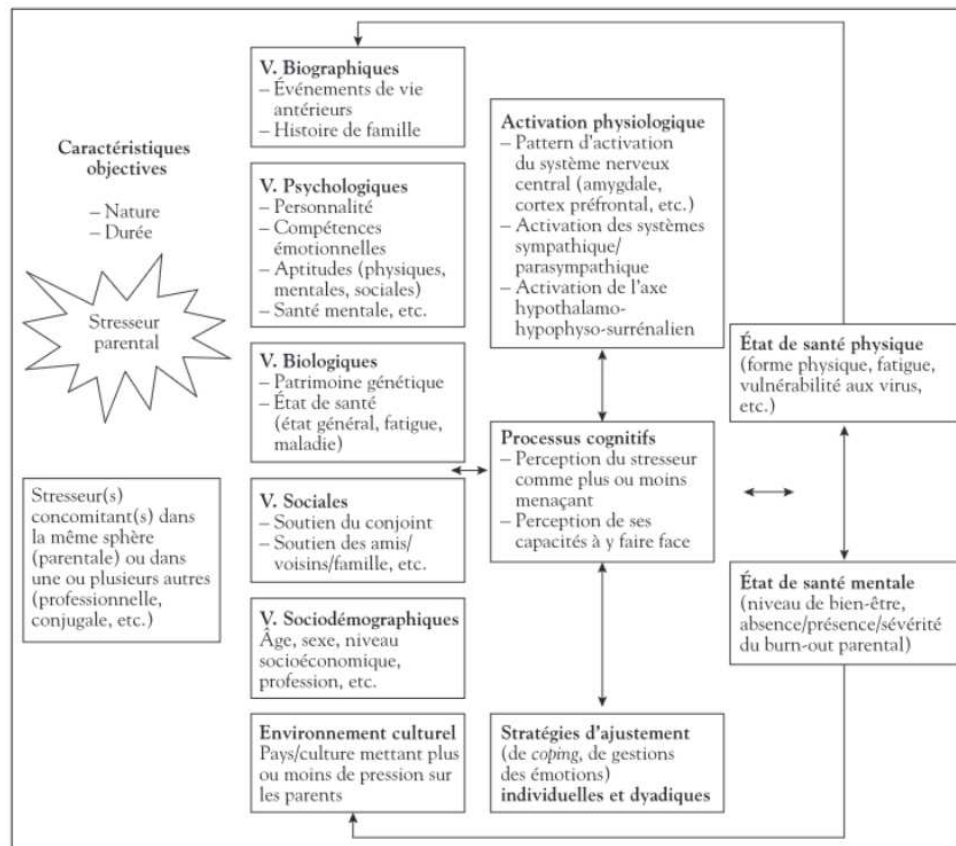
- les stressseurs liés à la transition vers la parentalité
- les stressseurs liés à ce qui pourrait arriver aux enfants

- les stressseurs liés à l'immaturation de l'enfant ou de l'adolescent
- les stressseurs liés aux projections du parent quant à ce qui est bon pour les enfants
- les stressseurs liés aux exigences que se fixe le parent

Un autre type de stressseurs peut s'ajouter pour certains parents: les difficultés effectives de l'enfant (pathologie et handicap notamment) (Mikolajczak, 2015). A ces stressseurs s'ajoutent ceux externes à la parentalité (travail, ressources financières, couple, maladie du parent etc.). Ainsi, les parents font face au défi de gérer plus de stressseurs qu'avant et ce dans un contexte où la fatigue, souvent inhérente aux premières années de vie des enfants, diminue leurs ressources. Le stress peut alors apparaître de façon aiguë, ou se chroniciser. Heureusement, être parent est également générateur d'une augmentation d'émotions positives liées à l'enfant et au rôle de parent (satisfaction, émerveillement, joies, nouveau sens à la vie etc.) (Nelson et al., 2013). Ainsi, ces émotions positives temporisent les stressseurs, ce qui explique que de nombreux parents arrivent à faire face à cette augmentation de stressseurs sans développer de difficultés psychopathologiques. De plus, le stress est considéré comme ayant une origine biopsychosociale. Cela signifie que les stressseurs affectent un individu de façon indirecte et que le niveau d'impact dépend de multiples autres facteurs (prédisposition génétique au stress, forme physique, état psychologique, soutien social etc.) qui vont majorer ou minorer les effets des stressseurs. Ainsi Roskam et Mikolajczak (2015) ont adapté différents modèles pour proposer un modèle biopsychosocial du stress parental (Figure 17). Ce modèle permet d'illustrer la complexité du processus et sa non-linéarité en termes d'impact sur la santé mentale et physique de l'individu. Il permet tout d'abord de s'intéresser aux caractéristiques objectives du stressseur, et d'observer que celui-ci peut être concomitant à d'autres. Le modèle postule qu'un stressseur ne va pas être perçu de la même façon en fonction du contexte individuel de la personne (caractéristiques psychologiques, biologiques, socio-démographiques, histoire personnelle) et de ses contextes social et culturel. Ces variables individuelles et socio-culturelles influencent et interagissent avec la façon dont l'individu réagit et répond au stress sur le plan physiologique et cognitif, ainsi qu'avec les stratégies qu'il met en place (seul ou avec son partenaire) pour s'ajuster. Le type de réponses utilisées face au stressseur impacte ensuite l'état de santé mentale et physique, qui sur du long terme vient modifier les variables individuelles.

**Figure 17.**

*Modèle biopsychosocial du stress parental*



*Note. Figure issue de l'ouvrage de Roskam et Mikolajczak (2015)*

Ce modèle a permis d'identifier plusieurs facteurs de risques au stress parental. Certains facteurs relèvent des parents : niveau de dépression élevé, difficultés à effectuer les tâches parentales (soin à l'enfant, surveillance, rdv médicaux), stratégies d'ajustement centrées sur l'émotion, perception négative de la maladie/ du handicap de l'enfant, manque de ressources pour y faire face. D'autres facteurs relèvent de l'enfant (type de handicap) et d'autres de l'environnement, comme le manque de soutien social perçu, particulièrement de la part du conjoint, ou l'insatisfaction conjugale.

Sur le plan clinique ce modèle donne une grille de variables à investiguer qui permet de contextualiser la demande et de donner des pistes de prise en charge des parents stressés. Dans leur ouvrage, Roskam et Mikolajczak (2015) proposent de plus des pistes concrètes d'accompagnements, notamment dans le domaine des compétences émotionnelles.

### **Le burn-out parental**

Lorsque que le stress chronique lié à la parentalité devient trop intense, dure longtemps et que les ressources continuent à manquer, le parent est à risque de développer un « burn-out parental ». Sa prévalence est de 8% (Roskam et al., 2018) et à l'image du burn-out dans le cadre du travail, il se caractérise par la présence concomitante de symptômes relevant de plusieurs dimensions (Mikolajczak & Roskam, 2018; Roskam et al., 2018). On relève trois dimensions au burn-out parental : l'épuisement physique et émotionnel, la distanciation affective avec les enfants et la perte de plaisir à être parent. Dans la première dimension, le parent n'a plus d'énergie ni de ressource pour assumer ses tâches parentales. Cette dimension correspond à la première phase du burn-out et prédit le développement des autres types de symptômes (Roskam & Mikolajczak, 2021). Il a la sensation d'être totalement vidé et ne retrouve pas son énergie même après plusieurs bonnes nuits. Le parent agit alors en « pilote automatique » et effectue le strict minimum avec ses enfants. La deuxième dimension, la distanciation affective avec les enfants est probablement un mécanisme de défense face à l'épuisement. Sans arrêter de les aimer, le parent se désinvestit de la relation. Il n'a plus les capacités de montrer son amour à ses enfants, ni de s'investir dans la relation autrement que dans le cadre des routines à effectuer (comme l'alimentation, le coucher ou la dépose à l'école). En lien avec la fatigue et ce désinvestissement, le parent ne prend pas ou plus de plaisir à ces activités. A ces symptômes, s'ajoutent la sensation d'un contraste entre ce que le parent a été et celui qu'il est devenu. Le parent a conscience de la différence et en ressent généralement de la honte et une perte de considération de lui-même en tant que parent. Pour que le diagnostic soit posé, il n'est pas nécessaire que le parent présente les trois premiers types de symptômes. Il faut que 60% de ceux-ci soient présents de façon sévère. En revanche, la notion de contraste est un signe clinique nécessaire pour parler de burn-out parental. En effet, un parent qui a toujours été distant, ou trop épuisé pour s'occuper de ses enfants n'est pas en burn-out parental. Le burn-out parental aurait une incidence sur l'apparition de difficultés pour le parent : troubles de santé, addictions aux substances (alcool, caféine, anxiolytiques) ou comportementales (jeux, travail), irritabilité et colère, dépression. Il pourrait également générer des difficultés conjugales, des violences verbales ou physiques envers les enfants (Mikolajczak et al., 2019; Roskam et al., 2022).

Certains facteurs apparaissent protecteurs contre le stress et le burn-out parental, particulièrement les compétences émotionnelles (Mikolajczak et al., 2006, 2007). Ainsi la capacité du parent à identifier, comprendre, verbaliser et gérer ses émotions (et celles des

autres) sera plus résistant au stress. Le fait de faire face à un stresser avec le co-parent va généralement diminuer l'impact de celui-ci (Mikolajczak et al., 2018). Ces deux aspects peuvent être travaillés et accompagnés sur le plan clinique, en parallèle des pratiques parentales.

## **2) Impact conjugal de la parentalité**

Si la parentalité vient bouleverser l'identité et le fonctionnement individuel, elle perturbe également l'ordre établi au sein du couple. De nombreuses études ont montré que l'arrivée d'un enfant avait des répercussions négatives sur le couple, notamment en termes de satisfaction maritale et d'intimité (Ahlborg et al., 2009; Doss et al., 2009; Doss & Rhoades, 2017). Ceci impacte le bien-être et la santé mentale des parents, mais également ceux de l'enfant (Sroufe, 2005). De plus, des difficultés de relations entre les parents peuvent affecter le type d'attachement, une mauvaise qualité relationnelle au sein du couple étant associée à un attachement plus insécure de l'enfant (Finger et al., 2009; Wong et al., 2009).

Pendant longtemps, un focus a été mis sur l'étude des impacts négatifs de la parentalité. Pourtant, de nombreuses recherches rapportent également des effets positifs de la parentalité sur le couple. Concernant l'impact perçu de la parentalité sur la relation conjugale, une revue systématique de littérature portant sur des études qualitatives a montré que la transition vers la parentalité avait des impacts positifs et négatifs (Delicate et al., 2018). Cette revue révèle que globalement les parents expérimentent une phase d'ajustement à leur nouveau rôle de parent, qui impacte leur proximité, leur vie sexuelle et la répartition des tâches, ce qu'ils vivent de façon plus ou moins négative. La communication en pâtit souvent et de nouveaux conflits apparaissent, mais certains parents ne le vivent pas négativement et arrivent à les dépasser. Les parents sont également très focalisés sur leur bébé ce qui, pour certains, génère de la frustration et du manque vis-à-vis de leur partenaire, quand d'autres le vivent comme une nouvelle façon de se connecter et de se rapprocher de leur partenaire. En termes d'intimité, certains expérimentent une diminution de l'affectivité et de la vie sexuelle, quand d'autres vivent une amélioration dans l'un ou l'autre des champs. Enfin, certains parents expriment ne pas avoir été préparé à ces changements de relation. Ainsi, la parentalité peut menacer sérieusement la relation de certains couples, mais également renforcer celle d'autres couples. Il existe donc beaucoup de variabilité entre les couples.

Les recherches s'intéressent aujourd'hui à comprendre les facteurs de risque et les facteurs protecteurs de la relation conjugale après l'arrivée de l'enfant. Certaines études ont notamment observé des associations entre la qualité de la relation et la satisfaction concernant la répartition des soins à l'enfant (Adamsons, 2013). Une répartition égalitaire des tâches parentales serait corrélée avec une meilleure qualité relationnelle perçue pour les hommes comme les femmes (Carlson, 2022). Pourtant, même si la proportion des couples avec une répartition des tâches se voulant égalitaire a largement augmenté, de nombreuses études ont montré que, dans les couples hétérosexuels, les femmes portent toujours davantage la charge du travail domestique et des soins aux enfants, et ce même dans les couples égalitaires (Lachance-Grzela & Bouchard, 2010). De façon générale, lorsqu'un premier enfant arrive dans la famille, les femmes ont tendance à augmenter leur temps de travail (payé ou non payé) d'environ 3 heures par jour, à diminuer leur temps de travail payé pour augmenter leur temps de travail domestique, et à assurer la plus grande partie des soins à l'enfant. Cependant, en termes de coparentalité, les parents percevant le style parental de leur partenaire comme proche du leur, ont un meilleur niveau de santé mentale (Mickelson & Marcussen, 2023). Un accompagnement prénatal des couples pour communiquer sur leurs attentes vis-à-vis de leur conjoint.e en termes de parentalité et de répartitions des tâches pourrait être un moyen pertinent pour favoriser une meilleure qualité de relation conjugale (Adamsons, 2013).

### **3) Adoption et parentalité**

L'adoption concerne aujourd'hui une minorité de personnes devenues parent. Cependant, de nombreux parents de notre étude y ont eu recours pour faire face à leur infertilité. Ainsi, nous souhaitons présenter certains aspects liés à l'adoption, notamment car les parents adoptifs sont confrontés à des défis supplémentaires du fait de l'adoption.

De façon générale, l'adoption a montré avoir de nombreux effets bénéfiques sur la santé mentale, les parcours de vie et l'attachement des enfants adoptés, notamment en comparaison avec les enfants placés dans le cadre de la protection de l'enfance, mais non adoptés (Juffer et al., 2011; Lloyd & Barth, 2011; Raby & Dozier, 2019). Néanmoins, les enfants adoptés présentent des risques supérieurs aux autres enfants de développer des difficultés psychologiques et cognitives au cours de leur vie et la prévalence d'enfants adoptés présentant des types d'attachement insécures ou désorganisés est bien supérieure à celle de la population

générale (Juffer et al., 2011; Raby & Dozier, 2019). Ceci est lié à leur histoire de vie où il y a forcément eu une rupture dans le lien avec la figure d'attachement. Les enfants adoptés ont été plus souvent exposés à de la négligence, de la maltraitance et des agressions sexuelles. Ces expériences souvent traumatiques, ont souvent des conséquences à long terme et en termes d'attachement, de santé mentale et de comportements (Raby & Dozier, 2019). De plus l'adoption confronte les enfants à des questionnements sur leur identité, d'autant plus lorsque les enfants n'ont pas ou très peu d'information sur les origines biologiques. Les parents adoptifs sont donc confrontés à la gestion de ces difficultés, en plus des difficultés inhérentes à la parentalité.

Ces difficultés peuvent être à l'origine d'un niveau plus élevé de stress chez les parents adoptifs, mais les résultats des études comparatives entre parents adoptifs et biologiques sont contradictoires sur le sujet. Ainsi certains facteurs de risques propres au parent et à sa relation conjugale (parent avec attachement insécure, faible niveau de satisfaction dans son rôle de parent, mauvaise qualité de l'alliance parentale, perception d'un faible niveau d'affection et de communication chez l'enfant) expliqueraient mieux les variabilités du niveau de stress chez les parents adoptifs (Canzi et al., 2019; Costa et al., 2020; Lionetti et al., 2015; Palacios & Sánchez-Sandoval, 2006; Sánchez-Sandoval & Palacios, 2012; Santos-Nunes et al., 2018).

Certaines caractéristiques des enfants seraient également des facteurs de risque au stress parental. Un âge plus élevé, le sexe masculin, la présence de difficultés (particulièrement de difficultés comportementales) et de besoins spéciaux chez l'enfant, un temps long passé en institution avant l'adoption et l'exposition antérieure à des agressions sont des facteurs associés à plus de stress chez les parents adoptifs (Canzi et al., 2019; Costa et al., 2020; Gagnon-Oosterwaal et al., 2012; Palacios & Sánchez-Sandoval, 2006; Sánchez-Sandoval & Palacios, 2012).

De fait, de nombreuses interventions sont proposées dans le monde pour accompagner les parents adoptants face aux différentes difficultés auxquelles ils.elles sont exposé.e.s, comme des groupes de paroles ou des thérapies familiales. Une revue de littérature évaluant l'efficacité des interventions auprès de parents adoptants et de leurs enfants, révèle que ces interventions (souvent soutenues par les théories de l'attachement et l'approche cognitivo-comportementale) offrent des propositions thérapeutiques très diversifiées pour des problématiques pourtant similaires (Harris-Waller et al., 2018). Au regard de certaines données, ces résultats sont contrastés quant à l'efficacité de ces interventions. Cependant, ces interventions sont positivement accueillies par les participant.e.s et semblent

toutes avoir un minimum de bénéfices pour les familles. De plus, deux essais contrôlés ont montré des résultats prometteurs en observant une diminution des stratégies d'attachement désorganisé des enfants, à la suite d'interventions proposant des temps de feed-back positifs sur les comportements parentaux. Aucune étude conduite en France n'est recensée dans cette revue, pourtant des interventions existent (Theux-Heymans, 2011) et chaque région est dotée d'une consultation dédiée à l'accompagnement de la parentalité adoptive (Fédération EFA, 2024). Appelées « consultations adoption » et anciennement « Consultations d'Orientation et de Conseil en Adoption » (COCA), celles-ci proposent aux parents et futurs parents adoptifs, des temps de rencontre avec une équipe pluridisciplinaire (pédiatre, psychologue, infirmière de puériculture notamment) spécialisée sur les questions de l'adoption et les soins de leur(s) enfant(s). Les consultations durent au moins une heure, et peuvent avoir lieu à différentes étapes de la vie familiale et en parallèle du suivi pédiatrique classique de l'enfant. En parallèle, il existe également des consultations dédiées à l'accompagnement psychologique des familles avec des enfants adoptés, principalement en Ile de France. Ces consultations sont rattachées aux CMP (Centre Médico-Psychologiques)<sup>37</sup> et la consultation du CMP de l'hôpital Sainte-Anne à Paris est dédiée à l'adoption internationale. Elle accompagne les familles dans leur gestion des défis liés aux changements de contextes culturels et ethniques de l'enfant.

#### 4) Parentalité et bien-être

Comme nous pouvons le constater, de nombreuses études se sont intéressées à documenter les difficultés liées à la parentalité, notamment dans le but de pouvoir accompagner parents, enfants et familles. Cependant, les changements qu'entraîne l'entrée dans la parentalité ne sont pas systématiquement mal vécus et peuvent également générer des émotions et sentiments positifs. Dans de nombreuses sociétés, dont la nôtre, la parentalité est d'ailleurs communément associée à des représentations positives, voire idéalisées. Si cela n'est pas sans poser problème pour les nouveaux parents qui sont nombreux à déchanter une fois l'enfant arrivé, ces croyances collectives sont aussi fondées sur des faits mesurables : la parentalité impacte également de façon positive la vie des individus.

La question du bien-être des parents permet de s'intéresser à ces aspects positifs de la parentalité. Cette question est un sujet qui fait de plus en plus couler d'encre. Au départ, elle

---

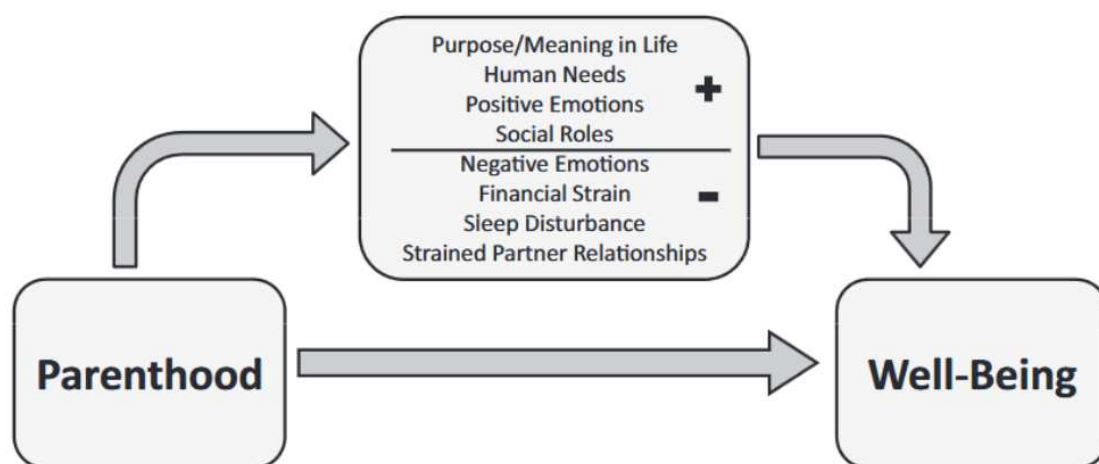
<sup>37</sup> CMP: Lieux rattachés à l'hôpital public, prenant en charge les troubles psychologiques et psychiatriques pédiatriques.

a principalement été abordée en comparant le bien-être des parents et non-parents. Les études ont révélé des résultats contradictoires, certaines observant un meilleur bien-être chez les parents que chez les non-parents et d'autres l'inverse. Nelson, Kushlev et Lyubomirsky (2014) ont pointé les problématiques méthodologiques liées à ces comparaisons (identifier qui sont les non-parents, relation causales inappropriées, distinction entre les variables contrôles ou modératrices) et ont proposé de chercher, non pas à savoir qui des parents ou des non-parents allaient le mieux, mais à comprendre quels facteurs contribuaient au bien-être des parents et les conditions amenant les parents à vivre plus ou moins d'expérience positives que les non-parents. Elles précisent également que certains facteurs extérieurs à la parentalité peuvent expliquer des différences entre les deux groupes sans être directement liés à la parentalité, notamment le fait que les gens plus heureux ont plus de probabilité d'être parents que les autres (Luhmann et al., 2012) et que la parentalité arrive souvent en concomitance avec d'autres événements vie susceptibles d'augmenter le bien-être des individus (mariage, emploi stable notamment).

En s'appuyant sur la notion de bien-être subjectif, et dans l'optique d'identifier les facteurs contribuant au bien-être des parents ces autrices ont proposé un modèle du bien-être des parents (BEP) (Figure 18), qui postule que la parentalité influence le bien-être de l'individu positivement et négativement au travers de certains facteurs associés au rôle de parent.

**Figure 18.**

*Modèle du bien-être des parents*



*Note. Figure issue de l'article de Nelson, Kushlev et Lyubomirsky (2014)*

Le bien-être subjectif est une notion basée sur trois construits : la satisfaction de vie, les émotions positives et les émotions négatives. Cinq modèles théoriques ont proposé des articulations différentes de ces notions (Busseri & Sadava, 2011). Le modèle du BEP, s'appuie sur une adaptation simplifiée du modèle causal du bien-être subjectif, dans lequel l'expérience émotionnelle (émotions négatives et positives) influence la satisfaction de vie qui est la composante clé du concept de bien-être subjectif. Dans le modèle du BEP, les autrices considèrent que l'expérience émotionnelle est prédictive du bien-être global. Ainsi, elles postulent que certains aspects ou processus de la parentalité, joueraient un rôle médiateur pour favoriser ou diminuer le BEP.

Les facteurs de la parentalité proposés comme ayant une influence positive sur le bien-être seraient le fait qu'être parent: 1. donne un sens supplémentaire à la vie ou une autre raison d'être ; 2. vienne répondre à un besoin fondamental humain<sup>38</sup> et à des besoins psychologiques d'autonomie, de connexion à l'autre et de sentiment de compétence ; 3. génère des émotions positives (ex : joie et amusement d'être au contact de l'enfant et de faire des activités avec lui, plaisir et fierté de le voir accomplir de nouvelles choses) ; 4. donne un rôle social supplémentaire<sup>39</sup> particulièrement désirable. Les facteurs de la parentalité proposés comme ayant une influence négative sur le bien-être seraient : 1. les émotions négatives (ex : frustration liée à l'opposition de l'enfant, déception face à certains comportements, préoccupations, inquiétudes et anxiété au sujet de l'enfant) ; 2. les efforts, sacrifices et difficultés au niveau financier ; 3. la fatigue et le manque de sommeil ; 4. les difficultés de relation conjugale.

Les facteurs proposés sont théoriques et les autrices invitent à les tester empiriquement. Elles ajoutent ensuite que de nombreuses variables ont un effet modérateur sur ces facteurs, notamment les caractéristiques socio-démographiques et psychologiques du parent (âge, sexe, situation maritale, statut économique du parent, soutien social, culture, style d'attachement du parent) et de l'enfant (âge et tempérament de l'enfant entre autres). Ces variables explicatrices permettent de mieux cerner les circonstances d'apparition des

---

<sup>38</sup> En reprenant la célèbre approche de la pyramide des besoins fondamentaux de l'humain de Maslow, les théoriciens modernes de l'évolution situent la parentalité tout en haut de la pyramide, après d'autres besoins comme l'affiliation, l'estime de soi, l'acquisition et le maintien d'un partenaire (Kenrick et al., 2010). Des liens ont été établis entre satisfaction des besoins fondamentaux et bien-être, et une augmentation du bien-être associé à la satisfaction des besoins les plus élevés de la pyramide. En répondant au besoin le plus élevé selon la nouvelle hiérarchie, l'accès à la parentalité contribuerait de façon importante au bien-être de l'individu.

<sup>39</sup> Avoir plusieurs rôles sociaux présente des bénéfices en termes de santé mentale et physiques. Être parent peut par exemple aider à prendre de la distance avec les difficultés liées au travail et favoriser la gestion du stress dans différents domaines.

facteurs explicatifs du bien-être. Par exemple, l'âge de l'enfant a un effet modérateur sur la fatigue (avoir un enfant en bas âge implique souvent de nombreux réveils nocturnes) fatigue qui impacte négativement le bien-être du parent.

Cette proposition théorique inscrit la parentalité dans une perspective où celle-ci est génératrice à la fois d'exigences (aspects requérants des efforts et un investissement physique, psychique et financier conséquent) et de gratifications (accomplissement du but parental et développement personnel). En s'appuyant sur un autre modèle rentrant dans cette perspective (le stress process model (Pearlin, 1989, 1999) une récente revue de littérature sur le sujet a recensé de nombreuses études entre 2010 et 2019 qui ont observé différents facteurs impactant le BEP (Nomaguchi & Milkie, 2020). Sans rentrer dans les explications des liens médiateurs ou modérateurs, le Tableau 8 présente un récapitulatif de certains facteurs relevés comme influençant le bien-être parental.

**Tableau 8.**

*Exemples de facteurs influençant positivement ou négativement le bien-être parental*

|                                       | <b>Influence négative</b>                                                                                                                 | <b>Influence positive</b>                                   |
|---------------------------------------|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|-------------------------------------------------------------|
| <b>Age et genre du parent</b>         | Parent dans le début de la vingtaine<br>Femme (en fonction des mesures)                                                                   | Parentalité tardive                                         |
| <b>Statut marital</b>                 | Célibat                                                                                                                                   | En couple                                                   |
| <b>Statut socio-économique</b>        | Faible revenu, difficultés d'hébergement et d'alimentation, emprisonnement                                                                |                                                             |
| <b>Relation au travail</b>            | Travail non-salarié<br>Imprévisibilité de l'emploi du temps<br>Instabilité du mode de garde de l'enfant                                   | Salariat<br>Emploi du temps contrôlable par le parent       |
| <b>Identité sexuelle</b>              | Homoparentalité                                                                                                                           |                                                             |
| <b>Groupe ethnique et immigration</b> | Aux Etats-Unis : couleur de peau noire, immigrés de pays hispaniques ou asiatiques<br>Mauvaise maîtrise de la langue du pays de résidence |                                                             |
| <b>Transition vers la parentalité</b> | Grossesse non désirée                                                                                                                     |                                                             |
| <b>Age de l'enfant</b>                | Adolescence et âge adulte (en fonctions des mesures)                                                                                      | Petite enfance (en fonctions des mesures)                   |
| <b>Besoins spéciaux de l'enfant</b>   | Maladies et troubles émotionnels                                                                                                          | Fonctionnement typique                                      |
| <b>Contextes nationaux</b>            | Peu de congés payés                                                                                                                       | Congés parentaux et dispositifs de soutien à la parentalité |

Cette revue précise qu'il est également nécessaire d'observer la question du BEP dans le cadre du parcours de vie des individus et de mettre en lien ces facteurs avec certaines étapes comme la transition dans la parentalité, le stade de développement de l'enfant, et l'âge adulte de l'enfant. En effet, être parent implique l'individu pour tout le reste de sa vie et avoir un enfant adulte a également des répercussions sur le bien-être des individus, particulièrement lorsque l'enfant vit toujours chez son parent, ou en est toujours dépendant financièrement (Kahn et al., 2013). Or actuellement la majorité des études se sont focalisées sur le bien-être parental dans les 5 premières années de vie de l'enfant, ou tant que l'enfant vivait sous le toit du parent (Nelson et al., 2014; Nomaguchi & Milkie, 2020).

Cette revue regroupe de nombreux résultats empiriques faisant écho au modèle du BEP. Elle confirme l'idée que l'étude des facteurs médiateurs et modérateurs est une piste pertinente pour comprendre pourquoi certains parents vivent mieux ou moins bien que d'autres leur parentalité, et les liens entre bien-être et parentalité. Ce pan de la recherche sur le BEP est en plein essors et de nombreux aspects restent à investiguer.

### En résumé :

Les parents peuvent être confrontés à différents troubles psychopathologiques (troubles anxio-dépressifs particulièrement), et ce particulièrement en durant la période périnatale et au cours de la première années post-partum. Très étudiés chez les mères, ces troubles concernent également les pères.

Être parent multiplie les sources de stress et cinq types de stressors liés à la parentalité ont été identifiés (liés à la transition vers la parentalité, à ce qui pourrait arriver aux enfants, à leur immaturité, aux projections parentales de ce qui est bon pour l'enfant, et aux exigences que se fixe le parent), auxquels s'ajoutent les stressors liés aux difficultés de l'enfant. L'utilisation du modèle biopsychosocial du stress parental a permis d'identifier de nombreux facteurs de risque individuels, environnementaux ou liés à l'enfant (ex : dépression, manque de soutien social, perception négative des difficultés de l'enfant). Lorsque le stress se chronicise et dure trop longtemps le parent est à risque de développer un burn-out parental. Un haut niveau de compétence émotionnelle serait le meilleur facteur de protection du burn-out parental.

Des études ont relevé l'impact de la parentalité en termes d'organisation familiale et de vie conjugale. De nombreuses études ont décrits des impacts négatifs sur la vie conjugale et l'intimité. Néanmoins, les études plus récentes montrent que le vécu est variable d'un couple à l'autre avec des vécus positifs. Les couples avec une répartition plus égalitaire des soins à l'enfant présentent généralement une meilleure qualité relationnelle conjugale.

L'adoption amène des problématiques supplémentaires, notamment car les enfants ayant vécu des expériences adverses dans la petite enfance sont plus à risque de développer des difficultés émotionnelles et cognitives. Certaines interventions développées pour accompagner les familles ont montré des résultats prometteurs. En France des consultations dédiées à l'adoption sont proposées au niveau régional à tous les parents et futurs parents adoptifs.

Le modèle du bien-être des parents postule que certains facteurs de la parentalité (à étudier empiriquement) jouent un rôle médiateur sur le bien-être des parents. Ces facteurs seraient eux-mêmes influencés par des facteurs modérateurs, tels que les caractéristiques socio-démographiques et psychologiques du parent et de l'enfant, ainsi que le contexte socio-environnemental et politique.

## E. Parentalité et maladies

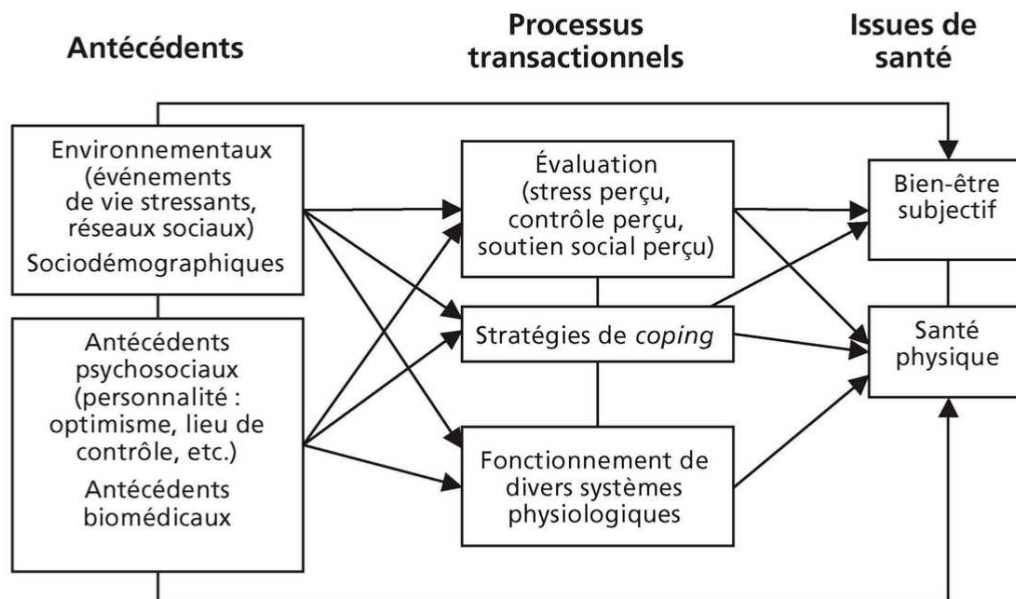
### I. Stress et ajustement à la maladie.

Avoir une maladie chronique implique de nombreux processus cognitifs, comportementaux et émotionnels, notamment en termes d'adaptation aux contraintes de la maladie (traitements et effets secondaires, incapacités physiques ou psychiques temporaires ou définitives, sur l'organisation familiale, sur le travail etc.) et de régulation des émotions associées à la maladie et ses conséquences. Depuis les premiers travaux de modélisation du stress de Lazarus et Folkman (1984), la question du stress et de l'adaptation à celui-ci est pensée en termes de transactions entre l'individu et l'environnement. Comme dans le modèle transactionnel de la parentalité, il y a l'idée d'une influence mutuelle, ici entre l'individu et son environnement, qui va au-delà d'une simple interaction. Concrètement, l'individu évalue dans un premier temps ce qu'il vit et perçoit d'une situation (présence ou non de stressseurs) et, en s'appuyant sur les ressources à sa disposition (personnelles et sociales), met en place ce qu'on appelle une stratégie d'ajustement ou de coping. Cette notion de coping, renvoie à l'idée de faire-face à une situation adverse, et implique l'ensemble des processus cognitifs, comportementaux et émotionnels mis en place pour diminuer ou maîtriser l'inconfort lié à la situation. Ces processus sont changeants et évolutifs en fonction de la transaction entre l'individu et l'environnement. Les recherches ont relevé plusieurs catégories de stratégies de coping, nous pouvons par exemple citer les stratégies : centrées sur le problème (pour résoudre le problème), centrées sur l'émotion (pour réguler l'émotion), centrées sur le sens (développer le bien-être en s'appuyant sur les croyances et les valeurs), le coping proactif (mise en place d'efforts pour atteindre un objectif, se développer personnellement) (Folkman, 2008; Lazarus & Folkman, 1984; Schwarzer, 2001).

Bruchon-Schweitzer (2002) a développé le modèle intégratif et multifactoriel (Figure 19) pour compléter le modèle transactionnel du stress et du coping de Lazarus et Folkman. Ce modèle intégratif considère l'existence de trois types de facteurs rentrant en jeu dans l'expérience du stress et du coping : les antécédents (psychosociaux et environnementaux) de l'individu, les processus transactionnels d'ajustement et les issues de santé (états physique et mental, qualité de vie).

**Figure 19.**

*Modèle intégratif et multifactoriel*



*Note. Figure issue de l'article de Bruchon-Schweitzer (2002)*

Ce modèle permet de comprendre que les contraintes de la maladie chronique peuvent être perçues par l'individu comme des stressseurs, majorés ou minorés par les antécédents, impactant plus ou moins l'individu en termes de santé et en fonction des stratégies de coping qu'il met en place pour y faire face.

En début de manuscrit nous avons décrit la mucoviscidose, maladie chronique aux multiples impacts physiologiques et psychologiques, exigeant un traitement pouvant être très lourd et chronophage. Nous avons ensuite pu observer à quel point la parentalité bousculait la vie des individus, et pouvait impacter leurs fonctionnements identitaire et familial. Parler de parentalité chez les personnes atteintes de mucoviscidose soulève donc de nombreuses interrogations en termes d'interactions entre les contraintes de la maladie et celles de la parentalité, de gestion et d'adaptation aux stressseurs, et de conciliation des deux milieux et des identités de malade et parent. De plus, si l'on se réfère au modèle du stress parental présenté précédemment (construit notamment à partir du modèle intégratif et multifactoriel du stress) (Roskam & Mikolajczak, 2015), la mucoviscidose, ou la maladie parentale apparaît comme une donnée très particulière. En effet, elle fait partie intégrante des antécédents de la personne (particulièrement au niveau biologique, biographique et psychologique) mais est aussi génératrice de stressseurs concomitants à ceux de la parentalité.

Il y a donc un véritable enjeu à s'intéresser à l'expérience des parents malades, notamment pour comprendre comment parentalité et maladie interagissent et pour pouvoir proposer des accompagnements adaptés aux problématiques spécifiques.

## **II. Maladies chroniques, handicap, douleurs chroniques et parentalité**

La problématique de la parentalité chez les personnes atteintes de maladies somatiques chroniques graves ou de handicap fait l'objet de plus en plus d'études, mais reste encore un pan de la recherche en psychologie de la parentalité moins développé que d'autres. En atteste d'ailleurs les recherches dans les bases de données qui font ressortir plus d'articles concernant les parents d'enfants malades ou handicapés, que d'études au sujet des parents eux-mêmes malades ou handicapés. Nous avons néanmoins trouvé quelques revues de littérature s'intéressant à différentes maladies parentales.

### **Représentations**

Dans les travaux anciens sur le sujet, nous avons notamment identifié le travail d'Altschuler et Dale (1999). A partir de leur travail d'accompagnement thérapeutique de plusieurs familles avec un parent (souvent la mère) atteint d'une maladie somatique (cancer, sclérose en plaque (SEP), troubles cardiaques, accidents vasculaires cérébraux), elles relèvent des thèmes communs liés aux difficultés de ces familles. En premier lieu, elles rapportent les représentations négatives associées au fait d'être malade et d'être parent malade. Elles évoquent le relatif silence autour de la parentalité dans les consultations avec les professionnel.le.s de santé, silence qu'elles supposent être lié au manque de temps, de formation, à la gêne des professionnel.le.s ou des patient.e.s eux.elles-mêmes vis-à-vis du sujet, à un vécu traumatique réactivé, ou à la mise à distance de l'enfant par rapport à la maladie.

En s'intéressant à des études plus récentes, on observe certains changements, notamment concernant les représentations des familles et des professionnel.le.s comme l'atteste des revues de littérature sur la parentalité et le handicap (parfois résultant d'une maladie chronique comme la SEP) (Candilis-Huisman et al., 2017; Parchomiuk, 2014). Ces revues révèlent d'ailleurs l'évolution des perceptions sociales sur la parentalité avec un handicap. Ainsi dans les années 2010, l'opinion publique est majoritairement positive alors que la parentalité chez un parent malade/handicapé était majoritairement mal perçue 10 ans avant. De plus, ces revues rapportent l'évolution des perceptions des professionnel.le.s et des

patient.e.s. Elles observent des améliorations, mais montrent que les attitudes des professionnel.le.s restent ambivalentes et oscillent entre la dévalorisation du parent (avec parfois des recommandations d'avorter ou de confier son enfant à l'adoption et/ou à une surveillance des difficultés qui pourraient subvenir), la surprise d'observer des compétences parentales adaptées et du soutien pour trouver les aides adaptées à la situation du parent, son handicap ou sa maladie (Candilis-Huisman et al., 2017; Vallido et al., 2010). Les patient.e.s rapportent la difficulté de vivre avec ces préjugés négatifs, qui sont par ailleurs majorés chez les mères porteuses du VIH (Vallido et al., 2010), et la sensation de devoir rendre des comptes sur leur projet et leur vie de famille. De plus, et malgré les améliorations, les professionnel.le.s restent mal formé.e.s à cette question de la parentalité (Candilis-Huisman et al., 2017).

Du côté des parents, les représentations de leur parentalité sont bien plus positives qu'en 1999 où les parents se vivaient comme un danger pour leur enfant, et focalisaient sur toutes leurs incapacités parentales et leur sensation d'avoir volé l'enfance de leurs fils et filles (Altschuler & Dale, 1999). Dans certaines études et dans les revues plus récentes, l'enfant revêt une immense valeur, et en redéfinissant ce qu'est être un bon parent, les parents arrivent à constater leurs capacités parentales (Candilis-Huisman et al., 2017; Holstad et al., 2025; Vallido et al., 2010). Pour certains parents, l'accès à la parentalité est de plus perçue comme une possibilité de normalisation et d'intégration dans la société. Devenir parent permet de dépasser les limites du handicap ou de la maladie, de développer une image de soi positive, d'améliorer l'estime de soi et de donner plus de sens à la vie (Holstad et al., 2025; Parchomiuk, 2014). L'arrivée de l'enfant est souvent décrite avec des émotions très fortes de joie ou de bonheur, surtout dans les contextes où la parentalité reste peu courante et souvent due à l'amélioration récente des traitements et de l'espérance de vie des patient.e.s (Holstad et al., 2025). Dans le cadre spécifique du cancer, les parents chérissent leur parentalité et perçoivent leur(s) enfant(s) comme une source de force et une raison pour se battre et suivre les traitements (Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021).

### **Autres aspects positifs**

Certaines études rapportent d'autres aspects positifs de la maladie dans le cadre de la parentalité (Candilis-Huisman et al., 2017; Evans & de Souza, 2008; Handberg et al., 2022; Holstad et al., 2025; Li et al., 2024; Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021). Par exemple, une étude sur les mères douloureuses (douleurs chroniques de longue date quasi quotidiennes, et sans impact sur le pronostic vital) révèle que la douleur chronique a amené certaines mères à chercher des stratégies d'ajustement auxquelles elles n'auraient pas pensé avant (Evans &

de Souza, 2008). Ceci se retrouve également dans une étude qualitative sur les parents atteints de troubles neuromusculaires (Handberg et al., 2022) et dans les revues de littératures portant sur le cancer parental relevant une grande quantité de stratégies (Li et al., 2024; Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021). Une étude quantitative observe également chez les mères atteintes de SEP ou de polyarthrite rhumatoïde un recours à plus de stratégies de coping que chez les mères non malades (White et al., 2009). Dans le cas de certaines maladies, les stratégies utilisées en tant que parent sont celles qui étaient déjà utilisées avant la parentalité en tant que patient.e.s (Holstad et al., 2025). Ceci est révélateur de la capacité d'adaptation dont font preuve les parents pour trouver un équilibre entre leur rôle de parent et les contraintes de la maladie. Les stratégies de coping associées à une meilleure résilience et de meilleurs impacts sur les parents et leurs enfants sont notamment : la focalisation sur le présent ou sur les aspects non atteints par la douleur, l'acceptation de la situation (la maladie), arriver à donner une interprétation positive à la douleur ou la maladie et avoir du soutien familial (Evans & de Souza, 2008; Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021). Les parents atteints de cancer rapportent également passer plus de temps avec leur enfant pour en profiter autant que possible (Li et al., 2024; Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021).

### **Aspects positifs pour les enfants**

Des bénéfices ou aspects positifs liés à la maladie du parent sont également relevés pour les enfants : ils sont plus autonomes et indépendants, plus attentifs aux autres, plus éduqués en termes de comportements de santé et de connaissance de leur propre corps, et sont exposés à la ténacité du parent à prendre soin de lui (Candilis-Huisman et al., 2017; Evans & de Souza, 2008; Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021; Vallido et al., 2010). D'autres études expliquent qu'il y a une volonté parentale d'accompagner les enfants à être plus autonomes (Holstad et al., 2025; Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021).

### **Ambivalence du parent malade**

Le changement positif des représentations de la parentalité avec une maladie/handicap semble en revanche contrasté par la présence de sentiments ambivalents. La joie apportée par l'enfant et la parentalité est ainsi souvent contrebalancée par des émotions négatives, notamment la culpabilité d'imposer des difficultés à son enfant, la tristesse de voir les conséquences que cela a pour lui, et dans certains cas comme le VIH, la honte persistante liée à la maladie (Candilis-Huisman et al., 2017; Parchomiuk, 2014; Vallido et al., 2010). L'ambivalence est un des thèmes majeurs de certaines études qualitatives sur l'expérience des parents atteints de troubles cardiaques ou neuromusculaires (Handberg et al.,

2022; Holstad et al., 2025). Dans ces deux études, cette ambivalence se manifeste sous forme de dilemme concernant l'accès à la parentalité (question de la transmission de la maladie, de l'impact physique de la grossesse sur la patiente) et la vie quotidienne avec notamment la culpabilité de priver l'enfant de certaines choses et l'impact négatif de la parentalité sur leur santé (Handberg et al., 2022; Holstad et al., 2025).

### **Norme et normalité**

Sur la question de la norme, les parents épileptiques ou atteints de troubles neuromusculaires souffrent particulièrement de ne pas se sentir comme des parents normaux (Gauffin et al., 2015; Handberg et al., 2022). Les patient.e.s épileptiques se sentent de moins bons parents en général et en comparaison avec leur conjoint.e.s (Gauffin et al., 2015). Pour celles et ceux souffrant de troubles neuromusculaires, c'est en lien avec leur handicap physique visible et les implications à domicile (notamment l'aide d'une personne pour les tâches domestiques ou la toilette) (Handberg et al., 2022). Pourtant, ces dernier.e.s décrivent être touché.e.s d'entendre leur(s) enfant(s) dire que leur parent avec sa maladie est leur norme. Les individus touchés par une maladie ou l'aggravation d'une maladie, alors qu'ils sont déjà parents, rapportent une sensation de perte de normalité, très marquée chez les parents dialysés (Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021; Vallido et al., 2010; Wadd et al., 2011). Les parents atteints d'un cancer cherchent néanmoins à maintenir une forme de normalité, notamment en faisant coïncider les anciennes routines quotidiennes et les nouvelles liées à la maladie (Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021). Dans le cas des pathologies cardiaques congénitales, les patient.e.s se sentent des parents comme les autres (Holstad et al., 2025).

### **Perturbations liées à la maladie**

En parallèle, toutes les études, anciennes ou récentes, relèvent les nombreuses perturbations sur la vie familiale et la parentalité, générées par la maladie ou le handicap. Ainsi, les études rapportent les composantes de la maladie qui impactent négativement le rôle et les fonctions de parent, comme la fatigue, les douleurs, les hospitalisations, les limitations physiques, l'anticipation d'une crise d'épilepsie, ou encore l'anticipation du décès du parent (Altschuler & Dale, 1999; Candilis-Huisman et al., 2017; Evans & de Souza, 2008; Gauffin et al., 2015; Handberg et al., 2022; Holstad et al., 2025; Vallido et al., 2010; Wadd et al., 2011). Plus concrètement, elles relèvent les difficultés des parents à trouver l'équilibre entre leurs besoins (repos, temps pour les traitements) et ceux de leurs enfants (Altschuler & Dale, 1999; Evans & de Souza, 2008; Handberg et al., 2022; Holstad et al., 2025; Li et al., 2024; Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021; Vallido et al., 2010). Fatigue, douleurs, troubles physiques, traitements

(dialyse et chimiothérapie notamment) peuvent amener les parents à faire moins ou moins bien les choses avec leurs enfants, les empêcher de participer à certains événements importants ou certaines vacances (Evans & de Souza, 2008; Gauffin et al., 2015, 2015; Holstad et al., 2025; Li et al., 2024; Vallido et al., 2010; Wadd et al., 2011), voire d'arriver à faire certaines choses simples pour leurs enfants comme les conduire aux activités ou leur faire à manger. Ces derniers manquements au rôle de parent ont tendance à générer un fort sentiment d'impuissance chez les parents, une grande culpabilité et un sentiment d'injustice pour leurs enfants (Evans & de Souza, 2008).

Plusieurs études révèlent des difficultés émotionnelles chez les parents, notamment la tristesse de ne pas pouvoir faire tout ce qu'ils voudraient en tant que parents (Gauffin et al., 2015; Handberg et al., 2022; Holstad et al., 2025; Li et al., 2024; Vallido et al., 2010; Wadd et al., 2011), le stress concernant l'évolution de leur maladie et l'avenir incertain que cela fait planer sur la famille, l'appréhension de leur mort, savoir le fardeau supplémentaire porté par le conjoint etc. (Handberg et al., 2022; Holstad et al., 2025; Vallido et al., 2010). Avoir le VIH est d'ailleurs un facteur de risque de difficultés psychopathologiques en post-partum (Wright et al., 2024). La douleur peut être vécue comme un fardeau et générer de nombreuses émotions négatives pour le parent (au-delà de la sphère parentale) et conduire les parents à moins d'investissement auprès de leurs enfants lors d'épisodes douloureux (Evans & de Souza, 2008; White et al., 2009). La dépendance à l'autre est un sujet de souffrance chez les parents épileptiques, dialysés et atteints de troubles neuromusculaires qui sont souvent très dépendants physiquement de l'aide d'autres personnes, notamment celle de leur conjoint.e et de leurs enfants (Gauffin et al., 2015; Handberg et al., 2022; Wadd et al., 2011). Un sentiment de solitude ou d'isolement est rapporté chez les parents atteints de troubles cardiaques ou neuromusculaires (Handberg et al., 2022; Holstad et al., 2025). Les parents ont le désir d'échanger sur leur parentalité avec la maladie. Très demandeurs, ils se heurtent aux professionnel.le.s généralement trop focalisé.e.s sur leur santé, ou à la rareté de leur situation les empêchant de rencontrer d'autres parents vivant une expérience similaire.

### **Impacts négatifs sur les enfants**

La maladie est également décrite en termes d'impacts négatifs sur les enfants. Certains parents sont inquiets de la possibilité d'avoir transmis leur maladie à leurs enfants (Evans & de Souza, 2008; Handberg et al., 2022; Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021; Vallido et al., 2010). Nombre d'entre eux déplorent la position d'aidance dans laquelle la maladie met leurs enfants (aide physique, logistique ou émotionnelle apportée au parent malade), et que les

enfants effectuent des tâches qui ne sont pas de leur âge et/ou qui impactent leur scolarité (Altschuler & Dale, 1999; Candilis-Huisman et al., 2017; Handberg et al., 2022; Li et al., 2024; Vallido et al., 2010; Wadd et al., 2011). Les parents sont souvent inquiets vis-à-vis de la santé mentale de leurs enfants qui se trouve affectée par la maladie parentale : peur pour le parent, difficultés d'assister à des crises, difficultés de séparation, manque de légèreté, ce qu'ils ne peuvent pas faire ou vivre à cause de la maladie du parent (Gauffin et al., 2015; Handberg et al., 2022; Holstad et al., 2025; Li et al., 2024; Vallido et al., 2010; Wadd et al., 2011). Pour les parents souffrant de troubles neuromusculaires ou d'épilepsie, les difficultés physiques et la survenue aléatoire de crises, leur fait également craindre pour la sécurité de leur enfant, notamment parce qu'ils.elles ne sont pas en capacités de l'assurer seul.e, voire qu'ils peuvent la menacer à cause de leurs troubles et difficultés physiques (manque de mobilité, de force, ou d'équilibre, peur de laisser tomber l'enfant) (Gauffin et al., 2015; Handberg et al., 2022).

### **Communication sur la maladie**

Le thème de l'annonce de la maladie aux enfants ou de la communication sur la maladie de façon générale se retrouve dans de nombreuses études. Dans le cas du cancer, les parents apparaissent plutôt honnêtes avec leurs enfants concernant ce qui leur arrive, les traitements et effets secondaires, voire leur possible décès (Li et al., 2024; Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021). Pour les parents de l'article d'Altschuler & Dale (1999), les parents cardiaques ou ceux porteurs du VIH, les choses sont moins évidentes. Certains parents ont tendance à donner le minimum d'information à leur enfant pour générer le moins d'angoisse possible (Altschuler & Dale, 1999; Holstad et al., 2025). En lien avec le stigma associé au VIH, les parents porteurs ont du mal à s'en ouvrir à leurs enfants (Vallido et al., 2010). De façon plus partagée, de nombreux parents peuvent minimiser leurs difficultés émotionnelles devant leurs enfants (Altschuler & Dale, 1999; Evans & de Souza, 2008; Holstad et al., 2025; Li et al., 2024; Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021), et ce même dans des situations où ils ont très peur (opérations cardiaques) (Holstad et al., 2025). Certains rapportent faire de l'humour ou éviter les émotions négatives pour entretenir l'espoir et l'optimisme (Matuszczak-Świgoń & Bakiera, 2021) et d'autres peuvent ressentir de la honte à ne pas arriver à cacher leurs émotions (Altschuler & Dale, 1999). Avec leur regard clinique, Altschuler et Dale, rapportent le cercle vicieux dans lequel s'enferment certains parents en voulant cacher leurs difficultés pour minimiser l'impact de la maladie sur l'enfant. À l'aide de verbatims, les autrices illustrent comment le manque de communication sur la maladie parentale et la distance prise par certains parents empêchent les enfants de mettre du sens sur ce qu'ils vivent. Loin de les aider à mieux vivre la situation,

cela a plutôt tendance à empirer leur état émotionnel. Une étude comparant les récits des mères douloureuses chroniques à ceux de leurs enfants montrent d'ailleurs que les enfants comprennent ou savent généralement plus ce que pensent les mères (Evans & de Souza, 2008). Enfin, Altschuler et Dale (1999) rapportent les difficultés des couples à s'accorder sur quoi dire et comment le dire aux enfants et sur les nouvelles problématiques parentales soulevées par la maladie. Les parents malades sont donc très souvent confrontés à des difficultés pour savoir quoi et comment dire à leurs enfants. Les parents sont en demande de plus d'accompagnement par les professionnel.le.s de santé à ce sujet (Altschuler & Dale, 1999; Li et al., 2024; Vallido et al., 2010).

### **Interventions sur la communication**

Une revue de littérature s'est d'ailleurs intéressée aux interventions proposées pour accompagner les parents dans l'annonce de la maladie à leur enfant (Oja et al., 2020). La plupart des études de cette revue s'intéressent à une maladie mentale, et les autres s'intéressent aux parents porteurs de VIH ou atteints de cancers. Bien qu'elle porte beaucoup sur la maladie mentale (que nous n'abordons pas car les enjeux sont trop éloignés), cette revue est intéressante car elle révèle la pertinence de ces accompagnements sur des points assez généraux et applicables à toute maladie. Ainsi ces accompagnements permettent :

- aux enfants et aux parents de mieux comprendre les enjeux de maladie et d'être en capacités de parler ouvertement de la maladie en famille,
- aux enfants de mieux comprendre le rôle qu'ils.elles peuvent jouer auprès du parent malade et de mieux s'adapter, de diminuer leurs difficultés psychiques (peurs, culpabilité et sentiment d'être la cause des difficultés du parent),
- aux parents de diminuer leurs sentiments de culpabilité et de honte, de se sentir plus forts en tant que parents et de mieux comprendre leurs enfants.

### **Expérience des enfants de parents malades**

La maladie d'un parent ayant des impacts sur tous les membres de la famille, de plus en plus d'études s'intéressent à l'expérience des enfants. Néanmoins c'est un pan de la recherche relativement récent, surtout pour les maladies autres que le cancer et le VIH. Les études portent généralement sur l'expérience propre de l'enfant et décrivent les impacts (psychosociaux et sur le quotidien) de la maladie ou de la douleur chronique parentale sur celui-ci (Coldstream & le May, 2008; Faccio et al., 2018; Goldberg & Short, 2016; Haker et al., 2023; Higgins et al., 2015; Purc-Stephenson & Lyseng, 2016; Razaz et al., 2014). Certaines études, plus rares, cherchent à confronter l'expérience du parent et de l'enfant comme l'étude

d'Evans et al. (2008) ou à explorer l'expérience de l'ensemble de la famille (Uccelli, 2014). Au-delà de la question de la communication, de plus en plus d'interventions sont mises en place pour accompagner les enfants (Chi et al., 2019; Horner, 2013; Malinowski et al., 2025) ou l'ensemble de la famille (Han et al., 2019). Elles montrent en général des effets positifs à différents niveaux (en fonction de ce qui est évalué) : stratégies de coping, gestion émotionnelles, difficultés psychologiques comportement, connaissances sur la maladie et soutien social.

### **Expérience des conjoint.e.s**

L'impact d'une maladie sur les conjoint.e.s est beaucoup étudié au sein du couple (Eriksson & Svedlund, 2006; Hasdenteufel & Quintard, 2022; Matheson et al., 2010) et notamment en termes de coping dyadique (stratégies pour rétablir ou maintenir l'équilibre de la dyade, ici le couple) (Berg & Upchurch, 2007; Untas et al., 2012). Des études ont montré l'intérêt de proposer des interventions au couple plutôt que juste au patient (Berry et al., 2017) mais il est difficile de trouver des études qui s'intéressent spécifiquement aux conjoint.e.s de parents malades.

Les études sur les conjoint.e.s ou les enfants relèvent l'importance de les prendre en compte pour comprendre globalement la problématique de la maladie chronique d'un parent. En termes cliniques, Altschuler et Dale (1999) rappellent l'intérêt pour les parents de travailler ensemble à trouver le nouvel équilibre face à la maladie. Elles amènent une réflexion clinique intéressante sur le rôle du parent non malade et sur les changements de rôle qu'il.elle peut vivre à cause de la maladie de son.sa partenaire. Ces autrices invitent ainsi à considérer et prendre la maladie d'un parent comme une problématique familiale et non juste comme la maladie d'un individu.

Loin d'être exhaustive tellement le sujet est vaste, cet état de la littérature sur la parentalité avec une maladie, fait ressortir certaines thématiques communes aux différents types de maladies ou de handicaps. Pourtant il est évident que les problématiques concrètes ne sont pas les mêmes en fonction du contexte médical. Une maladie qui se déclare (ou est diagnostiquée) alors que l'individu est déjà parent (ex : cancer, SEP, troubles rénaux) n'a pas les mêmes répercussions sur la vie familiale qu'une maladie connue depuis l'enfance comme les troubles cardiaques congénitaux, neuromusculaires ou la mucoviscidose. De plus, les conséquences des maladies ne sont pas les mêmes du fait des traitements (durée, effets secondaires, durée et fréquence du soin), de l'évolution (certaines peuvent se guérir, d'autres

avoir des phases silencieuses très longues et des phases d'exacerbation, d'autres être dégénératives).

Ces différences entre maladies expliquent pourquoi il est difficile de trouver des revues de littérature sur plusieurs maladies et pourquoi la plupart des études cherchent à adresser la question de la parentalité au sein d'une population de patient.e.s données. Dans ce domaine, le cancer apparaît de loin la maladie qui a suscité le plus d'études avec des angles d'approches très variées : difficultés parentales, difficultés de l'enfant, communication, interventions pour les parents, pour les enfants ou pour la famille. En parallèle nous avons trouvé beaucoup moins de revues sur les autres maladies pourtant documentées comme le VIH ou la SEP et pas ou peu s'intéressant aux études portant sur l'expérience des parents.

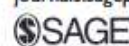
Ceci montre l'inégalité de traitement de la parentalité chez les malades chroniques, à mettre bien entendu en lien avec la prévalence des maladies. Ceci est aussi lié au fait que cette thématique est nouvelle dans le cadre de certaines maladies comme la mucoviscidose qui, il n'y a encore pas si longtemps, empêchaient la grande majorité des patient.e.s de vivre assez longtemps pour envisager d'être parents.

### **III. Parentalité et mucoviscidose**

#### **1) Article 1 : Revue systématique de la littérature**

Malgré des parallèles indéniables, particulièrement avec l'expérience des parents atteints de troubles cardiaques congénitaux, aucune de études présentées ne permet de rendre vraiment compte de l'expérience des parents atteints de mucoviscidose. De plus, la question de l'accès en lui-même à la parentalité est une problématique très peu abordée dans le cadre des autres maladies, ou alors principalement avec le prisme de la transmission génétique, car peu de maladies impactent la fertilité des patient.e.s autant que la mucoviscidose. Une revue des études dédiées à la parentalité chez les patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose est donc nécessaire pour rendre compte de l'expérience unique de ces parents. Ceci a fait l'objet d'un travail de revue systématique de littérature au début de ce travail de thèse, publié dans *Journal of Health Psychology* en 2021. Nous vous présentons donc l'état de la littérature au travers de cette première publication. A la suite de l'article, un résumé de cette revue sera proposé auquel nous ajouterons un résumé des résultats des quelques articles parus depuis sur le sujet. Ceci clôturera cette première grande partie de contextualisation de notre étude.

# How do cystic fibrosis patients experience parenthood? A systematic review

Journal of Health Psychology  
2021, Vol. 26(1) 60–81  
© The Author(s) 2020  
Article reuse guidelines:  
sagepub.com/journals-permissions  
DOI: 10.1177/1359105320916539  
journals.sagepub.com/home/hpq  


Anne Jacob<sup>1</sup> , Jonathan Journiac<sup>1</sup>, Lotte Fischer<sup>1,2</sup>,  
Lisa Astrologo<sup>3</sup> and Cécile Flahault<sup>1,4,5</sup>

## Abstract

Improved treatments for cystic fibrosis allow more patients to become parents. This article presents a systematic review of literature on cystic fibrosis patients' experience of parenthood. Five databases (Cairn, Cochrane Library, PsycINFO, PubMed and ScienceDirect) produced 2335 documents that were screened. In total, 13 documents were retained and assessed with validated criteria. Five themes related to cystic fibrosis parenthood were discovered: population presentation, health and treatment adherence, adjustments, role of professionals and pressured temporality. Parenthood requires an important reorganisation of daily life in order to remain capable of childcare. Regardless of negative health impacts, cystic fibrosis parents have a positive outlook on parenthood.

## Keywords

adults, cystic fibrosis, experience, parenthood, systematic review

## Introduction

Cystic fibrosis (CF) is the most lethal genetic disease in the Caucasian population (Hubert, 2017). It is caused by mutations on the CFTR gene (cystic fibrosis transmembrane conductance regulator) which are responsible for mucus exacerbation and viscosity, particularly in the lungs (Hubert, 2017). This chronic condition has many complex health implications (i.e. chronic respiratory infections which lead to respiratory insufficiency, pancreatic insufficiency, diabetes, and hepatic cirrhosis) (Hubert, 2017). Consequently, patients typically undergo intensive and time-consuming treatments, including physiotherapy, nutrition and enzymatic supplementation, and/or regular antibiotics courses. These come with complicated constraints (i.e.

<sup>1</sup>Laboratoire de Psychopathologie et Processus de Santé (LPPS), Université de Paris, Institut de Psychologie, Boulogne-Billancourt, France

<sup>2</sup>Service d'Addictologie, Hôpital René-Muret (AP-HP), Hôpitaux Universitaires Paris Seine-Saint-Denis (HUPSSD), Sevrans, France

<sup>3</sup>Interpersonal Relationships and Development Laboratory, Centre for Research in Human Development, Department of Psychology, Concordia University, Montreal, QC, Canada

<sup>4</sup>Psychiatrie de l'Adulte et du Sujet Âgé, Hôpital Européen Georges-Pompidou, Paris, France

<sup>5</sup>Unité de Psycho-Oncologie, Institut Gustave Roussy, Villejuif, France

### Corresponding author:

Anne Jacob, Laboratoire de Psychopathologie et Processus de Santé (LPPS), Université de Paris, Institut de Psychologie, 71 Avenue Edouard Vaillant, F-92100 Boulogne-Billancourt, France.

Email: jacob.anne@protonmail.com

clinical visits, hospitalisation, isolation, etc.) and the possibility of needing a lung transplant (Higham et al., 2013; Hubert, 2017).

Due to the available treatments, life expectancy has dramatically improved for these individuals. Life expectancy for CF patients increased by 5 years in the 1960s to being 46.2 years for those born in 2017 in the United States (Cystic Fibrosis Foundation, 2018). Moreover, current treatment improvements, such as CFTR modulators which vastly improve the lung functions of CF patients, are likely to continue increasing life expectancy for these individuals (Cystic Fibrosis Foundation, 2018). The improvements in CF treatments allow more patients to become adults. Specifically, more than half of CF patients (53.2% to over 55%) are adults in the United States (Cystic Fibrosis Foundation, 2018), Australia (Ruseckaite et al., 2019) and Western European countries (Zolin et al., 2019). This allows CF patients to both experience and desire normal life events such as parenthood (Higham et al., 2013; Lomas and Fowler, 2010). For example, the number of pregnancies declared by CF women in the United States doubled in the past 20 years, reaching 273 in 2017 (Cystic Fibrosis Foundation, 2018).

Natural conception is usually compromised by the infertility of most men (over 95%) (Hubert, 2017; Lewis-Jones et al., 2000) and diminished fertility of women (Burden et al., 2012). Therefore, some CF patients choose to adopt but they represent a small minority (Hubert et al., 2006). Since the infertility of men is caused by a congenital bilateral absence of the vas deferens (CBAVD) (Hubert et al., 2006), patients commonly seek medically assisted procreation (MAP) with in vitro fertilisation using a sperm donor or microsurgical sperm aspiration coupled with intracytoplasmic spermatozoan injection (ICSI) (Hubert, 2017; Hubert et al., 2006). Despite diminished fertility (Burden et al., 2012; Hubert, 2017), women often succeed in getting pregnant. Regardless of their physical condition, CF women deliver healthy babies without above average neonatal issues or death (Burden et al., 2012; Girault et al., 2016; Thorpe-Beetson et al., 2013).

However, the literature shows that CF mothers are more likely to experience premature deliveries than the global population (Girault et al., 2016; Thorpe-Beetson et al., 2013). Also, studies have demonstrated an association between respiratory capacities before pregnancy and gestational age, type of delivery and mortality rate. Also, women with an FEV1 (forced expiratory volume in 1 second) under 60% are more likely to go into labour prematurely, have a caesarian and/or die before their child's 10th birthday (Girault et al., 2016; Thorpe-Beetson et al., 2013).

The number of CF parents is expected to continue to increase in the upcoming years (Higham et al., 2013). Regardless of physical health, parenthood is a challenging step in life which involves new routines, roles, and needs (Nyström and Ohrling, 2004). Related to their conditions, parents with chronic illness are facing additional difficulties related to psychosocial, emotional, cognitive, physical, and organisational domains such as tiredness, pain, loss of capacities, stigmatisation, less time with the children, and negative outcomes on family well-being and household accidents (Candilis-Huisman et al., 2017; Vallido et al., 2010). Given the unique medical, relational, and emotional implications, CF patients could face specific issues that are uniquely related to their disease. Through a systematic review of literature addressing the question: 'How do CF patients experience parenthood?', the aim of our study was to collect and compile the knowledge about this emerging field and to suggest different perspectives for future studies.

## Methodology

Our review followed the preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses (PRISMA) (Moher et al., 2015) guidelines for systematic reviews of literature. We consulted resources from four appropriate international databases related to our topic (Cochrane Library, PsycINFO, PubMed, ScienceDirect) and one French database (Cairn) in August 2019. We considered every resource relative to

CF patients already having children regardless of health status or age and without restriction on design.

We conducted two database searches: one focusing on CF and the other focusing on chronic condition. We tested different equations of words related to parenthood to determine the best match. The best keywords allowing a large and relevant research were then coupled with the keywords of both searches, as presented in Box 1.

**Box 1.** Research equations.

1. ('cystic fibrosis') AND ( 'parenting' OR 'parenthood')
2. ('chronic disease\*' OR 'chronic illness\*' OR 'long-term condition\*' OR 'chronic condition\*') AND ('parenting' OR 'parenthood')

NB: those equations were used on Cairn, Cochrane Library, PsycINFO and PubMed databases. To limit the number of publications on ScienceDirect database, 'Title/Abstract' criteria were selected and refined.

### Eligibility criteria

To start, titles and abstracts were screened. Full-text documents were read if the title and/or abstract were ambiguous. Only sources that described parenthood for at least one CF parent were selected. Inaccessible documents were excluded. Many excluded sources focused on CF children and adolescents, infertility, transitions from paediatric to adult medical services, genetic screening, genetic exploration, reproduction techniques, sexuality, challenges with diagnosing a child, and other chronic diseases.

Studies that met our eligibility criteria were read in their entirety if possible. To ensure breadth of knowledge, abstracts of unpublished studies were also included. Finally, only studies that focused on parenthood after birth/adoption were selected. Except for one article written in German, all selected articles were written in English. The German article was included due to the English version of the abstract showing the relevance to our study and

it being a continuation of a larger study presented in two articles already included in our analyses. Information pertinent to our synthesis was extracted by the main author (L.F. for the German article). A transversal approach was used to assess the recurrent and/or important themes outlined in the selected studies.

### Quality evaluation of selected studies

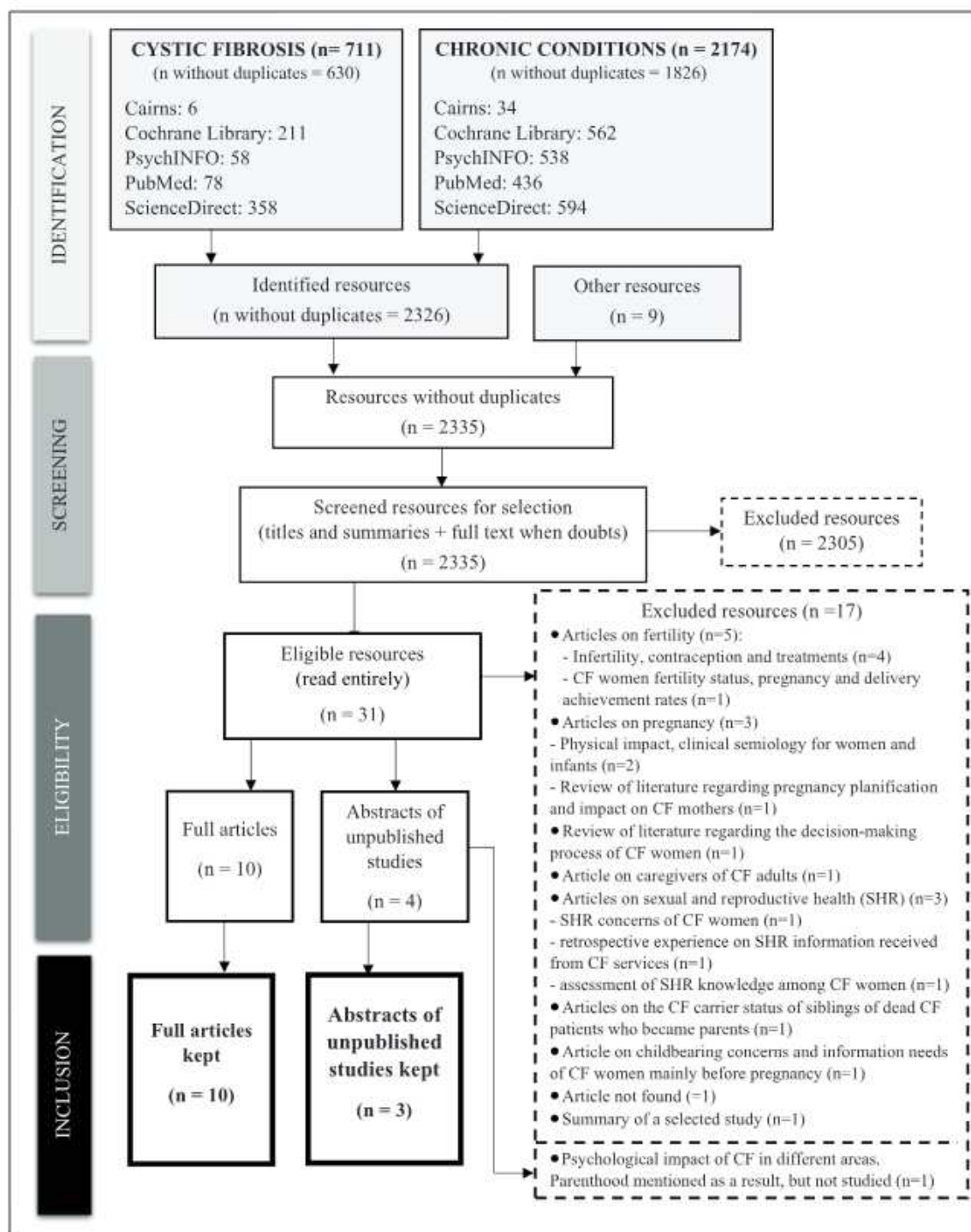
The quality assessment tool for studies with diverse design (QATSDD) (Sirriyeh et al., 2012) was used to evaluate the quality of selected studies. It assesses the presence of specific information within a study and the quality of which it is presented. Specifically, 16 concepts are evaluated on a scale from 0 to 3 (0 = not present, 1 = poor quality and 3 = good quality). The scores are summed and a score out of 100 is computed to allow researchers to quantitatively compare the quality of studies. This tool was used as it can evaluate both quantitative and qualitative studies.

## Results

A total of 2335 resources were screened with 31 resources meeting our eligibility criteria. Using the inclusion criteria presented in Figure 1, 10 articles (Barker et al., 2017; Bianco et al., 2019; Cammidge et al., 2016; Duguépéroux et al., 2006; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018; Schechter et al., 2013; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c) and three abstracts were retained (Downey et al., 2015; Frankl and Hjelte, 2004; Lauritsen and Pressler, 2008).

### Quality of complete studies

The quality of the articles was assessed independently by two health psychologists (A.J. and J.J.). The results were then discussed before conducting a second assessment with the same individuals. A separate assessment was made by a senior health psychologist (C.F.) and compared to the second assessment. Once all authors reached a consensus, a final score was given to every article and an



**Figure 1.** Flow diagram of study selection.

inter-rater correlation coefficient was calculated between authors' scores (Table 1).

The final quality scores fell within the range of 40 and 81 % ( $M=62.8\%$ ). One article was of

a lower quality due to the shortness of the paper. Given its brevity, the paper was unable to go beyond describing general information. Despite this article's low score, the global assessment

**Table 1.** Results of quality evaluation with the QATSDD and correlation coefficients.

|                                                                                              | Notes by authors (%) |               |               | Final note (%) |
|----------------------------------------------------------------------------------------------|----------------------|---------------|---------------|----------------|
|                                                                                              | A.J.                 | J.J.          | C.F.          |                |
| Barker et al. (2017)                                                                         | 60                   | 64            | 67            | 64             |
| Bianco et al. (2019)                                                                         | 43                   | 40            | 38            | 40             |
| Cambridge et al. (2016)                                                                      | 81                   | 69            | 83            | 81             |
| Duguépéroux et al. (2006)                                                                    | 62                   | 45            | 55            | 57             |
| Hailey et al. (2019)                                                                         | 69                   | 67            | 71            | 69             |
| Jessup et al. (2018)                                                                         | 69                   | 69            | 64            | 67             |
| Schechter et al. (2013)                                                                      | 71                   | 55            | 64            | 67             |
| Ullrich et al. (2015a)                                                                       | 50                   | 56 (L.F.)     | –             | 54             |
| Ullrich et al. (2015b)                                                                       | 69                   | 71            | 65            | 67             |
| Ullrich et al. (2015c)                                                                       | 60                   | 62            | 55            | 62             |
| Correlation coefficients between authors without the German article (Ullrich et al. (2015a)) | A.J. and J.J.        | J.J. and C.F. | A.J. and C.F. |                |
|                                                                                              | 0.72                 | 0.79          | 0.92          |                |

QATSDD: quality assessment tool for studies with diverse design.

shows other studies to be of adequate to good quality (detailed evaluation available in Appendix 1). The correlation coefficients (minimum  $r=0.72$ ) demonstrated a high level of inter-rater reliability among authors. The German article was assessed separately. It was summarised in French by a German bilingual psychologist (L.F.) to allow an evaluation of quality (L.F. and A.J.).

### Global characteristics of selected studies

Study and participant characteristics are summarised in Table 2.

The majority of studies were European (Barker et al., 2017; Bianco et al., 2019; Cambridge et al., 2016; Downey et al., 2015; Duguépéroux et al., 2006; Frankl and Hjelte, 2004; Lauritsen and Pressler, 2008; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c), four studies were conducted in the United Kingdom (Barker et al., 2017; Bianco et al., 2019; Cambridge et al., 2016; Downey et al., 2015), and half used qualitative designs (Barker et al., 2017; Cambridge et al., 2016; Downey et al., 2015; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018). Three articles described different parts of a larger

study, using the same sample (Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c) or a portion of the larger sample (Ullrich et al., 2015a, 2015b). Women were more represented than men ( $1382 \pm 40$  vs  $141 \pm 40$ ), even though gender was not specified in two studies ( $n=231$ ) (Downey et al., 2015; Frankl and Hjelte, 2004). There were at least 257 children from CF parents; however, in some studies, numbers were either missing (Downey et al., 2015; Hailey et al., 2019; Lauritsen and Pressler, 2008) or only an approximate (Bianco et al., 2019; Frankl and Hjelte, 2004). In the complete articles, there were at least 187 children for 163 parents. One article did not specify the total number of children (Hailey et al., 2019), and another only mentioned first-born children (Bianco et al., 2019). There were 119 mothers for whom the authors only had access to the number of pregnancies without knowing the number of children that were carried to term (Schechter et al., 2013).

### Measures

Nearly all the qualitative studies used single semi-structured interviews lasting 30–120 minutes, conducted in the patients' home, clinics, or

**Table 2.** Global characteristics of included studies ( $n = 11^*$ ).

|                                            | N               |
|--------------------------------------------|-----------------|
| Complete articles                          | 10              |
| Complementary resources (abstracts)        | 3               |
| Country (Number of studies)                |                 |
| Australia                                  | 1               |
| The United States and Canada               | 1               |
| The United States                          | 1               |
| The United Kingdom                         | 3 + 1 abstract  |
| France                                     | 1               |
| Germany                                    | 1*              |
| Denmark                                    | 1 abstract      |
| Sweden                                     | 1 abstract      |
| Design (Number of studies)                 |                 |
| Qualitative                                | 4 + 1 abstract  |
| Quantitative                               | 3 + 2 abstracts |
| Mixed                                      | 1*              |
| Type of participants (Number of studies)   |                 |
| Mothers                                    | 3*              |
| Fathers                                    | 2               |
| Both                                       | 3 + 2 abstracts |
| Both + spouses                             | 1 abstract      |
| Participants (Number of subjects included) |                 |
| Total                                      | 1773            |
| Women                                      | 1382 $\pm$ 231  |
| Men                                        | 160 $\pm$ 231   |
| CF parents                                 | 314             |
| CF controls                                | 1258            |
| CF patients (not parent and not control)   | 10              |
| Non-CF controls                            | 91              |
| Spouses of CF parent                       | 29              |
| Spouses of non-CF parent                   | 71              |
| Children from CF parents                   | At least 257    |

CF: cystic fibrosis.

\*Includes one study detailed in three articles which are not counted here.

by telephone (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018). Interviews were transcribed and analysed through different thematic approaches: interpretative phenomenological analysis (Barker et al., 2017), grounded theory (Cammidge et al., 2016), phenomenological approach of Van Manen (Jessup et al., 2018), and thematic analysis (Hailey et al., 2019). While one study conducted several interviews, they were not analysed (Downey et al., 2015).

For the mixed design study, the qualitative component consisted of addressing open-ended questions that were either analysed in a descriptive or non-specified way (Ullrich et al., 2015a), or classified as 'positive' or 'negative' responses by the researchers (Ullrich et al., 2015b).

Quantitative assessments were made using validated questionnaires to measure different psychosocial issues linked to parenthood: quality of life (QoL) (Cystic Fibrosis Quality of Life Scale (CFQoL) (Cammidge et al., 2016) and Cystic

Fibrosis Questionnaire-Revised (CFQ-R) (Schechter et al., 2013)), parental stress (German and Swedish equivalents of Parenting Stress Index Scale (SPQs) (Frankl and Hjelte, 2004; Ullrich et al., 2015c)), depression and anxiety (Hospital Anxiety and Depression Scale (HADS) (Cammidge et al., 2016)). Two other questionnaires were used in the study of Frankl and Hjelte (2004): the 'Parenthood when having CF' questionnaire and the 'value of children to parents' questionnaire. Results were interpreted using the questionnaires' cut-off scores (Ullrich et al., 2015c), by comparing subjects to general population (Ullrich et al., 2015c), to numbers reported in the literature (Cammidge et al., 2016), or to control patients (Frankl and Hjelte, 2004; Schechter et al., 2013). The answers to the non-psychometrically valid questionnaires were used descriptively (Ullrich et al., 2015a, 2015b). Clinical data were measured in retrospective studies through clinical databases (Duguépéroux et al., 2006; Schechter et al., 2013), customised data collection forms (Bianco et al., 2019), or through unspecified methods (Lauritsen and Pressler, 2008). Data were used to observe changes through time with repeated measures (Schechter et al., 2013), *t*-test or Wilcoxon signed-rank test (Bianco et al., 2019), or compared to control CF patients previously matched to CF parents with the chi-square analyses, covariances (Duguépéroux et al., 2006), and conditional logit models (Schechter et al., 2013).

### Qualitative synthesis of results

From the numerous issues raised by the selected studies, we identified five related main themes: population presentation, health and treatment adherence, adjustments, role of professionals and pressured temporality. Their occurrence within the articles is presented in Table 3. Despite a lower occurrence of the professional theme, it was classified as a main theme due to the articles regularly highlighting its importance.

#### Theme 1: population presentation

The type and amount of data on the studied population varied across articles. Qualitative

studies typically focused on sociodemographic information, whereas quantitative studies focused on medical data (Tables 4 and 5). Therefore, drawing a precise profile of the CF parent or recognising gender and/or contextual differences based on selected studies remains difficult. However, we observed some patterns.

**Sociodemographic data.** CF parents were mainly married or living in cohabitation (Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c). Around half of the subjects were working at least part time (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c) and the proportion tended to be higher in samples with both males and females (Barker et al., 2017; Hailey et al., 2019). Men who conceived naturally and most women became parents in their 20s (Duguépéroux et al., 2006; Schechter et al., 2013; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c) whereas men who utilised MAP or adoption became fathers in their 30s (Duguépéroux et al., 2006). MAP was more frequently used by fathers (47/69 births) (Duguépéroux et al., 2006) than mothers (2/50 births) (Ullrich et al., 2015a, 2015b). Most parents had one child, but some had two (twins or not) (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Duguépéroux et al., 2006; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c) or even three children (Duguépéroux et al., 2006; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c). There were more biological children. Specifically, out of 124 children, 76 were born naturally, 58 with MAP and 5 were adopted (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Duguépéroux et al., 2006; Ullrich et al., 2015a, 2015b). Except for their age or their disease status (no CF children mentioned) (Barker et al., 2017; Duguépéroux et al., 2006; Hailey et al., 2019), no other information was given about the children.

**Medical data.** CF parents were mainly diagnosed during childhood, and 9–22% of the samples were diagnosed in adulthood (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Duguépéroux et al., 2006; Hailey et al., 2019; Ullrich

**Table 3.** Themes and subthemes in selected studies.

|                               | Population            |              |                    | Health and therapeutic adherence |                                          |                 | Adjustments           |                                    |                   | Pressured temporality       |                      |                     | The role of professionals |             |                |         |                                               |
|-------------------------------|-----------------------|--------------|--------------------|----------------------------------|------------------------------------------|-----------------|-----------------------|------------------------------------|-------------------|-----------------------------|----------------------|---------------------|---------------------------|-------------|----------------|---------|-----------------------------------------------|
|                               | Sociodemographic data | Medical data | Type of conception | Mental health                    | Positive impact (physical/psychological) | Physical health | Therapeutic adherence | Balance child's and parent's needs | Coping strategies | Social support from spouses | Other social support | General time issues |                           | End of life | Fear of future | Orphans | Before: decision-making and path to pregnancy |
| Barker et al. (2017)          | x                     | x            | x                  | X                                | x                                        | x               | X                     | X                                  | x                 | X                           | x                    | x                   | x                         | x           |                | x       |                                               |
| Bianco et al. (2019)          | (x)                   | X            |                    |                                  |                                          | X               | X                     |                                    | X                 |                             | x                    |                     |                           |             |                | X       |                                               |
| Camidge et al. (2016)         | x                     | x            | x                  | X                                | x                                        | X               | X                     | X                                  | X                 |                             | x                    | x                   | x                         |             |                | X       |                                               |
| Duguépéroux et al. (2006)     |                       | X            | X                  |                                  |                                          | X               | X                     |                                    |                   |                             |                      | x                   |                           |             | x              | (x)     |                                               |
| Hailey et al. (2019)          | x                     | x            | X                  | (x)                              | X                                        | X               | X                     | X                                  | (x)               |                             |                      | X                   | X                         | X           | x              | X       |                                               |
| Jessup et al. (2018)          | (x)                   | (x)          |                    | X                                | X                                        | x               | (x)                   | x                                  | X                 |                             | x                    | X                   | X                         | X           | x              | X       |                                               |
| Schechter et al. (2013)       | x                     | x            |                    | X                                |                                          | X               | x                     |                                    | x                 |                             |                      | x                   |                           |             |                | (x)     |                                               |
| Ullrich et al. (2015a)        | x                     | x            | (x)                | X                                | X                                        | X               | X                     |                                    | X                 | X                           | X                    | X                   | X                         |             |                | X       |                                               |
| Ullrich et al. (2015b)        | x                     | x            |                    |                                  |                                          | X               | X                     | x                                  | X                 | x                           | x                    | x                   |                           |             |                |         |                                               |
| Ullrich et al. (2015c)        | x                     | x            |                    | X                                |                                          | (x)             | X                     | X                                  | X                 | x                           | x                    |                     | (x)                       |             |                |         |                                               |
| Downey et al. (2015)          |                       |              |                    |                                  |                                          |                 |                       |                                    |                   |                             |                      | x                   | X                         |             | x              |         | x                                             |
| Frankl and Hjelte (2004)      |                       |              |                    | X                                |                                          |                 |                       |                                    | X                 | X                           |                      | x                   |                           |             |                |         | x                                             |
| Lauritsen and Pressler (2008) | x                     |              |                    |                                  |                                          | X               | x                     |                                    |                   |                             |                      | x                   |                           |             |                |         |                                               |
| Number of themes apparition   | 8                     | 10           | 5                  | 8                                | 4                                        | 10              | 7                     | 5                                  | 7                 | 8                           | 6                    | 10                  | 6                         | 3           | 4              | 7       | 6                                             |

(x): scarce information related to theme or subtheme; x: minimal information related to theme or subtheme; X: plenty of information related to theme or subtheme; X: plenty of information and major theme or subtheme in the study.

**Table 4.** Sociodemographic of CF patients in selected studies (data presented in at least two or three documents).

| Sociodemographic data         |                       |                                       |                                 |                                          |                                                |                                       |                                           |                    |                               |                                         |                               |
|-------------------------------|-----------------------|---------------------------------------|---------------------------------|------------------------------------------|------------------------------------------------|---------------------------------------|-------------------------------------------|--------------------|-------------------------------|-----------------------------------------|-------------------------------|
|                               | Number of CF patients | Mean age of CF patients               | Mean age at first child arrival | Number of patients married or equivalent | Number of patients at least part time employed | Number of parents with a single child | Number of parents with 2 or more children | Number of children | Number of natural conceptions | Number of medical-assisted procreations | Number of adoptions           |
| Barker et al. (2017)          | 9                     | 37                                    | NS                              | NS                                       | 7 (78%)                                        | 4 (44%)                               | 5 (56%) (5 × 2)                           | 14                 | NS                            | For six parents (66%)                   | 0                             |
| Blanco et al. (2019)          | 19                    | NS                                    | 33.5 ± 4                        | NS                                       | NS                                             | NS                                    | NS                                        | At least 19        | NS                            | NS                                      | NS                            |
| Cambridge et al. (2016)       | 11                    | NS                                    | NS                              | 11 (100%)                                | 4 (36%)                                        | NS                                    | NS                                        | 14                 | 10 (71%)                      | 3 (21%)                                 | 1 (7%)                        |
| Duguépéroux et al. (2006)     | 48                    | 37.7 ± 8.2                            | 30.7 ± 5.2                      | NS                                       | NS                                             | 33 (69%)                              | 17 (35%) (14 × 2; 3 × 3)                  | 69                 | 18 (26%)                      | 47 (68%)                                | 4 (6%)                        |
| Hailey et al. (2019)          | 10                    | 28.5 (including non-parents subjects) | NS                              | 10 (100%)                                | 6 (60%)                                        | Between 1 and 9                       | Between 1 and 9                           | Between 10 and 19  | NS                            | NS                                      | NS                            |
| Jessup et al. (2018)          | 7                     | NS                                    | NS                              | NS                                       | NS                                             | 4 (57%)                               | 3 (42%)                                   | 10                 | NS                            | NS                                      | NS                            |
| Schechter et al. (2013)       | 11                    | NS                                    | 23.4 ± 4.8*                     | NS                                       | NS                                             | Not known by the authors              | 9 (6 × 2; 3 × 3)                          | 50                 | 48 (96%)                      | 2 (4%)                                  | 0                             |
| Ulrich et al. (2015a)         | 38                    | 33.8 ± 7.1                            | Most in their 20s (6 < 20)      | 32 (84%)                                 | 18 (47%)                                       | 29 (76%)                              | 9 (6 × 2; 3 × 3)                          | 50                 | 48 (96%)                      | 2 (4%)                                  | 0                             |
| Ulrich et al. (2015b)         | 38                    | 33.8 ± 7.1                            | Most in their 20s (6 < 20)      | 32 (84%)                                 | 18 (47%)                                       | 29 (76%)                              | 9 (6 × 2; 3 × 3)                          | 50                 | 48 (96%)                      | 2 (4%)                                  | 0                             |
| Ulrich et al. (2015c)         | 31                    | 32.6 ± 6.9                            | 27 ± 5.8                        | 15 (48%)                                 | 25 (81%)                                       | 6 (5 × 2; 1 × 3)                      | 38                                        | NS                 | NS                            | NS                                      | Ulrich et al. (2015c)         |
| Downey et al. (2015)          | 5                     | NS                                    | NS                              | NS                                       | NS                                             | NS                                    | NS                                        | NS                 | NS                            | NS                                      | Downey et al. (2015)          |
| Frankl and Hjelte (2004)      | 35                    | NS                                    | NS                              | NS                                       | NS                                             | NS                                    | NS                                        | NS                 | NS                            | NS                                      | Frankl and Hjelte (2004)      |
| Lauritsen and Pressler (2008) | 16                    | NS                                    | NS                              | NS                                       | NS                                             | NS                                    | ≈ 70                                      | NS                 | NS                            | NS                                      | Lauritsen and Pressler (2008) |

CF: cystic fibrosis; NS: not specified.

\*Age at baseline = some months before the pregnancy.

**Table 5.** Medical data of CF patients in selected studies (data presented in at least two or three documents).

| Medical data                  |                                                    |                                                            |                                                    |                                        |                                                                        |               |                        |                     |                                                       |                                         |                                                                                        |
|-------------------------------|----------------------------------------------------|------------------------------------------------------------|----------------------------------------------------|----------------------------------------|------------------------------------------------------------------------|---------------|------------------------|---------------------|-------------------------------------------------------|-----------------------------------------|----------------------------------------------------------------------------------------|
|                               | Number of CF patients diagnosed before 2 years old | Number of CF patients diagnosed between 2 and 10 years old | Number of CF patients diagnosed during adolescence | Number of CF patients during adulthood | Mean FEV <sub>1</sub> , % of expected value                            | Mean BMI      | Number of transplanted | Diabetes prevalence | Number of patients under pancreatic enzyme complement | Prevalence of genotypes F508delta       | Number of patients suffering from chronic infection with <i>Pseudomonas aeruginosa</i> |
| Barker et al. (2017)          | Seven during childhood (78%)                       |                                                            |                                                    | 2 (22%)                                | 70.2% (ranges 40%–50% to 91%–100%)                                     | NS            | 0                      | NS                  | NS                                                    | NS                                      | NS                                                                                     |
| Blanco et al. (2019)          | NS                                                 | NS                                                         | NS                                                 | NS                                     | Best mean during the follow-up period (12–15 months after birth) 57.4% | NS            | Excluded               | 7 (37%)             | NS                                                    | NS                                      | NS                                                                                     |
| Camidge et al. (2016)         | 7 (63%)                                            | 2 (18%)                                                    | 1 (9%)                                             | 1 (9%)                                 | 71% (range 27–103)                                                     | 22            |                        | 5 (45%)             | 8 (73%)                                               | NS                                      | NS                                                                                     |
| Duguépéroux et al. (2006)     | 24 before 10 years old (50%)                       |                                                            | NS                                                 | NS                                     | 50.5% (n = 41, exclusion of transplanted and dead subjects)            | 20.9 ± 3.05   | 1                      | 18.4%               | 29 (72.5%)                                            | 27.1% homozygote                        | 26 (54%)                                                                               |
| Hailey et al. (2019)          | NS                                                 | NS                                                         | NS                                                 | 2                                      | 71.5%                                                                  | NS            | NS                     | NS                  | NS                                                    | NS                                      | NS                                                                                     |
| Jessup et al. (2018)          | NS                                                 | NS                                                         | NS                                                 | NS                                     | NS                                                                     | NS            | NS                     | NS                  | NS                                                    | NS                                      | NS                                                                                     |
| Schechter et al. (2013)       | NS                                                 | NS                                                         | NS                                                 | NS                                     | 74.1% ± 19.6                                                           | −0.23 z-score | NS                     | 14 (11.8%)          | NS                                                    | 37.8% homozygote and 36.1% heterozygote | NS                                                                                     |
| Ullrich et al. (2015a)        | 27 (71%)                                           | 5 (13%)                                                    | 2 (5%)                                             | 4 (11%)                                | 66% ± 19 (n = 29/38)                                                   | 20.8 ± 2.5    | 0                      | 15 (39%)            | 30 (79%)                                              | NS                                      | 33 (87%)                                                                               |
| Ullrich et al. (2015b)        | 27 (71%)                                           | 5 (13%)                                                    | 2 (5%)                                             | 4 (11%)                                | 66% ± 19 (n = 29/38)                                                   | 20.8 ± 2.5    | 0                      | 15 (39%)            | 30 (79%)                                              | NS                                      | 33 (87%)                                                                               |
| Ullrich et al. (2015c)        | 23 (74%)                                           | 3 (10%)                                                    | 2 (6%)                                             | 3 (10%)                                | 67% ± 17 (n = 23/31)                                                   | 20.8          | 0                      | 12 (39%)            | 25 (81%)                                              | NS                                      | 27 (87%)                                                                               |
| Downey et al. (2015)          | NS                                                 | NS                                                         | NS                                                 | NS                                     | NS                                                                     | NS            | NS                     | NS                  | NS                                                    | NS                                      | NS                                                                                     |
| Frankl and Hjelte (2004)      | NS                                                 | NS                                                         | NS                                                 | NS                                     | NS                                                                     | NS            | NS                     | NS                  | NS                                                    | NS                                      | NS                                                                                     |
| Lauritsen and Pressler (2008) | NS                                                 | NS                                                         | NS                                                 | NS                                     | Female: 58.1% (range 29.1–75.1) and Male: 66% (range 36.1–81.3)        | NS            | NS                     | NS                  | NS                                                    | NS                                      | NS                                                                                     |

CF: cystic fibrosis; FEV<sub>1</sub>: forced expiratory volume in 1 second; BMI: body mass index; NS: not specified.

et al., 2015a, 2015b, 2015c). Their respiratory difficulties were generally moderate (mean FEV1 between 50.5% and 74.1% of expected value) (Barker et al., 2017; Bianco et al., 2019; Cammidge et al., 2016; Duguépéroux et al., 2006; Hailey et al., 2019; Lauritsen and Pressler, 2008; Schechter et al., 2013; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c), their mean body mass index (BMI) was within the norm (between 19.5 and 23.1) (Cammidge et al., 2016; Duguépéroux et al., 2006; Schechter et al., 2013; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c) and two studies registered a majority of patients with the *F508delta* gene (Duguépéroux et al., 2006; Schechter et al., 2013).

## **Theme 2: health and treatment adherence**

The topic of health, both mental and physical, was a central theme discussed in nearly every study. Its impact on parenthood and vice versa was one of the main challenges faced by CF parents. That question was addressed in terms of estimated cost (calculation for every possible medical complication) or actual cost (visible impact once the child was born/adopted).

### **Mental health**

**Quantitative findings.** Mental health was assessed for mothers or couples with a CF parent regarding stress, QoL, depression, and anxiety. One study revealed that depression and anxiety levels of CF mothers were equivalent to their CF controls (Cammidge et al., 2016). The CF mothers' QoL was said to be generally equivalent to their controls' QoL (Schechter et al., 2013) and literature references (Cammidge et al., 2016), but slightly lower in some domains: physical functioning, vitality, health perception and respiratory symptoms (Schechter et al., 2013). Ullrich et al. (2015c) observed no significant differences between CF mothers' stress level and parents in the general population, and no differences within their sample regarding mothers' FEV, employment and the number of wanted or unwanted pregnancies. While not

statistically significant, there was a tendency for CF mothers, specifically mothers of boys and school-aged children, to report greater amounts of stress than the general population (Ullrich et al., 2015c).

**Qualitative findings.** CF parents had overall positive feelings towards parenthood. CF parents described parenthood as a wonderful experience (Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019), their biggest accomplishment (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Jessup et al., 2018), a source of motivation to get better (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018), and something that brought their family closer together (Cammidge et al., 2016). In Jessup et al.'s (2018) study, CF parents described themselves happy to 'live the dream' of parenthood. In Cammidge et al.'s (2016) sample, parenthood was not perceived as a burden and none of the women in the study reported regretting having children. Unlike mothers with other chronic conditions, CF mothers reported feeling secure in their parenting abilities and with the way society might judge their parenting skills (Cammidge et al., 2016). The Swedish patients reported very few worries about the negative impact the disease could have on their children and on their ability to be good parents (Frankl and Hjelte, 2004).

While CF parents are usually described as having a positive well-being, parenthood for CF parents could also have negative implications on one's mental health. For example, CF parents reported experiencing guilt due to limited abilities and absences caused by medical needs (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019), and feeling the need to choose between spending time with their children at the expense of their treatments (Barker et al., 2017). This feeling led to lower mood for mothers with young children and feelings of exhaustion which had negative impacts on well-being (Barker et al., 2017). Fathers reported feeling sadness and frustration due to their absences caused by medical treatments and feeling like a burden for their families. CF fathers

also expressed anger due to not feeling like a 'normal' dad (Barker et al., 2017). Moreover, CF parents reported being worried about the negative impact their disease may have on their children, specifically how to talk about their illness to their children (Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019). Finally, the fear of being selfish with regard to wanting children was also mentioned (Jessup et al., 2018).

While qualitative studies provided an enriching account of CF parents' mental health, quantitative data to support these findings were severely lacking.

**Physical health: quantitative findings.** The physical impact of parenthood was well-documented due to two retrospective studies with big cohorts (Duguépéroux et al., 2006; Schechter et al., 2013).

**CF parents compared to CF controls.** These studies concluded that the impact of CF parenthood was neither positive nor negative. Nonetheless, they described a few differences between CF parents and their CF controls (Duguépéroux et al., 2006; Schechter et al., 2013; Ullrich et al., 2015c).

Compared to controls, CF fathers were two times less malnourished and experienced higher levels of aspergillosis or nasal polyposis (Duguépéroux et al., 2006). Conversely, CF mothers were more likely to use intravenous antibiotics and experience more coughs, sputum and crackles than their controls (Schechter et al., 2013). While not statistically significant, CF fathers used antibiotics more often within the first 2 years of their first child's birth (Bianco et al., 2019). Despite negative impacts, the overall physical state of CF parents was described by some authors as good when compared to controls (Duguépéroux et al., 2006; Schechter et al., 2013).

**Health across time.** In the post-partum years, the two large retrospective studies found no significant changes in respiratory symptoms for CF parents (Duguépéroux et al., 2006; Schechter et al., 2013). Moreover, the nutrition

status was described as stable (Duguépéroux et al., 2006; Lauritsen and Pressler, 2008; Schechter et al., 2013), and most German mothers declared no health changes or even some improvements (Ullrich et al., 2015b). However, a significant loss of weight was reported for fathers during the second post-partum year (Bianco et al., 2019). A decline of respiratory functions was also described regarding the parents' FEV1 (Bianco et al., 2019; Lauritsen and Pressler, 2008), and reported by 26% of German mothers (Ullrich et al., 2015b). The falling trajectory was not significant for the English fathers (Bianco et al., 2019), but the Danish authors observed a progressive decline of CF parents' FEV1 occurring in the first or second post-partum year for mothers, and after 2 years for fathers (Lauritsen and Pressler, 2008). These papers highlight the need for better clinical surveillance from doctors (Bianco et al., 2019) and treatment adherence from patients (Lauritsen and Pressler, 2008).

Other negative aspects were mentioned, such as intense fatigue (Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019), more medical visits for CF mothers due to clinical reasons (Schechter et al., 2013) and an increasing number of medical visits over time for CF fathers (Duguépéroux et al., 2006). Moreover, difficult management of physical health was mentioned in qualitative studies, with parents discussing their efforts to stay healthy and to manage their pain (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018).

**Therapeutic adherence.** Therapeutic adherence refers to all medical treatments, hygienic and daily routines that patients have to observe (i.e. antibiotics, medical visits, nutrition complements, insulin shots, sport and physiotherapy). Results on this subject were poorly congruent, sometimes not generalisable, and data about fathers were almost non-existent. While CF mothers had similar treatment adherence to controls, they were observed to use less corticosteroids (Schechter et al., 2013). Conversely, 42% of German mothers declared doing 'controlled (intentional) nonadherence' (Ullrich

et al., 2015b). Specifically, CF mothers reported not having enough time for treatment due to childcare duties (Ullrich et al., 2015b). Moreover, Lauritsen and Pressler (2008) posited that the decline of lung functioning could be explained by a poor therapeutic adherence and fewer antibiotic courses than required. Two qualitative studies revealed the struggle of some parents to adjust their treatment routine resulting in frustration (Barker et al., 2017; Hailey et al., 2019). Some mothers reported having difficulties with treatment adherence immediately after birth, but reported returning to their typical routine within a few months post-partum (Cammidge et al., 2016). After an adaptation period, CF parents described better treatment adherence which stemmed from their motivation to stay healthy for their children and to be able to care for them as long as possible (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019). Therapeutic adherence was also described as becoming easier over time for 29% of German mothers (Ullrich et al., 2015b), for CF fathers who did not consider themselves as the main caregiver (Barker et al., 2017) and for mothers of school-aged children (Barker et al., 2017; Ullrich et al., 2015b). While our results have established a link between treatment adherence and parents' health, it is still not well-understood.

### Theme 3: adjustments

**Balance between parents and children's needs.** Discussed in every qualitative study, this sub-theme appeared to be one of the main challenges for CF parents (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018; Ullrich et al., 2015b). Moreover, treatment adherence was directly linked to finding a balance between the needs of CF parents and children. Specifically, CF parents often found themselves in a paradoxical position, having to take care of themselves at the expense of the time dedicated to their children (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016). Consequently, prioritising treatment was a difficult dilemma for most CF parents (Barker et al.,

2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018; Ullrich et al., 2015b). Priorities were managed differently by men and women in mixed samples. Specifically, mothers of older children and fathers were more willing to prioritise their needs, even if it implied a separation, than mothers of younger children (Barker et al., 2017).

**Coping strategies.** Coping strategies, utilised by parents to adjust to new challenges, were often 'problem-oriented' as follows:

- Planification and optimisation of treatment routines with regard to their child's needs (Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019).
- Explanation of disease to the children (Jessup et al., 2018), and involvement of children in routines (to promote understanding and normalisation of the illness) (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Jessup et al., 2018). What to say, how, and when were a real subject of concerns for CF parents (Hailey et al., 2019).
- Efficient family organisation between all members (Cammidge et al., 2016; Jessup et al., 2018).

Also, patients utilised 'emotion-centred' coping strategies, such as resilience, hope and optimistic thinking (Cammidge et al., 2016; Jessup et al., 2018), humour (Jessup et al., 2018) and focusing on the present moment (Cammidge et al., 2016). Overall, 78% of mothers claimed to adjust efficiently to the difficulties they faced with their children (Ullrich et al., 2015c).

**Social support.** Finally, social support appeared as the most important factor for adjustment (Cammidge et al., 2016; Jessup et al., 2018; Ullrich et al., 2015b). Parents spoke about the social support they received (or lacked) from relatives, friends or other pregnant women before and during pregnancy (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Jessup et al., 2018; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c).

Once the child was born/adopted, spouses were the primary source of support reported by CF parents (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Jessup et al., 2018; Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c). Fathers of infants appeared to be more available (statistically non-significant results) for CF mothers than those of older children (Ullrich et al., 2015c). Grandparents (Cammidge et al., 2016; Jessup et al., 2018; Ullrich et al., 2015b) and friends (Cammidge et al., 2016; Ullrich et al., 2015b) were frequently mentioned as another important source of emotional support. In the German study, between 77 and 87% of mothers declared having someone they trusted to look after their children during times of need or to turn to when they had questions related to their children (Ullrich et al., 2015c). Finally, the German authors observed a tendency for mothers of primary school-aged children to receive more social support than mothers of older children (Ullrich et al., 2015c).

#### *Theme 4: role of professionals*

The role of professionals appeared as another parameter relevant to the adjustment of CF parents. Health professionals, especially doctors, were considered as a main source of information (Hailey et al., 2019; Ullrich et al., 2015a), and parents highly valued professionals' advice (Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018).

**Decision-making.** Studies reported that professionals played an important role in the decision-making process for CF parents when deciding to become parents (Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018). According to Ullrich et al. (2015a), professionals were supportive of women expressing the desire to get pregnant, especially for women with a high FEV. However, some CF women expressed a burden of not receiving positive support for their desire to have a child. Once the child arrived, parents expected the professionals to remain supportive, and to guide them through parenthood (Cammidge et al., 2016; Hailey et al.,

2019; Jessup et al., 2018). Most parents claimed to be well supported by health services, however, many reported experiencing a lack of support at some point during the parenthood process (Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018). Studies addressed other concerns from parents including: a lack of flexibility to adapt the treatments (Cammidge et al., 2016; Jessup et al., 2018), a lack of experience from CF teams, poor psychosocial or emotional support, and bad communication between CF and obstetrical services (Cammidge et al., 2016).

**Recommendations.** The research suggests that CF patients could benefit from more readily available resources and more detailed communication from health care professionals (Hailey et al., 2019; Ullrich et al., 2015a). Specifically, CF parents would like support regarding parental issues such as guidance for creating a strong social support network before the child's arrival and facilitating meetings with other CF parents in person or remotely (Hailey et al., 2019). Some CF patients reported not receiving enough information before they considered parenthood. They wished that fertility, sexuality and procreation issues had been discussed during their adolescence (Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018), and/or provided with written or online information (Hailey et al., 2019). Other recommendations were given by American parents for discussion between health professionals and patients about reproductive health and parenthood (Hailey et al., 2019). However, demands seemed to differ from one country to another since Swedish parents did not call for more professional support (Frankl and Hjelte, 2004). In addition, end of life support was discussed in two studies (Downey et al., 2015; Hailey et al., 2019). Authors called for training of palliative service teams in order to address this complex stage with regard to specific parental issues (i.e. what to leave, prepare, etc.).

#### *Theme 5: pressured temporality*

Finally, we found temporality to be a transversal theme across all studies. CF parents, at all steps

of parenthood, reported feeling the pressure of time. Specifically, they feel this pressure before pregnancy (i.e. decision-making and conception), during the birth/adoption, throughout parenthood and during end of life's preparation. These steps appeared to be tainted by the disease in one way or another.

**Urgency to conceive.** The decision-making process was described in qualitative studies regarding physical preparation for pregnancy (Cambridge et al., 2016), medical information (Cambridge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018; Ullrich et al., 2015a), fertility and MAP techniques (Barker et al., 2017; Duguépéroux et al., 2006; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018), and the financial cost of MAP in some countries (Jessup et al., 2018). Given their shorter life expectancy, CF parents felt the pressure to start thinking about parenthood early (Cambridge et al., 2016), and to conceive as soon as possible (Barker et al., 2017).

**Waiting for the child.** Pregnancy was a specific in-between period where CF parents described intense mixed feelings of excitement and fear that 'it could all stop quickly' (Jessup et al., 2018). Thus, hope went alongside with typical fears related to mothers or the foetus' health (Jessup et al., 2018; Ullrich et al., 2015a), and more illness related fears (i.e., death before birth, uncertain future) (Barker et al., 2017; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018).

**Chronic lack of time.** Once the child was born/adopted, the parenting years were characterised by a daily lack of time (for treatments or to take care of the children) linked to the constant threat of death created by their illness (Barker et al., 2017; Cambridge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2018). The awareness of a possible shortened lifespan was a concern for most CF parents, but the end of life period was rarely discussed. Downey et al. (2015) mentioned that dying CF parents struggled to communicate with their children and prepare them for their death and life without them. These authors, along with CF parents (Hailey

et al., 2019), call for more attention and support during end of life.

## Discussion

The literature analysis revealed less than ten fully published studies and three documents summarising studies addressing parenthood with CF. They used different methodologies: qualitative, quantitative and mixed designs. Based on the selected resources, we identified five main themes. These themes allowed us to start drawing a sociodemographic profile of CF parents and to study CF parents' health and adjustments made during parenthood. Some studies described CF parents in an overall good physical state when compared to their CF controls. However, CF parents faced negative health impacts, many challenges, and necessary adaptations to daily routines in order to fulfil both their parent/spousal duties while adhering to their treatment plan. In addition, a permanent time pressure was described. Specifically, CF parents experience urgency to conceive, limited time with the children, daily lack of time, fear of future and early death. Most studies outlined the need for better support from health teams to better address the issues reported by CF parents embarking on the journey of parenthood. Regardless, CF parents are shown to develop efficient coping strategies and receive important social support, especially from spouses. In addition, most CF parents expressed no regrets having children and described parenthood as a positive overall experience.

To our knowledge, this review is the first of its kind to address parenthood with individuals suffering from CF. With one exception, it presents adequate to good quality studies, with diverse designs and measures. Specifically, our study compiled various information about the CF parents' profile with regard to the physical, psychological, organisational, relational, and temporal challenges they may face. It has the benefit of presenting every study currently available in English, even those not fully published. Therefore, our study provides a global picture of what parenthood with CF can be like.

### Limitations

Due to the novelty of the field, our review only presents a small number of papers with some incomplete articles. We found only one mixed design study in our review (Ullrich et al., 2015a, 2015b, 2015c). Moreover, the aforementioned study utilised non-psychometrically valid tools (Ullrich et al., 2015a, 2015b) and no prospective studies were fully published (Downey et al., 2015; Frankl and Hjelte, 2004; Lauritsen and Pressler, 2008). Despite many consensuses and well-shared themes across the articles, we highlight the need for future studies to compare the data and address contradictions outlined in our study. Thus, our themes should be considered carefully. Due to the small population of CF parents, some samples were too small and did not allow generalisation. Moreover, some were convenience samples and women were over-represented. Also, only one patient with a lung transplant and no CF parents with CF children were included.

Finally, the quality tool used in this study appeared to be complex. Specifically, some item ratings were ambiguous and needed to be discussed across authors to ensure a mutual understanding of the item. In addition, none of the items in the tool assessed the quality of an article's findings (i.e., design, analyses) which had to be done by the authors indirectly. The articles could therefore be reassessed with another tool.

### Perspectives

Future studies need to be conducted to confirm, specify, or refute the presented results and increase our knowledge on CF parenthood. Cross-cultural studies are needed to understand CF parenthood across different contexts. Moreover, comparative studies across countries would improve our understanding of cultural and/or universal challenges faced by CF parents. The development of multicentric studies would improve the generalisability of the findings through diverse samples. Future samples should include more patients with lung transplants and

CF parents with CF children. Furthermore, the CF parents who only become aware of their own diagnosis after their children CF diagnosis face an additional set of challenges and should be studied separately from other CF parents (Lomas and Fowler, 2010). Due to the interdependence of individuals in a system (family or couple), partners are directly impacted by the disease (Delelis et al., 2008). Thus, spouses should be included in studies to get a holistic understanding of CF parenthood. In addition, considering their importance in CF parents' discourse (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Jessup et al., 2018; Ullrich et al., 2015a, 2015c) and because they are the second parent, spousal inclusion seems necessary to fully understand the issue of CF parenthood. On an interventional level, some studies (Hailey et al., 2019; Ullrich et al., 2015a) claimed sharing information about CF parenthood to be beneficial. A website dedicated to supporting CF parents through every step of their project, developed by the CF centre of Bristol (Bateman et al., 2014), seems to propose an appropriate answer to this need expressed by many patients and offers interesting perspectives for other CF centres.

To obtain a global perspective of parenthood with CF, a systematic review of all aspects of parenthood should be synthesised (i.e. pregnancy and deciding to become pregnant). Finally, results could be compared to studies exploring parenthood with other chronic conditions. To our knowledge, systematic reviews about parenthood with a chronic illness (Candilis-Huisman et al., 2017; Vallido et al., 2010) do not mention CF nor compare CF to other chronic illnesses.

### Conclusion

So far, the data are sparse regarding the parenthood with CF. The existing studies on this topic suggest a complex situation, implying challenges in different areas of CF parents' life (i.e. health, treatment adherence and prioritisation, coping strategies, professional roles, time perception and gender differences). If parenthood could be a real motivation for patients to stay

healthy for as long as possible, it also brings up several difficulties and specific needs for CF parents and their family.

While this review highlights what is left to explore, it succeeds in identifying some important needs and recommendations for CF parents towards healthcare professionals. Rather than focusing on specific topics, future research should strive to obtain an overall perspective of parenthood with CF. The studies used in our review highlight the need to explore the entire population of CF parents regardless of gender, whether they had a lung transplant, have physical limitations or if their child also has CF. Therefore, new studies (ideally multicentric, eventually international) should be developed focusing on CF parents, their spouses and children.

### Declaration of conflicting interests

The author(s) declared the following potential conflicts of interest with respect to the research, authorship and/or publication of this article: A.J. and C.F. are collaborating on a research programme with Dr Dominique Hubert, who is a co-author of one of the studies selected in our review (Duguépéroux et al., 2006).

### Funding

The author(s) received no financial support for the research, authorship and/or publication of this article.

### ORCID iD

Anne Jacob  <https://orcid.org/0000-0002-2644-6479>

### References

- Barker H, Moses J and O'Leary C (2017) 'I've got to prioritise': Being a parent with cystic fibrosis. *Psychology, Health and Medicine* 22(6): 744–752.
- Bateman K, Phillips S and Bell NJ (2014) 257 Development of parenthood website and pathway to support people with CF considering pregnancy and parenthood. *Journal of Cystic Fibrosis* 13(Suppl. 2): S113.
- Bianco B, Horsley A and Brennan A (2019) Implications of fatherhood in cystic fibrosis. *Paediatric Respiratory Reviews* 31: 18–20.
- Burden C, Ion R, Chung Y, et al. (2012) Current pregnancy outcomes in women with cystic fibrosis. *European Journal of Obstetrics & Gynecology and Reproductive Biology* 164: 142–145.
- Cammidge SL, Duff AJA, Latchford GJ, et al. (2016) When women with cystic fibrosis become mothers: Psychosocial impact and adjustments. *Pulmonary Medicine* 2016: 9458980.
- Candilis-Huisman D, Dommergues M, Becerra L, et al. (2017) Handicap moteur, maladies rares et maternité: Une revue de la littérature. *Devenir* 29(4): 307–325.
- Cystic Fibrosis Foundation (2018) Patient registry 2017: Annual data report, Bethesda, MD. Available at: <https://www.cff.org/Research/Researcher-Resources/Patient-Registry/2017-Patient-Registry-Annual-Data-Report.pdf> (accessed August 2019).
- Delelis G, Christophe C, Leroy S, et al. (2008) The effects of cystic fibrosis on couples: Marital satisfaction, emotions, and coping strategies. *Scandinavian Journal of Psychology* 49(6): 583–589.
- Downey DG, Calvert A, McCafferty M, et al. (2015) WS09.10 'Writing for the future', addressing the challenges of family communication at the end of life in cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis* 14: S19.
- Duguépéroux I, Hubert D, Dominique S, et al. (2006) Paternity in men with cystic fibrosis: A retrospective survey in France. *Journal of Cystic Fibrosis* 5(4): 215–221.
- Frankl M and Hjelte L (2004) Parents who have cystic fibrosis – Experiences and aspects of parenthood. *Journal of Cystic Fibrosis* 3(1): 389. Available at: <https://www.cysticfibrosisjournal.com/article/S1569-1993%2804%2900022-0/fulltext#Parents%20who%20have%20cystic%20fibrosis%E2%80%9494experiences%20and%20aspects%20of%20parenthood> (accessed August 2019).
- Girault A, Blanc J, Gayet V, et al. (2016) Maternal and perinatal outcomes of pregnancies in women with cystic fibrosis – A single centre case-control study. *Respiratory Medicine* 113: 22–27.
- Hailey CE, Tan JW, Dellon EP, et al. (2019) Pursuing parenthood with cystic fibrosis: Reproductive health and parenting concerns in individuals with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology* 54(8): 1225–1233.
- Higham L, Ahmed S and Ahmed M (2013) Hoping to live a 'normal' life whilst living with unpredictable health and fear of death: Impact of cystic fibrosis on young adults. *Journal of Genetic Counseling* 22(3): 374–383.

- Hubert D (2017) Mucoviscidose. *EMC-AKOS (Traité de Médecine)* 13(2): 1–7.
- Hubert D, Patrat C, Guibert J, et al. (2006) Results of assisted reproductive technique in men with cystic fibrosis. *Human Reproduction* 21(5): 1232–1236.
- Jessup M, Li A, Fulbrook P, et al. (2018) The experience of men and women with cystic fibrosis who have become a parent: A qualitative study. *Journal of Clinical Nursing* 27: 1702–1712.
- Lauritsen L and Pressler T (2008) Impact on lung function and body mass index (BMI) when CF patients become parents. *Journal of Cystic Fibrosis* 7: 432.
- Lewis-Jones DI, Gazvani MR and Mountford R (2000) Cystic fibrosis in infertility: Screening before assisted reproduction: Opinion. *Human Reproduction* 15: 2415–2417.
- Lomas PH and Fowler SB (2010) Parents and children with cystic fibrosis: A family affair. *The American Journal of Nursing* 110: 30–37.
- Moher D, Shamseer L, Clarke M, et al. (2015) Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses: The PRISMA statement. *Systematic Reviews* 4: 1.
- Nyström K and Ohrling K (2004) Parenthood experiences during the child's first year: Literature review. *Journal of Advanced Nursing* 46(3): 319–330.
- Ruseckaite R, Ahern S, Ranger T, et al. (2019) The Australian cystic fibrosis data registry: Annual report 2017. Available at: [https://www.cysticfibrosis.org.au/getmedia/24e94d66-29fa-4e3f-8e65-21ee24ed2e5a/ACFDR-2017-Annual-Report\\_highres\\_singles.pdf.aspx](https://www.cysticfibrosis.org.au/getmedia/24e94d66-29fa-4e3f-8e65-21ee24ed2e5a/ACFDR-2017-Annual-Report_highres_singles.pdf.aspx)
- Schechter MS, Quittner AL, Konstan MW, et al. (2013) Long-term effects of pregnancy and motherhood on disease outcomes of women with cystic fibrosis. *Annals of the American Thoracic Society* 10(3): 213–219.
- Sirriyeh R, Lawton R, Gardner P, et al. (2012) Reviewing studies with diverse designs: The development and evaluation of a new tool. *Journal of Evaluation in Clinical Practice* 18(4): 746–752.
- Thorpe-Beeston JG, Madge S, Gyi K, et al. (2013) The outcome of pregnancies in women with cystic fibrosis—Single centre experience 1998–2011. *BJOG: An International Journal of Obstetrics and Gynaecology* 120(3): 354–361.
- Ullrich G, Bobis I and Bewig B (2015a) Mütter mit Mukoviszidose: Ergebnisse einer Befragung einer nahezu unbekannten Patientengruppe. *Pneumologie* 69(4): 212–217.
- Ullrich G, Bobis I and Bewig B (2015b) Perceived impact of motherhood on adherence to therapy in mothers with cystic fibrosis. *Pneumologie* 69(11): 673–679.
- Ullrich G, Bobis I and Bewig B (2015c) Parenting stress in mothers with cystic fibrosis. *Disability and Rehabilitation* 38(2): 174–179.
- Vallido T, Wilkes L, Carter B, et al. (2010) Mothering disrupted by illness: A narrative synthesis of qualitative research. *Journal of Advanced Nursing* 66(7): 1435–1445.
- Zolin A, Orenti A, Naehrlich L, et al. (2019) ECFS patient registry: Annual data report 2017, version 1.2019. Available at: [https://www.ecfs.eu/sites/default/files/general-content-images/working-groups/ecfs-patient-registry/ECFSPR\\_Report\\_2017\\_v1.3.pdf](https://www.ecfs.eu/sites/default/files/general-content-images/working-groups/ecfs-patient-registry/ECFSPR_Report_2017_v1.3.pdf) (accessed August 2019).

**Appendix 1.** Our filled PRISMA checklist (Moher et al., 2015).

| Section/topic                      | Number | Checklist item                                                                                                                                                                                                                                                                                                | Reported on page number                                              |
|------------------------------------|--------|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|----------------------------------------------------------------------|
| Title                              |        |                                                                                                                                                                                                                                                                                                               |                                                                      |
| Title                              | 1      | Identify the report as a systematic review, meta-analysis or both                                                                                                                                                                                                                                             | p. 1                                                                 |
| Abstract                           |        |                                                                                                                                                                                                                                                                                                               |                                                                      |
| Structured summary                 | 2      | Provide a structured summary including, as applicable: background; objectives; data sources; study eligibility criteria, participants and interventions; study appraisal and synthesis methods; results; limitations; conclusions and implications of key findings; and systematic review registration number | p. 1 (selection of items mentioned to fit in the 100 words abstract) |
| Introduction                       |        |                                                                                                                                                                                                                                                                                                               |                                                                      |
| Rationale                          | 3      | Describe the rationale for the review in the context of what is already known                                                                                                                                                                                                                                 | p. 2                                                                 |
| Objectives                         | 4      | Provide an explicit statement of questions being addressed with reference to participants, interventions, comparisons, outcomes and study design (PICOS)                                                                                                                                                      | p. 3                                                                 |
| Methods                            |        |                                                                                                                                                                                                                                                                                                               |                                                                      |
| Protocol and registration          | 5      | Indicate if a review protocol exists, if and where it can be accessed (e.g. Web address) and, if available, provide registration information including registration number                                                                                                                                    | p. 3                                                                 |
| Eligibility criteria               | 6      | Specify study characteristics (e.g. PICOS and length of follow-up) and report characteristics (e.g. years considered, language and publication status) used as criteria for eligibility, giving rationale                                                                                                     | p. 3                                                                 |
| Information sources                | 7      | Describe all information sources (e.g. databases with dates of coverage and contact with study authors to identify additional studies) in the search and date last searched                                                                                                                                   | p. 3                                                                 |
| Search                             | 8      | Present full electronic search strategy for at least one database, including any limits used, such that it could be repeated                                                                                                                                                                                  | p. 3                                                                 |
| Study selection                    | 9      | State the process for selecting studies (i.e. screening, eligibility, included in systematic review and, if applicable, included in the meta-analysis)                                                                                                                                                        | p. 3                                                                 |
| Data collection process            | 10     | Describe method of data extraction from reports (e.g. piloted forms, independently, in duplicate) and any processes for obtaining and confirming data from investigators                                                                                                                                      | p. 3                                                                 |
| Data items                         | 11     | List and define all variables for which data were sought (e.g. PICOS and funding sources) and any assumptions and simplifications made                                                                                                                                                                        | p. 3                                                                 |
| Risk of bias in individual studies | 12     | Describe methods used for assessing risk of bias of individual studies (including specification of whether this was done at the study or outcome level), and how this information is to be used in any data synthesis                                                                                         | p. 3                                                                 |
| Summary measures                   | 13     | State the principal summary measures (e.g. risk ratio and difference in mean values)                                                                                                                                                                                                                          | No measured made                                                     |

*(Continued)*

**Appendix I. (Continued)**

| Section/topic                 | Number | Checklist item                                                                                                                                                                                              | Reported on page number |
|-------------------------------|--------|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|-------------------------|
| Synthesis of results          | 14     | Describe the methods of handling data and combining results of studies, if done, including measures of consistency (e.g. $I^2$ ) for each meta-analysis                                                     | p. 3                    |
| Risk of bias across studies   | 15     | Specify any assessment of risk of bias that may affect the cumulative evidence (e.g. publication bias and selective reporting within studies)                                                               | p. 3                    |
| Additional analyses           | 16     | Describe methods of additional analyses (e.g. sensitivity or subgroup analyses and meta-regression), if done, indicating which were pre-specified                                                           | No additional analyses  |
| Results                       |        |                                                                                                                                                                                                             |                         |
| Study selection               | 17     | Give numbers of studies screened, assessed for eligibility and included in the review, with reasons for exclusions at each stage, ideally with a flow diagram                                               | p. 4                    |
| Study characteristics         | 18     | For each study, present characteristics for which data were extracted (e.g. study size, PICOS and follow-up period) and provide the citations                                                               | p. 4                    |
| Risk of bias within studies   | 19     | Present data on risk of bias of each study and, if available, any outcome level assessment (see item 12)                                                                                                    | p. 5 and Appendix 2     |
| Results of individual studies | 20     | For all outcomes considered (benefits or harms), present, for each study: (a) simple summary data for each intervention group and (b) effect estimates and confidence intervals, ideally with a forest plot | pp. 5–11                |
| Synthesis of results          | 21     | Present results of each meta-analysis done, including confidence intervals and measures of consistency                                                                                                      | pp. 5–11                |
| Risk of bias across studies   | 22     | Present results of any assessment of risk of bias across studies (see item 15)                                                                                                                              | p. 5                    |
| Additional analysis           | 23     | Give results of additional analyses, if done (e.g. sensitivity or subgroup analyses and meta-regression (see item 16))                                                                                      | No additional analyses  |
| Discussion                    |        |                                                                                                                                                                                                             |                         |
| Summary of evidence           | 24     | Summarise the main findings including the strength of evidence for each main outcome; consider their relevance to key groups (e.g. healthcare providers, users and policymakers)                            | p. 11                   |
| Limitations                   | 25     | Discuss limitations at the study and outcome levels (e.g. risk of bias), and at the review level (e.g. incomplete retrieval of identified research and reporting bias)                                      | p. 12                   |
| Conclusions                   | 26     | Provide a general interpretation of the results in the context of other evidence and implications for future research                                                                                       | pp. 12–13               |
| Funding                       |        |                                                                                                                                                                                                             |                         |
| Funding                       | 27     | Describe sources of funding for the systematic review and other support (e.g. supply of data); and role of funders for the systematic review                                                                | p. 13                   |

PRISMA: preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses.

Appendix 2. Results by items and authors of quality evaluation with the QATSDD (Sirriyeh et al., 2012).

| Articles                  | Criteria                       |                                                  | Authors                               |                                                         |                                                          |                                              |                                               |                           |                                                                                 |                                                                         |                                                                                                                              |                                                      |                                                   |                                                        |                                        |                                               | Total (%) |
|---------------------------|--------------------------------|--------------------------------------------------|---------------------------------------|---------------------------------------------------------|----------------------------------------------------------|----------------------------------------------|-----------------------------------------------|---------------------------|---------------------------------------------------------------------------------|-------------------------------------------------------------------------|------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|------------------------------------------------------|---------------------------------------------------|--------------------------------------------------------|----------------------------------------|-----------------------------------------------|-----------|
|                           | Explicit theoretical framework | Statement of aims/objectives in main body report | Clear description of research setting | Evidence of sample size considered in terms of analysis | Representative sample of target group of reasonable size | Description of procedure for data collection | Rationale for choice of data collection tools | Detailed recruitment data | Statistical assessment or reliability and validity of measurement tools (QUANT) | Fit between stated research question and method data collection (QUANT) | Fit between stated research question and format and contents of data collection tool, for example, interview schedule (QUAL) | Fit between research question and method of analysis | Good justification for analytical method selected | Assessment of reliability of analytical process (QUAL) | Evidence of user involvement in design | Strengths and limitation critically discussed | Total     |
| Barker et al. (2017)      | A.J.                           | 2                                                | 3                                     | 3                                                       | 0                                                        | 2                                            | 2                                             | 2                         | 2                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 3                                                    | 1                                                 | 2                                                      | 0                                      | 2                                             | 25        |
|                           | J.J.                           | 2                                                | 3                                     | 2                                                       | 0                                                        | 2                                            | 3                                             | 1                         | 1                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 3                                                    | 3                                                 | 3                                                      | 0                                      | 1                                             | 27        |
|                           | C.F.                           | 2                                                | 3                                     | 3                                                       | 0                                                        | 2                                            | 3                                             | 1                         | 1                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 3                                                    | 2                                                 | 3                                                      | 0                                      | 2                                             | 28        |
|                           | Consensual note                | 2                                                | 3                                     | 3                                                       | 0                                                        | 2                                            | 2                                             | 1                         | 1                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 3                                                    | 2                                                 | 3                                                      | 0                                      | 2                                             | 27        |
| Blanco et al. (2019)      | A.J.                           | 2                                                | 3                                     | 2                                                       | 0                                                        | 1                                            | 0                                             | 1                         | 2                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 2                                                    | 0                                                 | 0                                                      | 0                                      | 1                                             | 18        |
|                           | J.J.                           | 1                                                | 2                                     | 2                                                       | 0                                                        | 1                                            | 1                                             | 1                         | 2                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 2                                                    | 1                                                 | 0                                                      | 0                                      | 1                                             | 17        |
|                           | C.F.                           | 2                                                | 3                                     | 1                                                       | 0                                                        | 0                                            | 0                                             | 1                         | 2                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 2                                                    | 0                                                 | 0                                                      | 0                                      | 1                                             | 16        |
|                           | Consensual note                | 2                                                | 3                                     | 2                                                       | 0                                                        | 0                                            | 0                                             | 1                         | 2                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 2                                                    | 0                                                 | 0                                                      | 0                                      | 1                                             | 17        |
| Cammidge et al. (2016)    | A.J.                           | 3                                                | 3                                     | 3                                                       | 0                                                        | 2                                            | 3                                             | 3                         | 3                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 3                                                 | 3                                                      | 0                                      | 3                                             | 34        |
|                           | J.J.                           | 3                                                | 3                                     | 2                                                       | 0                                                        | 2                                            | 3                                             | 2                         | 2                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 1                                                 | 3                                                      | 0                                      | 2                                             | 29        |
|                           | C.F.                           | 3                                                | 3                                     | 3                                                       | 0                                                        | 2                                            | 3                                             | 3                         | 3                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 3                                                 | 3                                                      | 1                                      | 3                                             | 35        |
|                           | Consensual note                | 3                                                | 3                                     | 3                                                       | 0                                                        | 2                                            | 3                                             | 3                         | 3                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 3                                                 | 3                                                      | 0                                      | 3                                             | 34        |
| Duguéperoux et al. (2006) | A.J.                           | 2                                                | 3                                     | 3                                                       | 1                                                        | 3                                            | 2                                             | 3                         | 0                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 2                                                    | 1                                                 | 0                                                      | 0                                      | 1                                             | 26        |
|                           | J.J.                           | 3                                                | 2                                     | 3                                                       | 1                                                        | 3                                            | 0                                             | 1                         | 0                                                                               | 2                                                                       | 1                                                                                                                            | 1                                                    | 0                                                 | 0                                                      | 0                                      | 0                                             | 19        |
|                           | C.F.                           | 2                                                | 2                                     | 3                                                       | 1                                                        | 3                                            | 1                                             | 2                         | 0                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 2                                                    | 1                                                 | 0                                                      | 0                                      | 1                                             | 23        |
|                           | Consensual note                | 3                                                | 2                                     | 3                                                       | 1                                                        | 3                                            | 1                                             | 2                         | 0                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 2                                                    | 1                                                 | 0                                                      | 0                                      | 1                                             | 24        |
| Hailey et al. (2019)      | A.J.                           | 2                                                | 3                                     | 3                                                       | 1                                                        | 2                                            | 2                                             | 2                         | 2                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 1                                                 | 3                                                      | 0                                      | 2                                             | 29        |
|                           | J.J.                           | 2                                                | 3                                     | 3                                                       | 0                                                        | 3                                            | 2                                             | 2                         | 2                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 0                                                 | 3                                                      | 0                                      | 2                                             | 28        |
|                           | C.F.                           | 2                                                | 3                                     | 3                                                       | 0                                                        | 3                                            | 2                                             | 2                         | 2                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 0                                                 | 3                                                      | 0                                      | 3                                             | 30        |
|                           | Consensual note                | 2                                                | 3                                     | 3                                                       | 0                                                        | 3                                            | 2                                             | 2                         | 2                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 0                                                 | 3                                                      | 0                                      | 3                                             | 29        |
| Jesup et al. (2018)       | A.J.                           | 2                                                | 3                                     | 3                                                       | 1                                                        | 1                                            | 2                                             | 2                         | 2                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 2                                                    | 2                                                 | 2                                                      | 2                                      | 2                                             | 29        |
|                           | J.J.                           | 2                                                | 3                                     | 2                                                       | 0                                                        | 2                                            | 1                                             | 3                         | 3                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 2                                                 | 2                                                      | 2                                      | 2                                             | 29        |
|                           | C.F.                           | 2                                                | 3                                     | 2                                                       | 0                                                        | 2                                            | 1                                             | 2                         | 2                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 2                                                 | 2                                                      | 2                                      | 2                                             | 27        |
|                           | Consensual note                | 2                                                | 3                                     | 2                                                       | 0                                                        | 2                                            | 1                                             | 2                         | 2                                                                               | 3                                                                       | 3                                                                                                                            | 3                                                    | 2                                                 | 2                                                      | 2                                      | 2                                             | 28        |

(Continued)

## Appendix 2. (Continued)

| Articles                | Criteria                       |                                                  | Authors                               |                                                         |                                                          |                                              |                                               |                           |                                                                                 |                                                                         |                                                                                                                              |                                                      |                                                   |                                                        |                                        |                                               |       |  |
|-------------------------|--------------------------------|--------------------------------------------------|---------------------------------------|---------------------------------------------------------|----------------------------------------------------------|----------------------------------------------|-----------------------------------------------|---------------------------|---------------------------------------------------------------------------------|-------------------------------------------------------------------------|------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|------------------------------------------------------|---------------------------------------------------|--------------------------------------------------------|----------------------------------------|-----------------------------------------------|-------|--|
|                         | Explicit theoretical framework | Statement of aims/objectives in main body report | Clear description of research setting | Evidence of sample size considered in terms of analysis | Representative sample of target group of reasonable size | Description of procedure for data collection | Rationale for choice of data collection tools | Detailed recruitment data | Statistical assessment or reliability and validity of measurement tools (QUANT) | Fit between stated research question and method data collection (QUANT) | Fit between stated research question and format and contents of data collection tool, for example, interview schedule (QUAL) | Fit between research question and method of analysis | Good justification for analytical method selected | Assessment of reliability of analytical process (QUAL) | Evidence of user involvement in design | Strengths and limitation critically discussed | Total |  |
| Schechter et al. (2013) | 2                              | 3                                                | 3                                     | 1                                                       | 3                                                        | 2                                            | 2                                             | 3                         | 1                                                                               | 2                                                                       | 2                                                                                                                            | 3                                                    | 1                                                 | 1                                                      | 1                                      | 3                                             | 30    |  |
|                         | A.J.                           |                                                  |                                       |                                                         |                                                          |                                              |                                               |                           |                                                                                 |                                                                         |                                                                                                                              |                                                      |                                                   |                                                        |                                        |                                               | 71    |  |
|                         | J.J.                           | 2                                                | 3                                     | 0                                                       | 3                                                        | 1                                            | 2                                             | 1                         | 2                                                                               |                                                                         |                                                                                                                              | 2                                                    | 1                                                 | 0                                                      | 0                                      | 2                                             | 23    |  |
|                         | C.F.                           | 2                                                | 3                                     | 1                                                       | 3                                                        | 2                                            | 2                                             | 1                         | 1                                                                               | 2                                                                       |                                                                                                                              | 3                                                    | 1                                                 | 1                                                      | 1                                      | 3                                             | 27    |  |
|                         | Consensual                     | 2                                                | 3                                     | 1                                                       | 3                                                        | 2                                            | 2                                             | 1                         | 1                                                                               | 2                                                                       |                                                                                                                              | 3                                                    | 1                                                 | 1                                                      | 1                                      | 3                                             | 28    |  |
|                         | note                           |                                                  |                                       |                                                         |                                                          |                                              |                                               |                           |                                                                                 |                                                                         |                                                                                                                              |                                                      |                                                   |                                                        |                                        |                                               | 67    |  |
| Ulrich et al. (2015a)   | 1                              | 3                                                | 3                                     | 1                                                       | 2                                                        | 3                                            | 2                                             | 2                         | 0                                                                               | 1                                                                       |                                                                                                                              | 2                                                    | 1                                                 | 0                                                      | 1                                      | 1                                             | 24    |  |
|                         | A.J.                           |                                                  |                                       |                                                         |                                                          |                                              |                                               |                           |                                                                                 |                                                                         |                                                                                                                              |                                                      |                                                   |                                                        |                                        |                                               | 50    |  |
|                         | L.F.                           | 2                                                | 3                                     | 1                                                       | 2                                                        | 3                                            | 2                                             | 3                         | 0                                                                               | 1                                                                       | 1                                                                                                                            | 2                                                    | 1                                                 | 0                                                      | 1                                      | 2                                             | 27    |  |
|                         | Consensual                     | 1                                                | 3                                     | 1                                                       | 2                                                        | 3                                            | 2                                             | 3                         | 0                                                                               | 1                                                                       | 1                                                                                                                            | 2                                                    | 1                                                 | 0                                                      | 1                                      | 2                                             | 26    |  |
|                         | note                           |                                                  |                                       |                                                         |                                                          |                                              |                                               |                           |                                                                                 |                                                                         |                                                                                                                              |                                                      |                                                   |                                                        |                                        |                                               | 54    |  |
| Ulrich et al. (2015b)   | 2                              | 2                                                | 3                                     | 2                                                       | 2                                                        | 2                                            | 2                                             | 3                         | 2                                                                               | 2                                                                       |                                                                                                                              | 2                                                    | 2                                                 | 2                                                      | 1                                      | 3                                             | 33    |  |
|                         | A.J.                           |                                                  |                                       |                                                         |                                                          |                                              |                                               |                           |                                                                                 |                                                                         |                                                                                                                              |                                                      |                                                   |                                                        |                                        |                                               | 69    |  |
|                         | J.J.                           | 2                                                | 3                                     | 3                                                       | 2                                                        | 2                                            | 2                                             | 3                         | 1                                                                               | 2                                                                       | 1                                                                                                                            | 2                                                    | 3                                                 | 1                                                      | 1                                      | 3                                             | 34    |  |
|                         | C.F.                           | 2                                                | 2                                     | 3                                                       | 2                                                        | 2                                            | 2                                             | 3                         | 1                                                                               | 2                                                                       | 1                                                                                                                            | 2                                                    | 2                                                 | 1                                                      | 1                                      | 3                                             | 31    |  |
|                         | Consensual                     | 2                                                | 2                                     | 3                                                       | 2                                                        | 2                                            | 2                                             | 3                         | 1                                                                               | 2                                                                       | 1                                                                                                                            | 2                                                    | 2                                                 | 2                                                      | 1                                      | 3                                             | 32    |  |
|                         | note                           |                                                  |                                       |                                                         |                                                          |                                              |                                               |                           |                                                                                 |                                                                         |                                                                                                                              |                                                      |                                                   |                                                        |                                        |                                               | 67    |  |
| Ulrich et al. (2015c)   | 1                              | 2                                                | 3                                     | 1                                                       | 2                                                        | 3                                            | 2                                             | 2                         | 2                                                                               | 2                                                                       |                                                                                                                              | 2                                                    | 1                                                 |                                                        | 1                                      | 1                                             | 25    |  |
|                         | A.J.                           |                                                  |                                       |                                                         |                                                          |                                              |                                               |                           |                                                                                 |                                                                         |                                                                                                                              |                                                      |                                                   |                                                        |                                        |                                               | 60    |  |
|                         | J.J.                           | 1                                                | 3                                     | 1                                                       | 2                                                        | 2                                            | 2                                             | 2                         | 2                                                                               | 2                                                                       |                                                                                                                              | 2                                                    | 2                                                 | 0                                                      | 0                                      | 2                                             | 26    |  |
|                         | C.F.                           | 1                                                | 3                                     | 1                                                       | 1                                                        | 2                                            | 2                                             | 2                         | 1                                                                               | 2                                                                       |                                                                                                                              | 2                                                    | 2                                                 | 0                                                      | 0                                      | 1                                             | 23    |  |
|                         | Consensual                     | 1                                                | 3                                     | 1                                                       | 2                                                        | 2                                            | 2                                             | 2                         | 2                                                                               | 2                                                                       |                                                                                                                              | 2                                                    | 2                                                 | 0                                                      | 0                                      | 2                                             | 26    |  |
|                         | note                           |                                                  |                                       |                                                         |                                                          |                                              |                                               |                           |                                                                                 |                                                                         |                                                                                                                              |                                                      |                                                   |                                                        |                                        |                                               | 62    |  |

QATSD: quality assessment tool for studies with diverse design; QUANT: quantitative; QUAL: qualitative.

## 2) Synthèse de l'article

La revue de littérature compile les résultats de 10 articles et trois documents résumant des études. Les études ont été menées principalement en Europe et présentent des études avec des méthodologies quantitatives, qualitatives ou mixtes, portant soit uniquement sur des mères, soit uniquement sur les pères, soit sur les deux sexes. Les parents atteints de mucoviscidose sont parfois comparés à des patient.e.s contrôles ou à la population générale.

L'analyse des documents a fait émerger cinq thèmes (en gras dans le texte). La description de **la population des parents atteints de mucoviscidose** permet d'observer que ceux-ci sont très majoritairement en couple, plus souvent parent d'un seul enfant né après une grossesse spontanée, travaillent au moins à mi-temps pour environ la moitié d'entre eux, ont été majoritairement diagnostiqués durant l'enfance, sont très souvent porteurs d'une mutation F508del, et présentent une atteinte respiratoire modérée et un IMC dans la norme.

En termes de **santé des parents**, la santé mentale est peu mesurée sur le plan quantitatif et seule une Qualité de Vie (QdV) diminuée est observée dans certains domaines, en comparaison avec les patient.e.s contrôles non parents. Les études rapportent une expérience globalement positive de la parentalité et un sentiment de confiance des mères dans leurs capacités parentales. Néanmoins les études rapportent également de la culpabilité, de la tristesse, de la frustration, voire de la colère à cause de leurs capacités parfois limitées et les absences pour raisons médicales, ainsi que de l'inquiétude au sujet de l'impact négatif sur les enfants et des difficultés à communiquer sur la maladie avec eux. La revue relève ainsi de nombreux aspects partagés par les parents atteints d'autres maladies, avec toutefois quelques spécificités.

D'après les études sur les registres nationaux, les parents présentent un état de santé physique globalement similaire à celui des patient.e.s contrôles, malgré quelques difficultés supplémentaires (par ex : plus de malnutrition, et de symptômes respiratoires). L'état de santé s'avère dans l'ensemble plutôt stable durant la première année post-partum, mais des difficultés sont observées dans certaines études au cours de la deuxième année (perte de poids, déclin de la fonction respiratoire, fatigue et plus de visites médicales). Les études insistent sur l'importance de l'adhérence thérapeutique et du suivi médical des patient.e.s en post-partum. Ce point apparaît plus spécifique à notre population d'intérêt en comparaison

des parents atteints d'autres maladies. Ceci est à mettre en lien avec l'importance du traitement de fond de la mucoviscidose.

**L'adhérence thérapeutique** semble être plus compliquée dans les premiers mois post-partum. Après une période d'ajustement, certains parents retrouvent une bonne adhérence, motivée par l'envie d'être en bonne santé pour l'enfant. Les résultats à ce sujet présentent de nombreuses lacunes et cette question demande à être mieux étudiée.

Cette question est d'ailleurs centrale en termes **d'ajustement**. En effet, comme pour les autres parents malades, trouver un équilibre entre ses besoins et ceux de l'enfant apparaît comme le grand défi des parents atteints de mucoviscidose, avec le dilemme de savoir ce qu'il faut prioriser. Les mères et les parents d'enfants jeunes semblent plus facilement prioriser les besoins de l'enfant, tandis que les pères et les parents d'enfants plus âgés priorisent plus facilement leurs besoins. Les parents utilisent principalement des stratégies de coping centrées sur le problème, notamment la planification et l'organisation des traitements et de la vie familiale, ainsi que la communication au sujet de la maladie. Des stratégies de coping centrées sur les émotions sont aussi utilisées (optimisme, espoir, focus sur le présent, humour). Le soutien social joue un rôle très important et est principalement apporté par les conjoint.e.s. Les grands-parents et les amis sont régulièrement mentionnés dans ce rôle. La revue ne relève pas de difficultés concernant la notion de dépendance mentionnée par les parents épileptiques, dialysés ou atteints de troubles neuromusculaires.

Le **rôle des professionnel.le.s de santé**, apparaît comme une donnée importante d'ajustement. Les professionnel.le.s jouent d'abord un rôle dans la prise de décision de devenir parent, et ils.elles sont la plupart du temps décrit.e.s comme soutenant.e.s dans cette étape. Néanmoins les parents rapportent un manque de soutien ou d'information pour préparer l'arrivée de l'enfant, et, une fois l'enfant arrivé, pour gérer les contraintes de la maladie en même temps que celles de l'enfant. Un manque de formation à la question de la parentalité est rapporté, ainsi que des besoins d'accompagnement, d'information et de mise en réseau avec d'autres parents. En cela, la mucoviscidose semble engendrer les mêmes besoins et attentes que les autres maladies. La question de la fin de vie en lien avec la parentalité doit également faire partie des points à prendre en compte par les professionnel.le.s. Les quelques parents la mentionnant, font état d'un grand besoin de soutien à ce sujet.

Enfin, une notion **d'urgence et de pression temporelle** colore l'ensemble des études, à l'image de ce que nous avons vu pour les parents cardiaques. En racontant comment ils.elles

sont devenu.e.s parents, les patient.e.s évoquent l'urgence qu'ils.elles ont ressenti à concevoir et leur peur que tout s'arrête trop vite (pour elles.eux ou l'enfant) pendant la grossesse. Les parents rapportent de plus une sensation constante de manque de temps pour répondre aux contraintes de la maladie et/ou pour s'occuper de l'enfant, auquel s'ajoute la pression de la courte espérance de vie.

Malgré ces cinq thèmes permettant de brosser un premier tableau de l'expérience des parents atteints de mucoviscidose et l'impact de la parentalité sur leur santé, notre revue révèle des résultats contradictoires, le manque de données quantitatives à certains niveaux et les problématiques méthodologiques ne permettant pas la généralisation. Elle invite donc à prendre les résultats avec précaution et à conduire de nouvelles études pour les vérifier, préciser ou réfuter, notamment avec des études multicentriques, et des échantillons variés de patient.e.s parents, qui arrêtent d'exclure les patient.e.s greffé.es pulmonaires. Elle invite à étudier conjoint.e.s et enfants pour une compréhension plus holistique de la problématique et à conduire une revue de littérature faisant le lien entre la grossesse et la parentalité.

### **3) Revue des derniers articles parus depuis la publication de l'article 1**

Depuis cette revue, quelques articles ont été publiés sur ce sujet ou sur la question de la prise de décision de devenir parent. Nous avons inclus ceux sur la prise de décision dans la partie B. « Mucoviscidose et accès à la parentalité ». Une revue du paysage actuel sur la question de la reproduction et de la parentalité a également été rédigée (Jain et al., 2023), rassemblant les données proposées dans notre revue, celles de certains articles parus ensuite et celles présentées sur la question de la fertilité et de la grossesse des patient.e.s. atteint.e.s de mucoviscidose. Nous avons répertorié quatre articles portant véritablement sur la parentalité des patient.e.s, dont deux issus d'études américaines (Stransky et al., 2023, 2024), un sur l'analyse du registre des patient.e.s anglais (Kazmerski et al., 2022) et un issu d'une étude brésilienne (Schenkel et al., 2024). Cette dernière étude étant présentée en portugais, nous n'avons eu accès qu'au résumé. Celle-ci rapporte l'expérience de deux mères au travers d'une étude qualitative de leur vécu. Malgré des débuts difficiles (infections en post-partum) et des efforts émotionnels, ces patientes rapportent un sentiment d'accomplissement d'être mères et leur motivation à rester adhérentes au traitement. A l'image des parents rencontrés

dans les études précédentes, elles se montrent résilientes face aux difficultés en s'appuyant sur des stratégies d'ajustement actives et du soutien social.

L'étude quantitative sur la cohorte anglaise (Kazmerski et al., 2022), s'est intéressée à l'impact à court termes de la parentalité sur certains indicateurs de santé des patient.e.s. En comparant l'état des patient.e.s un an avant la naissance/arrivée de leur enfant et un an après, les autrices ont observé des dégradations significatives de leur état de santé (baisse du VEMS, baisse de l'IMC (plus marquée chez les mères que les pères) et augmentation des exacerbations pulmonaires), dégradations atténuées chez les patient.e.s sous modulateurs. Les autrices appellent à des études prospectives sur le long-terme pour mieux évaluer cette question de la santé chez les parents patient.e.s, notamment au vu des différences entre leurs résultats et les précédents.

Les deux articles américains portent sur des études qualitatives conduites par la même équipe sur une période similaire, auprès de parents d'enfants de 10 ans ou moins. L'une propose un protocole original avec l'utilisation de la méthodologie « PhotoVoice » sur 5 séances en groupe fermé (Stransky et al., 2023). Avec ce protocole, les participants sont invités à prendre des photos entre les séances pour répondre à des questions thématiques, et à les présenter à la séance suivante. La proactivité est encouragée et les photos sont un support à l'échange. Trois sessions ont été conduites. A la fin des sessions, chaque groupe a choisi les photos représentatives de son travail et a rédigé les thèmes qui ressortaient. A partir de ces données, les chercheuses ont fait émerger 3 méta-thèmes : 1. l'importance de cultiver la joie et les expériences positives, 2. trouver un équilibre entre ses besoins et ceux de l'enfant, grâce notamment à la créativité et la flexibilité, 3. il n'y a souvent pas de « bon » choix évident pour déterminer comment prioriser les choses. Ces thèmes rejoignent ce qui a été rapporté dans les précédentes études qualitatives.

Le deuxième article rapporte l'analyse thématique de contenus d'entretiens semi-directifs auprès de 21 mères et 16 pères, pour explorer le processus de prise de décision de devenir parent, l'ajustement à la parentalité, l'impact de la maladie sur la parentalité et l'impact de la parentalité sur la maladie et l'adhérence (Stransky et al., 2024). Les résultats rejoignent ceux des études qualitatives précédentes, et apportent de nombreuses précisions. Ainsi, les autrices détaillent (entre autres) la façon dont les responsabilités parentales rentrent en conflit avec la maladie et imposent au patient.e.s d'être multitâche, l'allègement de ces conflits grâce à la délégation de certaines tâches parentales à d'autres, les techniques utilisées

pour diminuer leur risque de contamination via les microbes de leurs enfants et l'importance des attentes des patient.e.s envers les équipes médicales en termes de soutien et d'accompagnement au sujet de la parentalité. Cette étude confirme enfin le besoin, de plus en plus souvent exprimé, de pouvoir échanger avec d'autres parents malades.

Ces nouvelles études qualitatives viennent compléter les connaissances actuelles sur l'expérience des parents atteint.e.s de mucoviscidose en rajoutant les spécificités liées au pays des patients (Etats-Unis et Brésil). Enfin, une des études américaines a inclus deux patient.e.s transplanté.e.s pulmonaire, et les deux études américaines ont inclus de nombreux.ses patient.e.s sous modulateurs.

# PARTIE EMPIRIQUE

## ETUDES MUCOPAR ET MUCOKIDS

PROTOCOLES, ARTICLES ET SYNTHES

## A. Contexte et protocole de recherche

### I. Contexte de la recherche

Pendant sa pratique clinique de pneumologue au CRCM de l'hôpital Cochin à Paris, le Dr Hubert a été amenée à suivre plusieurs patient.e.s qui étaient ou sont devenu.e.s parents et à rencontrer certains de leurs enfants pour répondre à leurs questions et expliquer ce qu'était la maladie de leur parent. Cette expérience clinique l'a amenée à participer à des études évaluant la santé des patients devenus pères à partir des données du registre français (Duguépéroux et al., 2006) et l'impact des grossesses chez les patient.e.s françaises (Girault et al., 2016). En partenariat avec Dominique Grenet, une pneumologue de l'hôpital Foch, elle a ensuite sollicité l'appui de Cécile Flahault, psychologue et maitresse de conférences habilitée à diriger des recherches, pour conduire une étude qualitative qui s'intéresserait aux enfants des patient.e.s, notamment via des groupes. La psychologue Anne Jacob a ensuite été chargée de mener l'étude.

Au vu de la littérature, notamment le manque de données, les résultats parfois contradictoires, l'absence d'études qualitatives en France, le manque d'inclusions de certaines catégories de patient.e.s et des autres membres de la famille, il a dès le départ été question de développer un protocole purement exploratoire. A l'image des protocoles proposés dans les récentes études qualitatives américaines, nous avons pensé le nôtre pour pouvoir récolter un maximum de données sur l'expérience des parents malades, en incluant des patient.e.s avec tous types d'atteintes, notamment des patient.e.s greffé.e.s pulmonaire.

De plus, les psychologues ont rapidement argumenté en faveur d'une étude qui s'intéresserait d'abord aux parents, puis aux enfants. Nous avons divisé notre étude en deux volets : un pour les parents malades, et un pour les enfants, avec dans les deux cas des modalités de recrutement et d'analyse similaire : utilisation de focus groupes autant que possible et d'entretiens pour les enfants les plus jeunes, dont les contenus feraient l'objet d'une analyse thématique de contenu. Les échanges sur le design du protocole nous ont amené à lui donner une certaine flexibilité, pour pouvoir proposer un entretien à celles et ceux qui refuseraient de participer à un groupe. Afin de proposer une compréhension plus globale de notre problématique, nous avons également souhaité donner la parole aux conjoint.e.s.

Nous avons ainsi décidé de les inviter à participer à la modalité de rencontre des adultes en focus groupes.

Nous avons démarré l'étude par le volet adultes appelé MucoPar, puis deux ans après, nous avons débuté le volet à destination des enfants ayant un parent malade (enfants majeurs ou mineurs), que nous avons appelé MucoKids.

Au niveau éthique, les deux volets font partie d'une seule étude, le volet MucoKids étant une extension de l'étude MucoPar. Nous avons cependant enregistré les deux protocoles distinctement sur ClinicalTrials. Pour plus de simplicité, nous en parlerons dans ce manuscrit comme deux études distinctes.

## **II. Présentation synthétisée des protocoles des études**

Afin d'introduire notre travail sans être redondantes avec les articles qui présentent nos protocoles de façon détaillée, voici une présentation globale et synthétisée de notre recherche. Les deux protocoles étant similaires, une présentation commune aux deux études est proposée, relevant les spécificités de chacune.

### **1) Objectifs des études**

Objectif principal : Explorer et recueillir les perceptions, attentes et besoins :

- Des parents atteints de mucoviscidose et de leurs conjoint.e.s pour l'étude MucoPar
- Des enfants ayant un parent atteint de mucoviscidose pour l'étude MucoKids.

Objectif secondaire : Développer des interventions et/ou des outils médico-psycho-sociaux pour accompagner patient.e.s et famille.

### **2) Outils : méthodes de rencontre des participant.e.s et méthodes d'analyse**

Afin de répondre à notre objectif principal d'exploration, nous avons conçu une méthodologie entièrement qualitative basée sur la conduite de focus groupes et d'entretiens individuels, dont les contenus ont fait l'objet d'analyses thématiques de contenus.

## a) Méthodes de rencontre des participant.e.s

### Les focus groupes

Le focus groupe est un outil sociologique apparu vers la fin de la seconde guerre mondiale, dont l'utilisation connaît une popularité croissante et ce, dans de nombreux domaines d'application (Stewart & Shamdasani, 2014). Dans le domaine de la psychologie, la création de ces groupes est portée par la promotion de l'interaction entre les individus, la spontanéité de leur discours et, dans le cadre clinique, un traitement thérapeutique facilité par le cadre groupal. Ainsi en psychologie, le focus groupe est conduit par un professionnel formé à la clinique et il y a une préférence pour une menée de groupe indirecte, centrée plus sur le discours des participants que sur l'évaluation des tâches comme c'est le cas dans l'approche sociologique (Stewart & Shamdasani, 2014). Quels que soient leur domaine d'application, les focus groupes ont une base théorique commune qui, selon Stewart et Shamdasani (2014), reposent sur quatre critères normatifs : 1. Une recherche centrée/focalisée sur une situation concrète (conditions psychologiques communes, besoins, expérience de populations marginalisées etc.) ; 2. L'interaction de groupe qui impacte les individus au niveau de leurs perceptions, leur gestion de l'information et leurs prises de décision, et permet aux chercheur.se.s d'observer comment et pourquoi les participant.e.s acceptent ou rejettent certaines idées. 3. L'exploration en profondeur, permise par un guide d'entretien avec seulement quelques questions peu précises et très ouvertes, ayant pour but de favoriser les échanges et explorer un sujet en profondeur. 4. Un entretien humaniste : dans la lignée de l'approche centrée sur la personne de Carl Rogers, les focus groupes prônent l'empathie, l'ouverture d'esprit, l'écoute active et toutes autres techniques d'interaction qui permettent de donner la parole aux participant.e.s.

Cet outil peut être utilisé à n'importe quel moment d'une étude, et présente de grands intérêts en début d'étude et pour les études exploratoires, notamment sur les sujets où il existe peu de données, ce qui en faisait un outil de premier choix pour nos études. Cette méthode, qui permet de récolter une grande quantité de données rapidement, a surtout l'avantage d'offrir un cadre où les participant.e.s peuvent répondre aux questions des chercheur.se.s avec leurs propres mots et en utilisant leurs propres modèles de catégorisation ou d'associations perceptives. Ainsi, les focus groupes permettent d'obtenir des données d'une grande richesse, et s'avèrent particulièrement pertinents dans des études comme les nôtres, car ils permettent de récolter dans un milieu non écologique, des données relativement proches de celles qui

seraient émises dans un milieu naturel. Pour toutes ces raisons, nous avons pensé notre protocole autour des focus groupes, et invité les patient.e.s à participer en premier lieu à de tels groupes. Nous avons néanmoins voulu permettre la participation des patient.e.s ayant des contrindications médicales<sup>40</sup> à participer en groupe, et celles et ceux ne souhaitant pas participer en groupe. Ainsi, nous avons également proposé des entretiens individuels.

### **Les entretiens individuels semi-directifs**

Cette méthode, très fréquemment utilisée dans les études qualitatives, a pour objectif de rendre compte de la perception et du sens que rapporte un.e participant.e d'un phénomène donné. Il implique une interaction conversationnelle, dans laquelle l'intervieweur.se est amené.e à poser des questions ouvertes. Il se distingue des questionnaires ou des interrogatoires en permettant aux participant.e.s de s'exprimer et développer leur argumentaire sans inférence. Pour cela, la personne menant l'entretien peut être amenée à poser des questions dont elle a déjà la réponse, « l'absence de réponse ou la manière de répondre étant des informations utiles à collecter » (Imbert, 2010, p.25). Afin d'obtenir un discours authentique, il est primordial que l'intervieweur.se soit « à l'écoute, attentif, patient, et curieux de l'Autre, de son histoire, afin d'entrer dans son univers de sens pour le décrypter ensuite tout en gardant la « juste distance » (Imbert, 2010, p.25). Cette méthode implique une attitude rigoureuse en amont et pendant l'entretien, afin que le positionnement et la démarche de l'étude soit clairs (objectifs de l'enquête précisés, question de recherche et méthode bien définies, matériel, durée, etc.) et de minimiser les biais (liés au dispositif et au contexte de l'étude, la situation sociale du/de la chercheur.se et des participant.e.s, etc.) (Imbert, 2010). La personne menant l'entretien peut dans ce contexte s'appuyer sur des notices d'information, des documents de consentement éclairé et un temps de présentation de l'étude en début d'entretien.

Dans le cadre de nos études, les entretiens et les groupes présentaient des trames communes. Les trames de MucoPar sont présentées dans ce chapitre (Partie B. – I. Articles 2 et 3 – 1) Article 2 – Résultats des entretiens MucoPar), et celle de MucoKids dans le chapitre suivant (Partie C. – II. Méthode – 2) Design de l'étude). Tout en gardant la structure de base, la

---

<sup>40</sup> Contreindication médicale aux groupes : les patient.e.s ayant certaines colonisations bactériennes respiratoires doivent éviter d'être en contact avec d'autres patient.e.s non contaminé.e.s. La contamination à certains germes contreindique directement la participation en groupe, mais des groupes avec des patient.e.s tou.te.s contaminé.e.s par le même germe (ex : pseudomonas) peuvent également avoir lieu.

trame du guide de l'étude MucoKids a été adaptée aux tranches d'âge des enfants rencontrés.

## **b) Méthodes d'analyse**

Nous avons choisi d'analyser nos données grâce à la méthode de l'analyse thématique car c'est une méthode inductive qui permet de faire émerger les thématiques les plus représentatives des échanges, les plus partagées mais aussi de décrire les différences et similitudes (Boyatzis, 1998 ; Miles & Huberman, 2003). L'émergence de telles thématiques permet d'obtenir une représentativité du discours basée sur la diversité des perceptions du phénomène étudié, tel que recommandé dans les méthodes d'analyses qualitatives scientifiques (Smith, 2015), ce que nous recherchions dans cette étude exploratoire. De plus, cette méthode permettait de répondre à notre objectif principal de documenter l'expérience de l'ensemble des participant.e.s d'échantillons conséquents (prévision de 50 patient.e.s et 25 enfants), ce que d'autres méthodes d'analyse qualitative ne nous auraient pas permis de faire car limitées à des échantillons plus petits. Cette méthode paraissait ainsi particulièrement indiquée pour notre travail, et afin d'améliorer l'objectivité des analyses et de s'assurer de leur stabilité, nous avons choisi de soumettre au moins 30% des corpus à une double cotation.

La méthode d'analyse phénoménologique interprétative (IPA) (Smith, Flowers & Larkin, 2009) n'a pas été utilisée dans les travaux présentés dans ce manuscrit. Cependant, il a été pensé lors de la rédaction du protocole que cette méthode pourrait être utilisée dans un second temps sur certaines parties de nos corpus pouvant s'y prêter. En effet, l'IPA est conçue pour comprendre le système complexe de significations attaché à un phénomène unique, subjectif, et éminemment intime. Par l'IPA, on cherche à accéder, à travers l'analyse du discours, aux interconnexions entre l'expérience inscrite corporellement, les réactions émotionnelles, la construction de significations et enfin le partage oral ou écrit de cette expérience (Smith, 1996). La visée de l'IPA n'est pas d'élaborer des lois générales, mais de rester attentif aux subtilités de l'expérience vécue, dans sa diversité et sa complexité. La rigueur scientifique de l'IPA est assurée par la procédure standardisée qu'elle observe (Smith, 2004, Smith & Osborn, 2007) et cette méthode se révèle particulièrement adaptée pour investiguer l'expérience d'événements difficiles et notamment du deuil. Ainsi, cette méthode sera potentiellement utilisée à posteriori de ce travail de thèse, notamment sur certains contenus de l'étude de MucoKids.

### 3) Protocoles synthétisés

Les Tableaux 9, 10, 11, 12 et 13 présentent les informations principales des deux protocoles en termes de critères d'inclusion, de méthode de recrutement et de rencontre, d'échantillon et d'analyse de données.

#### a) Critères d'inclusion et de non inclusion (Tableau 9)

**Tableau 9.**

*Critères d'inclusion et non inclusion des participant.e.s aux études MucoPar et MucoKids*

|                      | MucoPar                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                     | MucoKids                                                                                                                                                                                                       |
|----------------------|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Personnes éligibles  | <ul style="list-style-type: none"> <li>- Patient.e.s majeur.e.s, suivi.e.s dans les CRCM de Cochin ou de Foch, parent d'au moins un enfant</li> <li>- Conjoint.e.s majeur.e.s, vivant actuellement avec le.la patient.e participant.e, parent ou non des enfants du/de la patient.e</li> </ul>                                                              | <ul style="list-style-type: none"> <li>- Enfants (6 ans minimum) de patient.e.s majeur.e.s suivi.e.s dans les CRCM de Cochin ou de Foch ayant accepté que leur(s) enfant(s) participe(nt) à l'étude</li> </ul> |
| Critères d'inclusion | <ul style="list-style-type: none"> <li>- Bonnes capacités d'expression orale en français</li> <li>- Sans trouble psychiatrique diagnostiqué (état limite, bipolarité et autres troubles psychotiques)</li> </ul> Sans maladie somatique grave en cours (hors maladies liées à la mucoviscidose pour les patient.e.s) ou de maladie chronique en phase aigüe |                                                                                                                                                                                                                |

#### b) Modalités et logistiques des rencontres de participant.e.s (Tableaux 10 et 11)

**Tableau 10.**

*Information et consentement des participant.e.s*

|                    | MucoPar                                                                                                                                                                                                                                                                                    | MucoKids                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                         |
|--------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Mode d'information | <ul style="list-style-type: none"> <li>- <b>Contact par mail</b> de tou.te.s les patient.e.s éligibles.</li> <li>- Envoi de <b>notices d'information</b> aux patient.e.s intéressé.e.s (une notice pour les patient.e.s, et une notice pour les conjoint.e.s). (Annexes 1 et 2)</li> </ul> | <ul style="list-style-type: none"> <li>- <b>Contact par mail</b> de tout.e.s les patient.e.s avec enfants éligibles.</li> <li>- Envoi de <b>notices d'information</b> aux parents acceptant la participation de leur enfant (une notice pour les parents, une notice pour les enfants (différentes notices en fonction de l'âge de l'enfant). (Annexes 3, 4, 5, et 6)</li> </ul> |
| Consentement       | <b>Consentement oral</b> redemandé à tou.te.s les participant.e.s avant le groupe ou l'entretien                                                                                                                                                                                           |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                  |
|                    |                                                                                                                                                                                                                                                                                            | <b>Acceptation des deux parents</b> pré-requis pour participation des enfants mineurs.                                                                                                                                                                                                                                                                                           |

**Tableau 11.**

*Modalités des rencontres avec les participant.e.s*

|                      |                                                           | MucoPar                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                    | MucoKids                                                                                                                                                                                                                |
|----------------------|-----------------------------------------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| <b>Focus Groupes</b> | Modalité de recrutement et d'organisation de la rencontre | <ul style="list-style-type: none"> <li>- Patient.e.s <b>sans contrindication médicale</b> à participer à un groupe (germes*)</li> <li>- Participation <b>avec ou sans</b> conjoint.e (volontariat)</li> <li>- Répartition <b>selon les germes*</b>, le <b>statut de greffé.e</b> pulmonaire ou non et les <b>disponibilités</b></li> </ul> | <ul style="list-style-type: none"> <li>- Participant.e.s <b>majeur.e.s et adolescent.e.s.</b></li> <li>- Répartition en <b>tranches d'âge</b> et selon les <b>disponibilités</b></li> </ul>                             |
|                      | Lieu de la rencontre                                      | <ul style="list-style-type: none"> <li>- Dans <b>les CRCM</b> avant mars 2020</li> <li>- Puis, en <b>visio</b> exclusivement suite à la pandémie de COVID-19 et autorisation éthique.</li> </ul>                                                                                                                                           | <ul style="list-style-type: none"> <li>- En <b>visio</b> (protocole ajusté suite à la pandémie de COVID-19)</li> </ul>                                                                                                  |
| <b>Entretiens</b>    | Modalité de recrutement et d'organisation de la rencontre | <ul style="list-style-type: none"> <li>- Patient.e.s <b>avec contrindication médicale</b> pour participer à un groupe ou <b>ayant refusé</b> de participer en groupe</li> </ul>                                                                                                                                                            | <ul style="list-style-type: none"> <li>- Enfants de <b>plus de 13 ans ayant refusé</b> de participer en groupe</li> <li>- Enfant de <b>moins de 13 ans seul ou avec sa fratrie</b> si écart d'âge &gt; 4 ans</li> </ul> |
|                      | Lieu de la rencontre                                      | <ul style="list-style-type: none"> <li>- Dans <b>les CRCM</b></li> <li>- Puis, exclusivement en <b>visio</b> après la pandémie de COVID-19 et autorisation éthique.</li> </ul>                                                                                                                                                             | <ul style="list-style-type: none"> <li>- A <b>domicile</b></li> <li>- En <b>visio</b></li> <li>- Dans <b>les CRCM</b> (ne s'est jamais fait)</li> </ul>                                                                 |

Note. \*Cf : note de bas de page 39, « Contrindication médicale aux groupes » (p.164)

**c) Echantillons (Tableau 12)**

**Tableau 12.**

*Description résumée des échantillons*

|                                                                                    | MucoPar                                                                                                                         | MucoKids                                                                                                                             |
|------------------------------------------------------------------------------------|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Nombre de participant.e.s                                                          | 52 patient.e.s<br>11 conjoint.e.s                                                                                               | 27 enfants                                                                                                                           |
| Sexes                                                                              | Patient.e.s : 21 ♀ et 13 ♂<br>Conjoint.e.s : 5 ♀ et 6 ♂                                                                         | 21 ♀<br>6 ♂                                                                                                                          |
| Age des participant.e.s (moyenne ; min-max)                                        | Participant.e.s : 44 ans ; 31-64<br>Conjoint.e.s : 42,2 ans ; 29-69                                                             | 15, 4 ans ; 6-38                                                                                                                     |
| Nombre de participant.e.s ou parents de participant.e.s avec une greffe pulmonaire | 15                                                                                                                              | 4                                                                                                                                    |
| Nombres de groupes et d'entretiens conduits                                        | 9 focus groupes<br>(dont 2 groupes de patient.e.s greffé.e.s)<br>(34 patient.e.s + 11 conjoint.es)<br>18 entretiens individuels | 2 focus groupes<br>(6 adultes + 3 adolescent.e.s)<br>2 entretiens de fratrie<br>(3 enfants + 2 enfants)<br>13 entretiens individuels |

#### d) Analyses et production (Tableau 13)

**Tableau 13.**

*Types d'analyses réalisées par études, articles et communication pour chaque étude*

|                     | MucoPar                                                                                                                                                                                                                                                                                                 | MucoKids                                                                                                             |
|---------------------|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Récolte des données | Contenus enregistrés en audio et retranscrits sur Word.*                                                                                                                                                                                                                                                |                                                                                                                      |
| Analyse des données | Deux <b>analyses thématiques de contenu</b> distinctes :<br>- Une pour les focus groupes<br>- Une pour les entretiens                                                                                                                                                                                   | <b>Analyse thématique de contenu</b> pour l'ensemble du corpus (focus groupes, entretiens individuels et de fratrie) |
| Production          | - Un <b>article publié</b> présentant la méthode générale de MucoPar et les résultats de l'analyse des entretiens<br>- Un <b>article soumis</b> (à resoumettre) renvoyant au précédent pour la méthode, avec les résultats de l'analyse des focus groupes<br>- <b>Communications orales et écrites*</b> | - Un <b>article en cours d'écriture</b> (Méthode et résultats rédigés)<br>- <b>Communications orales**</b>           |

*Note. \* Sélection de contenus retranscrits en annexes (Annexes de 8 à 16)*

*\*\* Communications listées dans le portefeuille p. 348*

#### e) Financements et autorisations éthiques

Le projet a été porté par l'Unité de Recherche Clinique (URC) de Paris centre – Necker enfants malades de l'APHP, et a été financé par l'association Grégory Lemarchal. Les deux études ont reçu la validation éthique du Comité d'Evaluation des Protocoles de Recherche Observationnelle (CEPRO) de la Société de Pneumologie de Langue Française (SPLF), en juillet 2019 pour MucoPar et en janvier 2021 pour MucoKids.

## B. Résultats de l'étude MucoPar

### I. Articles 2 et 3 – Résultats de l'étude MucoPar

Lorsque nous avons conçu le protocole, nous envisagions de présenter les résultats de MucoPar en deux articles pour distinguer les résultats des groupes et des entretiens, car nous attendions un grand nombre de participant.e.s. La taille de notre corpus nous a largement conforté dans ce choix, le nombre de groupes d'un côté et le nombre d'entretiens de l'autre nous permettant d'avoir suffisamment de contenu pour faire deux analyses thématiques distinctes. En revanche, ces résultats sont étroitement liés. Il nous apparaît ainsi plus pertinent dans ce travail de thèse de présenter les deux articles l'un à la suite de l'autre et de proposer une synthèse générale de l'ensemble des résultats de MucoPar.

Le premier article porte sur les entretiens. L'article a été publié en ligne en janvier 2025 dans *Journal of Health Psychology*. Nous avons choisi cette revue pour l'intérêt qu'elle porte à toutes les études en psychologie de la santé et la possibilité qu'elle offre aux auteur.rice.s de publier de longs articles. L'article est présenté ici dans la version PDF disponible en ligne au moment du rendu de cette thèse. Le fichier supplémentaire « Theme 6 : The Spouse », mentionné dans l'article, est présenté à la suite de l'article.

Le deuxième article porte sur les groupes. Il a été rédigé en 2024 et a été soumis à la fin de la même année à la revue *Health Psychology*. Nous avons choisi cette revue prestigieuse en psychologie de la santé, car elle présente des études adressant des thématiques à l'interface de la psychologie, de la santé et du bien-être. Notre étude nous paraissait rentrer dans ce scope. De plus, comme la précédente, elle nous permettait de pouvoir de soumettre un long article et de proposer ainsi une version complète de nos résultats. Malheureusement cette revue reçoit plus d'articles qu'elle ne peut en publier, et notre article n'a pas été retenu pour être reviewé. Il sera soumis dans une autre revue dans le courant de l'été 2025. Il est aujourd'hui présenté dans la version PDF « draft », générée lors de la soumission de l'article sur le site de la revue *Health Psychology*.



## Exploring the lived experiences of parents living with cystic fibrosis: A qualitative study

Journal of Health Psychology  
1–18  
© The Author(s) 2025  
Article reuse guidelines:  
sagepub.com/journals-permissions  
DOI: 10.1177/13591053241307874  
journals.sagepub.com/home/hpq



Anne Jacob<sup>1</sup> , Dominique Hubert<sup>2</sup> , Cléa Brain<sup>1</sup>,  
Dominique Grenet<sup>3</sup> and Cécile Flahault<sup>1,4,5</sup>

### Abstract

Because of the lengthening of their life-expectancy, more people with cystic fibrosis (CF) now pursue parenthood. To explore the experience of parenting while having CF, 18 French parents with CF were interviewed (including 12 mothers and 9 participants with a lung transplant). A thematic analysis of the interview transcripts was conducted. Within the domain of parenthood, seven themes were found: Journey to Parenthood; Experience of Parenthood; Daily Life; Administrative and Financial Aspects; Interaction of CF with Children's Lives; The Spouse; The Children. This paper documents the positive aspects of parenthood, and the logistical and emotional challenges faced by participants and how they adjust to them. Notably, this paper highlights the struggle of most participants to become parents, the sensitive period of lung transplant surgery for the family, what children are told about CF, and how children's lives are coloured by a sense of normality and worries for their sick parent.

### Keywords

adults, cystic fibrosis, lived experience, parenthood, qualitative study

Cystic fibrosis (CF) is a common life-limiting genetic disease caused by mutations of a gene that encodes the CFTR (cystic fibrosis transmembrane conductance regulator) protein (Grasemann and Ratjen, 2023). Functional failure of the CFTR results in mucus retention, chronic lung infection and progressive respiratory impairment. Important comorbidities occur in the pancreas (pancreatic insufficiency, diabetes), liver (hepatic cirrhosis) and vas deferens (infertility). Consequently, patients' lives are governed by demanding treatments (physiotherapy, nutritional and enzymatic supplements and/or antibiotic courses) and numerous constraints (frequent clinical visits, hospitalisations and sometimes the

need for a lung transplant). In recent decades, the life expectancy of patients with CF has improved

<sup>1</sup>Université Paris Cité, France

<sup>2</sup>Hôpital Cochin, Assistance Publique des Hôpitaux de Paris, France

<sup>3</sup>Hôpital Foch, France

<sup>4</sup>Hôpital Européen George Pompidou, Assistance Publique des Hôpitaux de Paris, France

<sup>5</sup>Institut Gustave Roussy, France

### Corresponding author:

Anne Jacob, Laboratoire de Psychopathologie et Processus de Santé, Institut de Psychologie, Université Paris Cité, 71 avenue Edouard Vaillant, Boulogne Billancourt 92100, France.

Email: jacob.anne@protonmail.com

dramatically; in France this now exceeds 65 years (Burgel et al., 2023), while the median predicted survival age for babies born between 2018 and 2022 is 56.6 years in the US (Cystic Fibrosis Foundation, 2023) and 60.6 years in Australia (Ahern et al., 2024). Consequently, the number of people with CF who reach adulthood is increasing rapidly, accounting in 2022 for 52% of patients in Europe (Zolin et al., 2024), 58.2% in Australia (Ahern et al., 2024), 59.4% in the US (Cystic Fibrosis Foundation, 2023) and 62.5% in France (Vaincre la Mucoviscidose, 2023). The recent generalisation of modulators, particularly Elexacaftor/Tezacaftor/Ivacaftor, has accelerated the increase (Grasemann and Ratjen, 2023) and brought many improvements in the quality of life of people with CF (Keyte et al., 2023; Page et al., 2022). Hence, adults with CF now commonly seek and experience a more 'normal' life, in which they may study, work and have children (Higham et al., 2013; Page et al., 2022).

Parenthood is known to be both a very meaningful and challenging experience that brings about many changes in a parent's individual identity, emotions, cognitions, behaviours and needs, and in the couple's quality of life (Doss et al., 2009; Nyström and Öhrling, 2004; Umberson and Gove, 1989). However, parents with a chronic illness may face additional difficulties resulting from their condition. Studies report psychological, emotional, cognitive and physical issues, as well as other negative outcomes affecting the well-being of families, including fatigue, pain, having less time to spend with the children, loss of capacity, stigmatisation or household accidents (Candilis-Huisman et al., 2017; Vallido et al., 2010). Nevertheless, reviews specify that every disease has a specific way of interacting with parenthood. Parenthood is a complex and challenging situation for parents with CF. A systematic review (Jacob et al., 2021) identified fewer than 15 studies on parenthood with CF and only a few papers have been produced since (i.e. Kazmerski et al., 2022a, 2022b;

Stransky et al., 2023). The review describes difficulties and needs regarding parents' health, adherence to and prioritisation of treatments, coping strategies and interactions with health-care teams. However, the review also highlights the strong positive emotional outcomes of parenthood and participants' motivation to remain as healthy as possible. It concludes that there is a need to study the entire population of parents with CF, without compartmentalising them on their physical condition.

Therefore, we designed an explorative and qualitative bi-centric study called MucoPar. Using individual interviews and focus groups, the study aimed to explore the perceptions, experiences and needs of French people with CF who have children, with two separated analysis (one for the interviews, and one for the focus groups). This paper aims to present a descriptive synthesis of the interviews' analysis and to document the lived parenting experience of interviews' participants. The focus groups' analysis is the subject of another paper.

## Methods

### *General MucoPar design*

To collect as much information as possible, we created a similar semi-directive interview guide for the focus groups and interviews, with only a few broad questions. The questions were discussed and agreed upon by the researchers. Because the participants were informed of our research goal in advance, the meetings began with a presentation and a broad question that did not mention parenthood. This was to allow participants to give as many subjective responses as possible while avoiding a quick saturation effect. Avoiding the parenthood topic also allowed participants to spontaneously articulate information on CF and parenthood, and diminished the risk of social desirability bias, which could be an issue when discussing parenthood. Subsequent, questions about parenthood were meant to redirect participants to the topic, and help them develop what they had

specified previously. Thus, participants were first asked to introduce themselves and their family, and then asked to answer three questions<sup>1</sup>:

- 'What is it like being an adult with a chronic disease, CF, since childhood (or since you have been diagnosed)?'
- 'In your experience, what is it like being a parent?'
- 'In your experience, what is it like being a parent with CF?'

When answering, the participants were encouraged to give specific details; this was to improve the interviewer's understanding and to collect in-depth data on parenthood-related topics.

Due to the brevity and openness of our interview/focus group guide, we did not conduct a pre-test. However, after the second interview, we added a concluding question (for both the individual interviews and the focus groups). This asked if participants had anything to add regarding parenthood with CF that the health professionals should be aware of.

### *Recruitment of participants*

The study included people with CF who were identified as parents and attended one of two adult CF Centres in Paris region, France. We expected that 50 participants would allow our results to be generalised. Eligible participants had to be 18 years old or older, speak fluent French and not suffer from a psychotic disorder or medical condition unrelated to CF.

All eligible participants were informed of the study by email, after most of them had been informed by their CF physician (D.H. and D.G.) during clinical visits. Initially, participants were invited to attend a focus group with or without their spouse but were offered an individual interview if they were reluctant to participate in a focus group. Participants with specific lung bacterial colonisation that

contraindicated meeting with other persons with CF were only asked to participate in individual interviews.

From a list of 232 patients with CF who had children, 53 were not contacted because they were not eligible, had not attended a CF Centre for more than a year, or their health was too poor. Of the resulting 179 persons who were contacted, 82 did not reply, 18 refused to participate (for health reasons, lack of time, wished to avoid hospitals or lack of interest), 27 agreed to participate but were unable to attend a focus group or an interview. This left 52 participants in the study, and 18 who attended an individual interview.

Five in-person interviews took place in CF Centres from October 2019 to March 2020. During and after the COVID-19 lockdown, the interviews were held online in March, April, November and December 2020. The interviews lasted between 28 and 97 minutes, with a mean of 50 minutes.

### *Characteristics of interview participants*

The 18 interview participants (12 females and 6 males) were aged from 28 to 65 years old (mean age = 43.7). All except for one participant, who was in the process of divorce, were married or in a civil/de facto union. A third of participants were from the Paris region, others were from other regions of France and one was living abroad. Two-thirds of the participants had at least an undergraduate degree (five of these had a Master's degree), while the other third had upper secondary education or lower. Most of the participants were working (four full-time and eight part-time), three were stay-at-home parents, two were no longer working for medical reasons and one was retired.

In total, the participants had 24 children aged from 2.5 to 38 years old (mean 13.7). On average, the participants had 1.3 children; more precisely, only three participants had two children and one had four. The children were mostly born via spontaneous pregnancies, although

**Table 1.** Interview participants' medical characteristics at the time of interview.

| Medical characteristics                                                          | Mean     | Minimum–Maximum |
|----------------------------------------------------------------------------------|----------|-----------------|
| Body mass index (BMI) in kg/m <sup>2</sup>                                       | 21.2     | 18.2–29.4       |
| Age at CF diagnosis in years                                                     | 7.8      | 0.5–59          |
| Percentage predicted of forced expiratory volume in 1 second (FEV1) <sup>a</sup> | 76       | 35–113          |
| Number of participants (total <i>n</i> = 18)                                     | <i>n</i> | %               |
| With a lung transplant                                                           | 9        | 50              |
| With diabetes                                                                    | 7        | 39              |
| With pancreatic insufficiency                                                    | 15       | 83              |
| With ≥ 1 IV antibiotic course during the previous year                           | 9        | 50              |

<sup>a</sup>FEV1: Measure of the participants' breathing capacities.

seven were through assisted reproductive technology (ART). Seven children were adopted.

Half of the sample had a lung transplant. The medical characteristics of the interview participants are described in Table 1.

### General data collection and analysis

Demographic and clinical data were collected by D.H., A.J. and D.G. from the participants' medical files.

The focus groups and individual interviews were all conducted by the same female researcher (A.J.), in the CF Centres or online via the secure Zoom account of Université Paris Cité. The researcher, who presented herself as a clinical psychologist and a PhD student, had never met with the participants before. No notes were taken during the focus groups or interviews; they were all audio-recorded and transcribed.

The focus groups and interviews data were analysed separately. As many participants were included in both conditions, the distinction allowed a more in-depth analysis and a richer presentation of the results for each condition. Furthermore, the distinction allowed us to highlight the peculiarities of each condition, especially as the focus groups also included spouses and individual interactions are known to impact the results (Stewart and Shamdasani, 2014). Hence, two separate inductive thematic

analyses were conducted using a six step process and a realist epistemology to provide a rich description of the data (Braun and Clarke, 2006).

### Analysis of the individual interviews

At least a third of the content was to be coded by two different researchers – A.J. on NVivo, Version Release 1.6.1 (1137), and C.B. on Excel, Windows 10 – to compare the obtained thematic grids. Thus, seven interviews (38% of the interview sample and 42% of the transcribed content) were compared.

Because the participants had CF, it was expected that the disease would impregnate the transcripts. Hence, the researchers defined that verbatim transcripts referring to the disease alone, and not to parenthood or the participants' children, would be separated. This led to the emergence of three domains: Personal History and Presentation, The Disease and Parenthood. Verbatim transcripts in the parenthood domain were then compared and discussed (from general domains to specific sub-themes) until a consensus was reached for each one. Within the parenthood domain, themes were based on a semantic classification (Braun and Clarke, 2006). As the themes were not equally distinct on an explicit level, the researchers discussed how to define them and focused on those that would best highlight important aspects of

participants' discourse, rather than on the number of quotations per topic. A distinction was made between the protagonists in the family. Thus, participants' experience was articulated around three principal themes: Journey to Parenthood, Experience of Parenthood and Daily life. What they reported about their spouses or children had their own themes (two themes for the children). A last theme was debated and created: Administrative and Financial Aspects. Even though this theme concerned only three participants, the transcripts revealed an interesting topic and were too specific to be classified within other themes. The verbatim transcripts were then regrouped into sub-themes following the same logic. Some patterns appeared semantically obvious to the researchers, while others were discussed to generate the most relevant presentation of the discourse.

After a consensus was reached for the double-coded interviews, the assessment of the remaining interviews was conducted by C.B. and supervised by A.J. and C.F., the PhD supervisor. After completion of the coding, the transcripts (the dataset, coded extract of data and resulting interpretations) were repeatedly re-examined to achieve the best thematic grid. In terms of saturation, no new themes appeared after the coding of the six first interviews.

### *Ethical considerations*

The study was approved in July 2019 by the Société de Pneumologie de Langue Française (reference: CEPRO 2019-014). All participants received written information about the project and provided verbal informed consent prior to participation; following French regulations regarding observational studies, no signed agreement was requested. This study is registered within ClinicalTrials.gov under number NCT04133246.

The data (transcripts) of our study are not publicly available because they contain

information that could compromise the research participants' privacy.

### *Rigour and transparency*

We respected the COREQ (consolidated criteria for reporting qualitative research) checklist guidelines (Tong et al., 2007).

A.J. is a psychologist and PhD student in psychology; she had clinical experience of parenthood topics and groups facilitation (therapeutic or focus groups), but had never worked with people with CF before. C.B. was a research intern in our health psychology laboratory throughout her Master's degree in clinical psychology. C.F. is a professor and PhD supervisor with clinical and research experience in psycho-oncology, who specialises in qualitative studies.

## **Results**

Within the domain of parenthood, seven themes were revealed: 1. Journey to Parenthood, 2. Experience of Parenthood, 3. Daily Life, 4. Administrative and Financial Aspects, 5. Interactions of CF with Children's Lives, 6. The spouse, 7. The Children. They are illustrated in Figure 1.

The theme 'The Spouse' is presented in the Supplemental File. The theme 'The Children' is not discussed in this paper as it reports on information about the participants' children (personalities, mental and physical health, activities, etc.) that is not related to CF and is not relevant to the aim of this paper.

To contextualise the illustrative quotations of the themes, relevant information on the participants is presented in Table 2.

### *Theme 1: Journey to Parenthood*

All the participants mentioned this theme and were very forthcoming on the subject. They all explained why and how they pursued

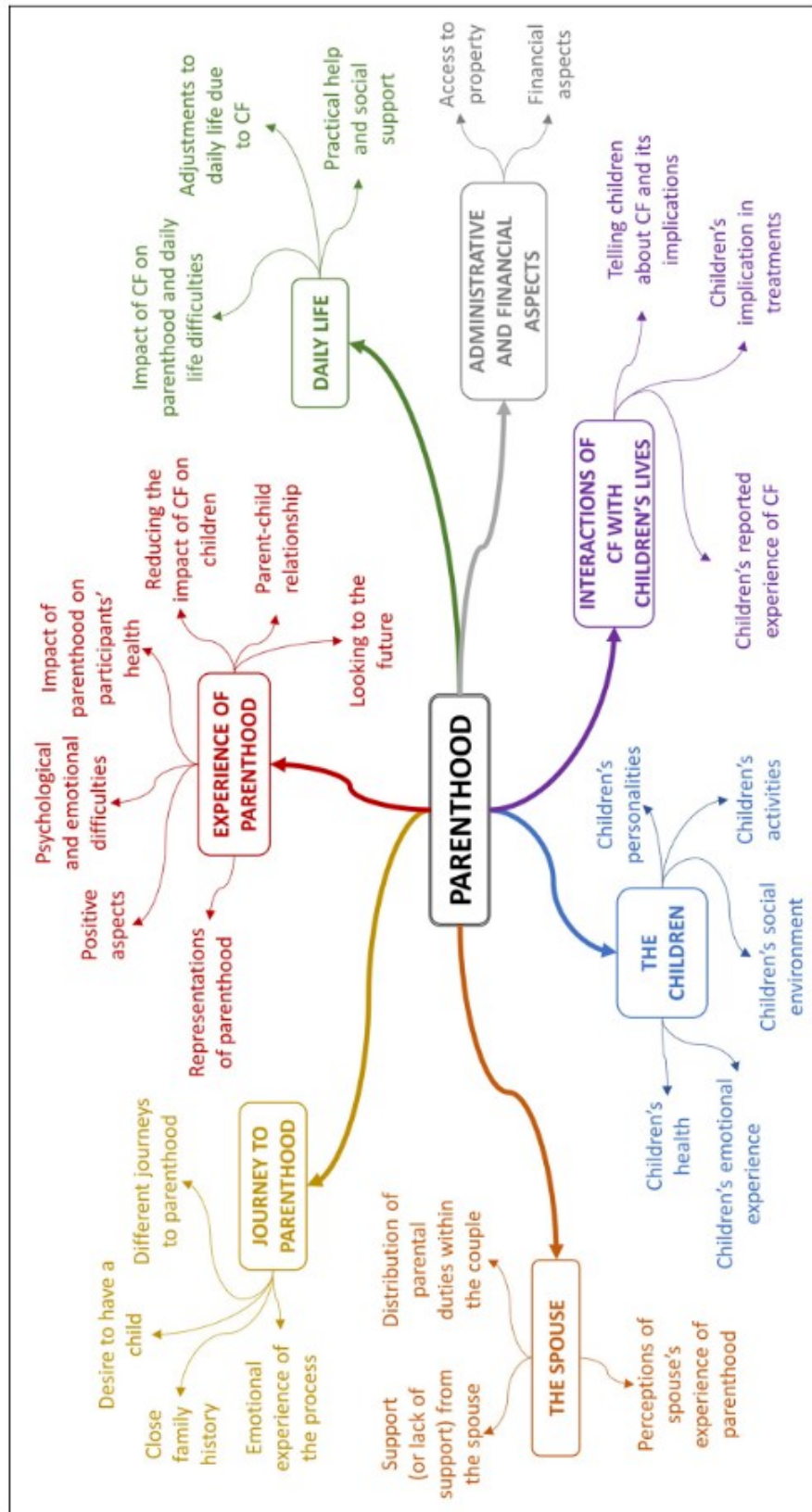


Figure 1. Thematic tree of the Parenthood domain and its seven themes.

**Table 2.** Information on the participants and their children.

| Participants' pseudonym | Age (years) | Lung transplant | Number of children | Sex <sup>a</sup> and age group <sup>b</sup> of the participants' children |
|-------------------------|-------------|-----------------|--------------------|---------------------------------------------------------------------------|
| Adeline                 | 28          | ✗               | 1                  | ♂ Toddler                                                                 |
| Barbara                 | 40          | ✗               | 1                  | ♂ Teenage                                                                 |
| Benjamin                | 52          | Yes             | 1                  | ♂ Teenage                                                                 |
| Claudia                 | 32          | Yes             | 1                  | ♀ School-age                                                              |
| Elise                   | 37          | ✗               | 1                  | ♂ Preteen-age                                                             |
| Florence                | 39          | ✗               | 2                  | ♂ Preteen -age + ♀ school-age                                             |
| Fred                    | 36          | Yes             | 2                  | ♀ ♀ Toddlers                                                              |
| Giselle                 | 64          | Yes             | 1                  | ♂ Adult                                                                   |
| Helene                  | 33          | Yes             | 1                  | ♂ Toddler                                                                 |
| Juliette                | 48          | ✗               | 1                  | ♀ Preteen-age                                                             |
| Kelly                   | 29          | Yes             | 1                  | ♀ School-age                                                              |
| Michelle                | 59          | Yes             | 1                  | ♀ Adult                                                                   |
| Paul                    | 65          | Yes             | 1                  | ♀ Adult                                                                   |
| Philippa                | 51          | Yes             | 2                  | ♂ ♂ Adults                                                                |
| Sophie                  | 42          | ✗               | 1                  | ♀ School-age                                                              |
| Theo                    | 38          | ✗               | 4                  | ♀ ♀ ♀ Preteen-age + ♂ Toddler                                             |
| Viviane                 | 50          | ✗               | 1                  | ♀ Adult                                                                   |
| Yoris                   | 44          | ✗               | 1                  | ♀ Teenage                                                                 |

<sup>a</sup>Sex: ♀: girl, ♂: boy.

<sup>b</sup>Age groups: toddlers: 0–5 years, school-age: 6–10 years, preteen-age: 10–12 years, teenage: 13–17 years, adults: 18 years and older.

**Table 3.** Quotations of the 'Journey to Parenthood' theme.

| Sub-themes                          | Quotations                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                        |
|-------------------------------------|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Desire to have a child              | <p><i>Kelly: Initially, I did not want to have children. As a woman, I wanted a child, but because of CF, I did not really want to. But my husband absolutely wanted one [ . . . ] and he finally convinced me.</i></p> <p><i>Elise: I wanted to have my son while I was young and still well, because I didn't know what the future held for me.</i></p> <p><i>Benjamin: It's legitimate to think that it's not worth it if I die in a year's time. For the child, it's not fair . . . So, yes, it's a question that we've asked ourselves.</i></p>                                                                                              |
| Different journeys to parenthood    | <p><i>Sophie: [Daughter's name] was conceived . . . how should I put it . . . without medical help.</i></p> <p><i>Claudia: We had to plan ahead with the doctor before the pregnancy, so it did not happen like for a normal couple. It was something that was planned, and that was very much medically assisted.</i></p> <p><i>Paul: I met a woman who had recently had a baby. And we quickly decided . . . well, I quickly realised I liked being part of a family. [ . . . ] So, the year after we got married, I adopted her child.</i></p>                                                                                                 |
| Emotional experience of the process | <p><i>Theo: This phase of becoming a parent was horrible, long and painful. It was a very hard process . . . physically . . . morally . . . It was difficult for me. Way more than the disease itself. And had we mentioned to talk about it to the doctors, they would not have understood.</i></p> <p><i>Adeline [on insemination]: Even though I was glad to get medical help, it's still a journey, and a complicated one!</i></p> <p><i>Fred: If you're lucky enough to be in good health [ . . . ] go for it! But if you are not feeling great, then honestly, having children is too complicated, whether you're a man or a woman.</i></p> |

parenthood, and most said how complicated the path was for them. Illustrative quotations of this theme are presented in Table 3.

*Desire to have a child.* Many participants spoke about their strong desire to have at least one child. For some, being too aware of their uncertain future, the desire was urgent, whereas others needed to feel confident they would live for a while before pursuing parenthood. Two participants said they initially did not desire to have children, but were convinced by their partner. Some expressed being happy with one child, but having more than one child was a concern for half of the participants. Some renounced having more children, which made them feel sad or guilty about their one child not having siblings. Others had the chance to have a larger family, and two mothers were carrying out procedures (for adoption or ART) to have their second child.

*Different journeys to parenthood.* All the participants described how they became parents (through spontaneous or assisted pregnancies and/or adoption). They described everything they needed to do before and during pregnancy, such as appointments and treatments for ART (assisted reproductive technology). The five participants who adopted discussed their decision process. They decided on adoption because: ART failed (two participants), their partner was sterile (one participant), one pregnancy was forbidden by doctors (one transplanted participant) and adoption of their partner's child (one male participant).

*Emotional experience of the process.* The participants talked a great deal about how they felt during their journey to parenthood. Most, especially those who went through ART and adoption, described an 'uphill battle'. They explained the challenges of adoption and how difficult, long, painful and sometimes

dehumanising the ART process had been for them and/or their partner.

Finally, some participants gave recommendations for people with CF who wished to pursue parenthood, such as being sure they feel well enough to endure the fatigue caused by children.

## Theme 2: Experience of Parenthood

Every participant contributed to this theme, which provided the highest number of verbatim transcripts. Hence it resulted in many sub-themes that documents what it is like to be a parent with CF, in terms of representations, emotions, difficulties and impacts. Illustrative quotations are presented in Table 4.

*Representations of parenthood.* The participants described common aspects that could be mentioned by any parent (positive aspects, difficulties and responsibilities) as well as their specific experience of parenthood while having CF. Many participants explained how fortunate they felt to be parents especially because some had always been told they would die young.

Many pointed out that they only had known parenting with CF; hence, it was their norm. Some said they could feel as 'normal' as other non-CF parents – this was because they had the same concerns and responsibilities, and were doing the same things for/with their children (education, activities, medical appointments, etc.). A few felt they sometimes did more than healthy parents. However, all the participants tempered their normative feelings with the peculiarities of their situation, particularly because they had to juggle parenthood responsibilities, treatments, fatigue and the frequent unpredictable constraints of CF. Some participants recalled that parenting with CF was harder than without CF. A few also explained how the disease had impacted their parenting style and how they could give more responsibilities to their children compared to other parents.

**Table 4.** Quotations of the 'Experience of Parenthood' theme.

| Sub-themes                                   | Quotations                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                  |
|----------------------------------------------|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Representations of parenthood                | <p><i>Paul:</i> As a CF patient, being a parent is a blessing, because I never thought I'd be able to.</p> <p><i>Yoris:</i> When [name of daughter] needs to see the doctor, I book appointments [. . .], I go to parent-teacher meetings, things like that. No more, no less than normal parents, I think.</p> <p><i>Claudia:</i> Parenthood with a disease like CF means juggling all the usual treatments and the normal life of a mother, but punctuated by the difficulties created by the disease.</p>                                |
| Psychological and emotional difficulties     | <p><i>Florence:</i> When you don't feel well, you know that you deprive the children of something. [. . .] So there's a feeling of guilt. Or maybe not guilt but sometimes I think it would be better if they didn't have to deal with all this. I wish I could spare them the hardship of the disease.</p> <p><i>Yoris:</i> It's distressing to think that [with sobs in the voice] it might just all end at some point . . . that she will have to go on without her father . . . that perhaps, I won't see her grow up, get married.</p> |
| Positive aspects                             | <p><i>Claudia:</i> You can't imagine the happiness I felt holding my baby, after dreaming of it for years, and after doctors advised me against it, and everybody telling me I was crazy and I was going to die.</p> <p><i>Theo:</i> It's bliss! Even though it's tiring sometimes, it brings nothing but happiness. I'm happy, I'm a fulfilled dad.</p> <p><i>Benjamin:</i> I get the feeling that I feel more alive through him, watching him grow up, and all that. It brings me such joy!</p>                                           |
| Impact of parenthood on participants' health | <p><i>Michelle:</i> When I went through a big crisis, I always held on to my daughter, thinking 'I have to stay, I have to hold on for her, I must not die'. Somehow it gave me energy.</p> <p><i>Elise:</i> It inevitably had an impact on my health, because the first years are tough, the sleep deprivation, even though my partner helped a lot [. . .] and then all the diseases that the baby caught at the day-care centre [. . .] that I caught afterwards. So, I was much sicker than ever before.</p>                            |
| Looking to the future                        | <p><i>Theo:</i> It's difficult to project myself into the future, because I've always wanted to be there for my children as long as possible [. . .]. Now, my main goal is to see my children get married, so I'm looking quite far into the future!</p> <p><i>Fred:</i> If I passed away now, I would feel like leaving my daughters in a state of utter sadness.</p>                                                                                                                                                                      |
| Parent-child relationship                    | <p><i>Giselle:</i> I think that in our relationship, the two problems, the disease and the adoption, got mixed up. [. . .] I would say that the disease worsened the difficulties linked to the adoption.</p> <p><i>Kelly:</i> When I was sick, I sometimes came home [from hospital] for a week [. . .] and she was like three and half, maybe four years old, and she looked after me. She fed me, she brought me my morning coffee or breakfast in bed . . . even though it shouldn't have been her role.</p>                            |
| Reducing the impact of CF on children        | <p><i>Helene:</i> I don't want him to be affected by having an exhausted mother.</p> <p><i>Michelle:</i> I've always lived like if I had nothing [. . .] while always protecting my daughter.</p>                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                           |

*Psychological and emotional difficulties.* Some participants did not verbalise their psychological and emotional difficulties, while others discussed them openly, including Helene, who

said, 'I don't face any difficulties in my day-to-day life, but I find managing the psychological side challenging'. Many emotions were mentioned, such as anxiety, fear, stress, guilt,

pressure to do the best or to compensate, heaviness, the frustration they do less than healthy parents, sadness, separation difficulties, etc. For instance, some participants experienced fear or anxiety regarding their children's health or the suffering that CF might generate for their children. Some said they were anxious and stressed by the unpredictable but inevitable complications the disease could bring, and how those complications might lead them to be diminished parents. Most men and some women also voiced fears of dying prematurely, being unable to see their children grow up, and/or abandoning their children and spouses. This fear appeared more present and/or intense for participants with a lung transplant. Some difficulties were counter-balanced by the pleasure of doing things for and with their children, but the guilt seemed to be a tough emotional challenge for many participants. Commonly, the participants felt guilty for complicating their children's lives, imposing them a medical environment and separations on them, or giving them too much responsibility.

**Positive aspects.** Almost all participants described the positive aspects of being a parent, such as their overwhelming happiness once their children were born or they adopted a child, their general joy and happiness, their fulfilment, their chance to be a parent and for one father, the chance to have biological children because his sperm was collected before his transplant. Children also brought meaning or a new reason for living. It appeared that the positiveness of parenthood more frequently surpassed whatever difficulties and fatigue were brought by CF.

**Impact of parenthood on participants' health.** Some mothers mentioned the negative impact that parenthood had on their health, particularly in the first years, because of fatigue or unintentional non-adherence. One mother explained how she had put her child's needs before hers during the two first years, and thought that had

caused her to need a lung transplant. Nevertheless, some parents mentioned how their children were an important motivation to stay healthy and were a strong driver to keep fighting during complicated episodes.

**Looking to the future.** The participants (mostly fathers) gave their thoughts on a future where they would be dead. A few fathers discussed the life expectancy goals they set themselves, such as living long enough to be able to see their children get married. However, some participants recognised that they might not meet their grandchildren, while some explained about how concerned they were about their children's mental health if they were to die.

**Parent-child relationship.** Most participants who mentioned their relationship with their children described it as very good or even fusional. Only one participant recalled having a troubled relationship with her adopted son, partly because of her disease. A few participants also described how their children could provide logistical help by contributing to domestic chores, such as vacuuming and helping in the kitchen. Some mothers recalled the spontaneity of children to help, particularly when the mothers were very low. Two mothers said how helpful the presence of their daughters were around the transplant surgery period. One had an adult daughter who provided a lot of general support, while the other had a toddler who did many little things during the wait for the lung transplant.

**Reducing the impact of CF on children.** Many women described the various ways they could prevent or diminish their children's suffering, such as focusing on the children and being very available for them, living like healthy people, banalising the disease, hiding some emotions to reassure the children, pushing themselves past their fatigue or pain in order to maintain a normal life, booking psychological sessions for children, etc. Finally, a few participants

**Table 5.** Quotations of the 'Daily Life' theme.

| Sub-themes                                             | Quotations                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                               |
|--------------------------------------------------------|------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Impact of CF on parenthood and daily life difficulties | <p><i>Elise:</i> After the birth, I was extremely tired. [...] There were times when I let him cry because I just couldn't, I didn't have the energy ... so I would stay in bed.</p> <p><i>Sophie:</i> When we're having a meal ... well, I'm there ... but I very often have to leave the table because my stomach hurts.</p> <p><i>Yoris:</i> Even when it's my week to have her at home, I can't spend all my time with her because I need to sleep a lot.</p> <p><i>Adeline:</i> It's so complicated! We must juggle so many things: being a patient, a mother, a worker, a woman ...</p> <p><i>Claudia:</i> It's so good to know that we can be a normal mother and a normal daughter thanks to the transplant. To be able to do usual stuff, and to have a normal family life.</p> |
| Adjustments to daily life due to CF                    | <p><i>Florence:</i> Everything is organised. So, when something unexpected happens, because unexpected things always happen with CF, it helps the children to be less worried.</p> <p><i>Claudia:</i> We only do small parties for birthdays, we don't invite many people.</p> <p><i>Helene:</i> When [name of son] came into our lives, I started to work part-time.</p>                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                |
| Practical help and social support                      | <p><i>Juliette:</i> The grandparents can't really help us anymore because they're too old. At the end of the day, it's always just us, the parents.</p> <p><i>Michelle:</i> My parents lived in my town, so when I wasn't doing well, my daughter stayed at theirs. [...] It helped make sure she had a normal life.</p>                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                 |

described some moments when they managed to reduce the impact of CF, such as Philippa, whose son told her that he had noticed she did more things with him than his friends' mothers who were not sick did with them.

### Theme 3: Daily Life

This theme was mentioned by most of the participants. It provides an understanding of the daily life of a family with a parent with CF, how it can be affected by the disease, the adaptations, made and the help needed or received. Illustrative quotations are presented in Table 5.

**Impact of CF on parenthood and daily life difficulties.** Participants gave concrete examples of how CF could negatively affect their family lives. Some mentioned the issues faced in the first months due to fatigue, and many spoke about the physical constraints that CF put on themselves and the family. Breathing issues often prevented participants from doing some activities, while an important need for sleep sometimes reduced the time spent with the

children. Pain was also a daily life disruptor for a few participants. Several participants, especially mothers, described the complexity of the situation and the fatigue caused by multitasking, which was summarised best by Barbara: '*It had become too hard and too tiring to bear the household chores, work and treatments*'.

Nonetheless, a few participants said that CF had no or very limited negative impact on their daily family life. One mother explained how her health improved after the transplant and changed her family life and subsequently made it 'normal' and 'more usual'.

**Adjustments to daily life due to CF.** Participants developed different lifestyle adjustments to cope with CF constraints. Hence, CF resulted in re-location for some families (e.g. to be near a supporting community, often grandparents) and impacted their socialising habits (e.g. a need to only attend small parties and avoiding crowded places and people with a cold), the ways of working (at home and/or part-time) or ability to continue working. Furthermore, hygiene was an important matter for all family matters. Some

mothers organised things around their treatments and hospitalisations and anticipate when CF would inevitably bring complications.

*Practical help and social support.* Some parents felt they lacked support and practical help from their community. Despite this criticism, a few also explained that they wanted to be as present as possible in their children's lives and wished to entrust their care to others as little as possible. However, there were more participants who explained how much support they received, especially from families, who looked after the children during complicated episodes, hospitalisations or clinical follow-ups.

*Activities and time spent with children.* Finally, many participants listed or described the activities they did with their children, which were typically shared activities (such as homework, walks and bicycle rides, museum visits and games).

#### **Theme 4: Administrative and Financial Aspects**

Only three participants talked about administrative and financial aspects (money management in the family) and their struggle to access property because of CF. Homeownership appeared to be important for the three participants and was directly linked to their status as parents and a need to buy a home because they were parents. Because of CF, one participant was unable to buy a home and another was really disappointed because she and her partner could have only a reduced loan. Both participants who had a loan criticised the extra cost of loan insurance due to CF.

#### **Theme 5: Interaction of CF with Children's Lives**

This theme was mentioned by every participant and most widely discussed by parents of

children older than 3 years of age. The theme highlights the interaction between CF and children's lives, such as how the participants would talk (or not) about CF to their children, and how children were involved in treatments. Illustrative quotations are presented in Table 6.

*Telling children about CF and its implications.* All the participants felt they had to tell their children about CF at some point, even if they had not done so yet. Several participants shared how and when they proceeded, or what they spoke about. Generally, participants reported explaining CF to young children using simple words. They added information as the children grew up and began to question. Children were informed about the genetic aspects of CF and its implications (on the participants' health, fertility and life expectancy), CF treatments and how the child had been conceived or adopted. Some participants also explained to their children that CF could make them die early.

One participant felt she lacked advice on how to speak about the disease to her child, while only two participants expressed feeling uneasy about speaking openly about CF. One participant declared that, despite her current reservations, she would speak more about CF in the future, while another had decided to stop talking about her health issues altogether after her adult son got very worried about her.

Of the five lung-transplanted participants who had teenagers or adult children, four did not reported discussing the transplant with them, while the other said that her announcement of needing a transplant was complicated. The three transplanted participants with young children spoke about the transplant with them, whether or not they received the transplant before or after having children. The last transplanted participant had a very young child but did not explain how or when she would mention her transplant to him.

**Table 6.** Quotations of the 'Interaction of CF with Children's Lives' theme.

| Sub-themes                                     | Quotations                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                              |
|------------------------------------------------|-----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Telling children about CF and its implications | <p><i>Reasons and ways to speak about CF:</i></p> <p><i>Paul:</i> I always told her that I was sick. At home, it was obvious. There are medicines, I am sick, I do certain things because I am sick.</p> <p><i>Juliette:</i> For the moment, well . . . I'm sick, but I don't say the word. Firstly, because it's hard for me to say it . . . I hardly tell anyone. [ . . . ] Secondly, because I don't see the point in telling her, she won't understand yet [ . . . ] so, I don't want to name it. And I don't want her to pronounce it either. [ . . . ] I think I'll tell her when she's older. [ . . . ] I want her to understand, at some point.</p> <p><i>What they say about CF and their possible death</i></p> <p><i>Philippa:</i> I explained what diabetes is [ . . . ]. I told my eldest son there would be cola and fruit juice in the car and that it was my 'safety kit' when I was out, and that he was not allowed to drink them.</p> <p><i>Florence:</i> During their early years, we never said the words 'cystic fibrosis' at home. [ . . . ]. But they've always known I have health issues, lung problems. And that it is an incurable disease that will worsen over time, but that I have treatments to slow it down. It's way later, when my eldest was 7 or 8 years old, that we started to use the words 'cystic fibrosis'. [ . . . ] And then our youngest heard them too.</p> <p><i>Elise:</i> We have to be realistic: it could happen. So, I tell him that I could catch the flu or coronavirus and be gone in 10 days.</p> <p><i>About the transplant</i></p> <p><i>Fred:</i> I don't tell them everything about the transplant, because they're too young to understand. But I show them the scars and tell them: 'Daddy has scars, he is really sick, but he's doing better. Don't worry, it will be okay, but daddy has to take his medicines'.</p> <p><i>Claudia:</i> When I was registered on the transplant list, I told her, 'One day, the doctor will call me, and I will have to go to the hospital to be treated'. And she said, 'Treat boo-boo!' [ . . . ] That's how she understood it at the time.</p> <p><i>Giselle:</i> I went to pick up my son from school and told him [about getting a transplant]. [ . . . ] I felt that he was the first who should know. [ . . . ] but it terribly shocked him and I think it was a mistake.</p> |
| Children's implication in treatments           | <p><i>Viviane:</i> She would ask me all the time, 'Mummy, can I come [to clinical follow-up] with you?' [ . . . ] First, I didn't want her to come [ . . . ]. And then I thought that it could do her some good and maybe help reassure her. So, I agreed.</p> <p><i>Theo:</i> When the nurse comes for IV treatments, my daughters put on a face mask, a nurse's gown, and they prepare everything with the nurse.</p>                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                 |
| Children's reported emotional experience of CF | <p><i>Elise:</i> Sometimes he can have a bit of stress. And with the COVID, he was scared that I could catch it and sometimes he panics.</p> <p><i>Paul:</i> I think that the anxiety she had towards her father became psychosomatic problems.</p> <p><i>Philippa:</i> It brought them positive stuff. To be more human, to feel more for others [ . . . ] maybe they are more attentive to other's needs.</p> <p><i>Kelly:</i> She's always worrying for me. When I came back from hospital after the transplant, she didn't wanna go back to school. She stayed with me. I feel that she grew up too fast.</p>                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                       |

*Children's implication in treatments.* Many participants explained how their children were involved, passively or actively, in their

treatments. Some said their children would go to medical appointments or physiotherapy sessions, and others described how they could be

present or helping during treatments such as counting pills in the morning, doing the count-down during aerosols, help nurses during their visits, etc. On the other hand, a few participants explained their wish to separate the disease from their children's lives; they made sure their children were not with them during some treatments or at school during clinical follow-ups.

*Children's reported emotional experience of CF.* All but two participants reported how their children felt towards CF. Many explained how the children adapted easily to the disease and that it was all they had known; hence their normality. Some children were 'doing fine'. Nonetheless, many participants described the emotional difficulties faced by children because of CF, such as worries, fears and anxiety for the participant's health and/or possible death (which for some was exacerbated by the COVID-19 pandemic). These issues sometimes manifest as nightmares, stomach pain or changing behaviours. Other difficulties mentioned were separation issues, painful remarks from others about their parents, and that the children were growing up too fast because of CF. Some participants explained that children had been given psychological follow-ups to help them cope with emotional distress. Some participants' children also received external support from other family members (cousins, aunts/uncles, grandparents). Notwithstanding this, some participants described the positive impacts of CF, which appeared to make children more empathetic and mature than other children.

Some participants who received a lung transplant when already a parent recalled the impact of the surgery on their children, who were described as anxious when the participant left for surgery. One mother recalled how, weeks after the surgery, her adult daughter was drained because of the support she provided to her mother during that time. Another explained how angry her young daughter was at her for not coming back home quickly enough after her

transplant; this made her ask for an early release from the hospital. Finally, another mother explained how, after a complicated period, her daughter discovered a new mother, who was able to do much more with her.

## Discussion

Our study confirms, whether children are biological or adopted, that parenthood is a positive experience in the lives of adults with CF, despite the challenges it brings. Our results are generally consistent with findings from previous qualitative studies, which also describe overall positive feelings towards parenthood besides emotional difficulties such as a sense of guilt and fear of making their children's lives harder (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2017; Stransky et al., 2023). Our results also highlight the fear of dying prematurely and the complexity of being a parent while dealing with treatments and fatigue, work and care of the home. Our results bring complementary concrete information on what, how and why participants told their children about the disease. The results generally show how participants felt they had to talk about CF at some point and could speak more or less easily about treatments, genetics, ART, lung transplants, possible degradation and even death. Children were also said to be involved in treatments, consistent with other studies (Cammidge et al., 2016; Stransky et al., 2023).

A new finding is the struggle faced by participants to become parents, especially when going through ART and/or adoption. Thus, procreation appeared as the most complicated aspect of parenthood for many participants. Participants emphasised the experiential and emotional burden of conception, whereas this topic is underdeveloped in other studies, which principally report on the financial burden of ART (Barker et al., 2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019). The differences may

be due to easier and mostly free access to ART in France, but this comes with the downside of crowded public clinics. Hence, ART clinics can be seen as dehumanising, particularly in contrast to CF centres.

The results also highlight how participants perceived their children's experience of the disease. A sense of normality was described for many children who have only known their parents as having CF. However, this normality appeared tainted by worries for the parent with CF and sometimes major psychological distress.

Finally, our results reveal for the first time the specific experience of parents with a lung transplant. In our sample, CF seemed to have a stronger impact on daily life for the non-transplanted participants than the transplanted participants. This difference may be explained by the overall better health and less demanding treatments of the transplant participants. However, transplant participants had different or additional things to explain to their children, such as being separated from them during the surgery period, their scars and different types of treatments. Moreover, when the transplant took place after a participant had become parent, the surgery period was coloured by diverse challenges related to the child's age. Indeed, the need for the transplant often came with the incapacity to parent properly or at all, and inevitably, the surgery meant a long separation from the child.

### Limitations

An explorative study appeared to be the most appropriate design for this topic because data on parenthood with CF are still sparse. However, this type of design did not allow for in-depth comparison. Furthermore, our question grid and analysis choices did not allow for detailed findings regarding specific groups in the sample, such as the transplanted participants. In our analysis, it appeared more relevant to isolate the different members of the family, but this did not allow us to consider the full systemic dimension of parenthood.

Regarding our sample, participants were recruited only from two large Parisian adult CF Centres, which care for more than 500 adult patients from the northern half of France (from a total of 4306 adult patients in 2020; Vaincre la Mucoviscidose, 2023). The participants in our sample appeared older, more educated and more employed compared to the mean for French adults with CF (Vaincre la Mucoviscidose, 2023). This could be because French adults commonly become parents in their late 20s (Volant, 2017), while the CF adult population includes every patient above 18. The participants also had better health outcomes, such as breathing capacities, than the national CF population, which was to be expected given the design and aims of our study. Indeed, patients whose health was too poor did not participate.

### Perspectives

Like other studies, we observed parenthood to be a real accomplishment for people with CF and gave them a strong motivation to stay as healthy as possible. Hence, it would be interesting to explore if this beneficial aspect might positively impact the actual health of CF patients. Generally, the link between mental and physical health is yet to be studied in this population.

Furthermore, our sample was recruited just before the generalised use of CFTR modulators (particularly elexacaftor/tezacaftor/ivacaftor). By 2022, 50.7% of patients with CF were under CFTR modulators, which drastically reduced their symptoms, improved the quality of life of eligible non-transplanted patients, and greatly improved the fertility of CF women (Burgel et al., 2023; Cystic Fibrosis Foundation, 2023; Middleton et al., 2019; Vaincre la Mucoviscidose, 2023). Thus, the experience of some participants may have changed since our interviews and many persons became parents after starting on CFTR modulators. Therefore, mixed methods and longitudinal studies, such as the future 'Health Outcomes of Parents with

CF' (Kazmerski et al., 2024), are now needed to better understand the global phenomenon of parenting with CF and study parenthood in the modulator era.

Due to its generalised recruitment design, our study lacked detailed information regarding the experience of persons with a lung transplant. Dedicated studies would be relevant to explore the parenthood of this group, and particularly to question the transplant impacts.

Additionally, the reported experience of children calls for research to explore the impact of CF on children's lives and their support needs.

Finally, from a clinical perspective, our results call for more support towards CF patients who wish to start a family, particularly before and during the ART path. Family support is also needed for children and parents, to reduce the impact of CF on the children.

## Conclusion

Similar to previous studies, our results show the complexity of being a parent while having CF, and how the overall positive experience is also marked by many challenges. Some themes (such as daily life and the interaction of CF with children's lives) may need further exploration to provide a better understanding of how family addresses specific challenges due to CF. Thus, more qualitative studies with groups should improve the generalisation of the data.

Furthermore, in the context of important improvements in CF treatments and an increasing number of parents with CF, new global and longitudinal studies are needed. Finally, conducting studies about other members of the family, children and spouses, will bring a more holistic understanding of the topic.

## Author contributions

All authors made substantial contributions to conception and design (AJ, DH, CF and DG) and/or to acquisition of data (AJ, DH, DG), and/or to analysis, or interpretation of data (AJ, CB, CF). All authors drafted the work or reviewed it critically for

important intellectual content, gave their final approval and agreed to be accountable for all aspects of the work.

## Acknowledgements

The authors would like to thank URC Cochin, GHIU Paris Centre Université Paris Cité for the implementation and supervision of the study. The authors also thank Dr Amanda Hughes from Cambridge Proofreading and Marion Gilet for the English corrections of the manuscript, both financed by the Laboratoire de Psychopathologie et Processus de Santé of the Université Paris Cité.

## Data sharing statement

The datasets (transcripts) of our study are not publicly available because they contain information that could compromise research participants' privacy.

## Declaration of conflicting interests

The authors declared no potential conflicts of interest with respect to the research, authorship, and/or publication of this article.

## Funding

The authors disclosed receipt of the following financial support for the research, authorship, and/or publication of this article: financial support from the Association Grégory Lemarchal for the research presented in this article.

## Ethics approval

The study was approved in July 2019 by the Société de Pneumologie de Langue Française (CEPRO 2019-014) and is registered with ClinicalTrials.gov (NCT04133246).

## Informed consent

All subjects received written information and provided verbal informed consent; following French regulations regarding observational studies, no signed agreement was requested.

## ORCID iDs

Anne Jacob  <https://orcid.org/0000-0002-2644-6479>

Dominique Hubert  <https://orcid.org/0000-0001-6044-4568>

Cécile Flahault  <https://orcid.org/0000-0001-7930-205X>

## Note

### 1. The questions in French were:

- Qu'est-ce que c'est pour vous, aujourd'hui adulte, d'avoir une maladie chronique, la mucoviscidose, depuis l'enfance (ou depuis votre diagnostic) ?
- Qu'est-ce que c'est pour vous d'être parent ?
- Qu'est-ce que c'est pour vous d'être parent avec la mucoviscidose ?

## References

- Ahern S, Pourghaderi AR, Ruseckaite R, et al. (2024) The ACFDR Registry Annual Report, 2023. Report no. 25. School of Public Health and Preventive Medicine, Monash University, July. Available at: [https://www.cysticfibrosis.org.au/wp-content/uploads/2024/07/ACFDR\\_2023\\_Annual-Report.pdf](https://www.cysticfibrosis.org.au/wp-content/uploads/2024/07/ACFDR_2023_Annual-Report.pdf) (accessed 10 September 2024).
- Barker II, Moses J and O'Leary C (2017) "I've got to prioritise": Being a parent with cystic fibrosis. *Psychology, Health & Medicine* 22(6): 744–752.
- Braun V and Clarke V (2006) Using thematic analysis in psychology. *Qualitative Research in Psychology* 3(2): 77–101.
- Burgel PR, Burnet E, Regard L, et al. (2023) The changing epidemiology of cystic fibrosis: The implications for adult care. *Chest* 163(1): 89–99.
- Cambridge SL, Duff AJA, Latchford GJ, et al. (2016) When women with cystic fibrosis become mothers: Psychosocial impact and adjustments. *Pulmonary Medicine* 2016: 1–11.
- Candilis-Huisman D, Dommergues M, Becerra L, et al. (2017) Handicap moteur, maladies rares et maternité : Une revue de la littérature. *Devenir* 29(4): 307–325.
- Cystic Fibrosis Foundation (2023) Patient Registry 2022: Annual data report, Bethesda, MD. Available at: <https://www.cff.org/media/34491/download> (accessed 21 December 2024).
- Doss BD, Rhoades GK, Stanley SM, et al. (2009) The effect of the transition to parenthood on relationship quality: An 8-year prospective study. *Journal of Personality and Social Psychology* 96(3): 601–619.
- Grasemann II and Ratjen F (2023) Cystic fibrosis. *New England Journal of Medicine* 389(18): 1693–1707.
- Hailey CE, Tan JW, Dellon EP, et al. (2019) Pursuing parenthood with cystic fibrosis: Reproductive health and parenting concerns in individuals with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology* 54(8): 1225–1233.
- Higham L, Ahmed S and Ahmed M (2013) Hoping to live a "normal" life whilst living with unpredictable health and fear of death: Impact of cystic fibrosis on young adults. *Journal of Genetic Counseling* 22(3): 374–383.
- Jacob A, Journiac J, Fischer L, et al. (2021) How do cystic fibrosis patients experience parenthood? A systematic review. *Journal of Health Psychology* 26(1): 60–81.
- Jessup M, Li A, Fulbrook P, et al. (2017) The experience of men and women with cystic fibrosis who have become a parent: A qualitative study. *Journal of Clinical Nursing* 27(7–8): 1702–1712.
- Kazmerski TM, Jain R, Lee M, et al. (2022a) Parenthood impacts short-term health outcomes in people with cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis* 21(4): 662–668.
- Kazmerski TM, Stransky OM, Lee M, et al. (2024) Assessing the health impacts of parenthood on people with cystic fibrosis: The HOPeCF prospective cohort protocol. *BMJ Open Respiratory Research* 11(1): e002383.
- Kazmerski TM, West NE, Jain R, et al. (2022b) Family-building and parenting considerations for people with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology* 57(Suppl1): S75–S88.
- Keyte R, Kauser S, Mantzios M, et al. (2023) The psychological implications and health risks of cystic fibrosis pre- and post-CFTR modulator therapy. *Chronic Illness* 19(3): 539–556.
- Middleton PG, Mall MA, Dřevínek P, et al. (2019) Elexacaftor–Tezacaftor–Ivacaftor for cystic fibrosis with a single Phe508del allele. *New England Journal of Medicine* 381(19): 1809–1819.
- Nyström K and Öhring K (2004) Parenthood experiences during the child's first year: Literature review. *Journal of Advanced Nursing* 46(3): 319–330.
- Page A, Goldenberg A and Matthews AL (2022) Lived experiences of individuals with cystic fibrosis on CFTR-modulators. *BMC Pulmonary Medicine* 22(1): 42.

- Stewart DW and Shamdasani PN (2014) *Focus Groups: Theory and Practice*. Los Angeles, CA: Sage Publications Ltd.
- Stransky OM, Benipal S, Pam M, et al. (2023) “Find ways to work parenting into cystic fibrosis”: A PhotoVoice exploration of being a parent and having CF. *Pediatric Pulmonology* 58(5): 1527–1534.
- Tong A, Sainsbury P and Craig J (2007) Consolidated criteria for reporting qualitative research (COREQ): A 32-item checklist for interviews and focus groups. *International Journal for Quality in Health Care* 19(6): 349–357.
- Umberson D and Gove WR (1989) Parenthood and psychological well-being. Theory, measurement, and stage in the family life course. *Journal of Family Issues* 10(4): 440–462.
- Vaincre la Mucoviscidose (2023) Registre français de la mucoviscidose – Bilan des données 2022. Report, Paris. Available at: [https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre\\_francais\\_mucoviscidose\\_bilan2022.pdf](https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre_francais_mucoviscidose_bilan2022.pdf) (accessed 10 September 2024).
- Vallido T, Wilkes L, Carter B, et al. (2010). Mothering disrupted by illness: A narrative synthesis of qualitative research. *Journal of Advanced Nursing* 66(7): 1435–1445.
- Volant S (2017) Un premier enfant à 28,5 ans en 2015 : 4,5 ans plus tard qu’en 1974—Insee Première—1642. Available at: <https://www.insee.fr/fr/statistiques/2668280#titre-bloc-15%20> (accessed 22 January 2024).
- Zolin A, Adamoli A, Bakkeheim E, et al. (2024) ECFSPR annual report 2022. Available at: [https://www.ecfs.eu/sites/default/files/Annual%20Report\\_2022\\_ECFSPR\\_20240603.pdf](https://www.ecfs.eu/sites/default/files/Annual%20Report_2022_ECFSPR_20240603.pdf) (accessed 10 September 2024).

## Supplementary file

### Theme 6: The Spouse

This theme was mentioned by 11 participants. It provides information on how the couple works around CF and parenthood. Illustrative quotations are presented in Table 1.

#### 1) Perception of spouse's experience of parenthood

Some participants gave information about how they perceived their spouse's experience of parenthood and their relationship with the children. The concerned spouses were said to be happy parents and to have a very nurturing relationship with their children.

#### 2) Support (or lack of support) from the spouse – parental task distribution

Spouses were described as an important source of support during various times or situations. Hence, the type of support described during the journey to parenthood was where the partnership itself helped the couple through any difficulties. Spouses were said to support their partner in facing or dealing with the disease; for instance, with a reassuring presence and/or personality, or by being involved in dealing with symptoms such as hypoglycaemia. However, although they were supportive and involved, a few spouses had to be regularly reminded that their partner would need more help because of their CF.

The participants spoke about the parenting task distribution, and some women recalled not receiving enough support, and/or doing more, which was probably related to the cultural gender partition of domestic tasks. More interestingly, some participants explained how, because of their CF, their spouse would take over everything with the children when they were sick, too tired, or hospitalised, or would do social things with the children to limit the germ exposition for the participant. Finally, one participant explained how important it was for him to reciprocally be able to take over everything when his wife could not.

**Table 1.** Quotations of “The Spouse” theme.

| Sub-themes                                                                | Quotations                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                          |
|---------------------------------------------------------------------------|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Perception of spouse's experience of parenthood                           | <p><i>Elise: He brings him a ton of love, many comfort... and [...] a lot of culture, open-mindedness. They do sport together, they laugh... well it's a complete relationship.</i></p> <p><i>Viviane: He really was a papa bear. His daughter was everything for him.</i></p>                                                                                                                                                                                                                                                                                      |
| Support (or lack of support) from the spouse – parental task distribution | <p><i>Claudia: When I'm not here, or tired, or when there's something... he must take over. I mean, I do nothing, he takes care of everything.</i></p> <p><i>Fred: With children, you must accept, or the spouse must accept that sometimes you might have unplanned complications and they will have to do more.</i></p> <p><i>Florence: He's implicated; however, I always have to remind him “Now I'm tired, do this and that” [...]. And I must remind him “I'm not a normal person, I'm sick. If you're tired, then I'm exhausted for the same thing”.</i></p> |

## 2) Article 3 – Résultats des focus groupes de MucoPar

### Health Psychology Parenting with Cystic Fibrosis: Experiences of Patients and Spouses –Manuscript Draft–

|                                               |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                |
|-----------------------------------------------|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Manuscript Number:                            | HEA-2024-1749                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                  |
| Full Title:                                   | Parenting with Cystic Fibrosis: Experiences of Patients and Spouses                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                            |
| Abstract:                                     | <p>Objective: This study qualitatively documents the lived experience of parents with cystic fibrosis (CF) and their spouses.</p> <p>Methods: Parents with CF, regrouped according to their lung transplant (LT) and bacteria colonization status, attended a two-hour focus group. Spouses were invited to join. The sessions were audio-recorded, transcribed, and thematically analyzed.</p> <p>Results: Thirty-four parents with CF (21 mothers, 13 fathers, mean age: 44) and eleven spouses (five females, six males, mean age: 42) were included in nine groups (two LT groups). Themes of three domains ("Becoming and Being a Parent with CF," "The Children," "The Spouses") are presented. They confirm the combination of positive outcomes and challenges when parenting with CF and highlight the difficult journey to parenthood of many participants. Participants with and without LTs demonstrated similar experiences. However, transplant surgery creates significant challenges for families if it occurs once children have been born (inability to parent, separation issues, fear of death). Children are generally told about CF and handle it as part of normal daily life. Nevertheless, CF can negatively impact them and generate emotional difficulties. Finally, spouses appear to contribute to discussions on CF, take on additional responsibilities, and provide general support to parents with CF.</p> <p>Conclusion: Our results complement and confirm previous findings while being the first to elucidate the experiences of parents with an LT and spouses of parents with CF. New longitudinal and/or systemic studies are needed to increase the holistic understanding of the topic, notably within the context of the generalization of modulator therapies.</p> |
| Article Type:                                 | Article                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                        |
| Corresponding Author Secondary Information:   |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                |
| Corresponding Author:                         | Anne Jacob, PhD Student<br>Université Paris Cité Faculté Sociétés et Humanités: Université Paris Cité Faculté Sociétés et Humanités<br>Boulogne-Billancourt, FRANCE                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                            |
| Corresponding Author's Institution:           | Université Paris Cité Faculté Sociétés et Humanités: Université Paris Cité Faculté Sociétés et Humanités                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                       |
| Corresponding Author's Secondary Institution: |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                |
| First Author:                                 | Anne Jacob, PhD Student                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                        |
| First Author Secondary Information:           |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                |
| Order of Authors:                             | Anne Jacob, PhD Student<br>Dominique Hubert, Dr<br>Nathalie Tuma, Dr<br>Dominique Grenet, Dr<br>Cléa Brain, Master's degree<br>Cécile Flahault, Dr                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                             |
| Order of Authors Secondary Information:       |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                |
| Keywords:                                     | Parenthood; Cystic fibrosis; Lived-experience; Spouses; Qualitative study                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                      |
| Manuscript Classifications:                   | Adults; Chronic disease; Cystic fibrosis; Families; Qualitative methods                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                        |
| Suggested Reviewers:                          | Melanie Jessup, PhD                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                            |

### Parenting with Cystic Fibrosis: Experiences of Patients and Spouses

Anne Jacob<sup>1</sup>, Dominique Hubert<sup>2</sup>, Nathalie Touma<sup>1</sup>, Dominique Grenet<sup>3</sup>, Cléa Brain<sup>1</sup> and

Cécile Flahault<sup>1</sup>

1. Laboratoire de Psychopathologie et Processus de Santé, Université Paris Cité.
2. Respiratory Medicine and Cystic Fibrosis National Reference Center; Hôpital Cochin,  
Assistance Publique des Hôpitaux de Paris (AP-HP)
3. Adult Cystic Fibrosis Reference Centre; Hôpital Foch

#### Authors Note:

Anne JACOB  : <https://orcid.org/0000-0002-2644-6479>

Dominique HUBERT  : <https://orcid.org/0000-0001-6044-4568>

Cécile FLAHAULT  : <https://orcid.org/0000-0001-7930-205X>

Nathalie TOUMA  : <https://orcid.org/0000-0003-2106-5906>

**Disclosure and acknowledgments.** a) Trial registration: ClinicalTrials.gov Identifier NCT04133246. b) Funding: The whole MucoPar study, which includes the research presented in this paper, has been fully financed by the Association Grégory Lemarchal. c) Conflict of Interest: we have no known conflict of interest to declare. d) Acknowledgements: the authors would like to thank URC Cochin, GHU Paris Centre Université Paris Cité for the implementation and supervision of the study. They also thank C. Singleton from Cambridge Proofreading, for the proofreading of the manuscript, financed by the Laboratoire de Psychopathologie et Processus de Santé of the Université Paris Cité.

**Contact:** Anne Jacob, LPPS, Institut de Psychologie, 71 avenue Edouard Vaillant, 92100 Boulogne-Billancourt, France. Email: [jacob.anne@protonmail.com](mailto:jacob.anne@protonmail.com)

### Abstract

Objective: This study qualitatively documents the lived experience of parents with cystic fibrosis (CF) and their spouses.

Methods: Parents with CF, regrouped according to their lung transplant (LT) and bacteria colonization status, attended a two-hour focus group. Spouses were invited to join. The sessions were audio-recorded, transcribed, and thematically analyzed.

Results: Thirty-four parents with CF (21 mothers, 13 fathers, mean age: 44) and eleven spouses (five females, six males, mean age: 42) were included in nine groups (two LT groups). Themes of three domains ("Becoming and Being a Parent with CF," "The Children," "The Spouses") are presented. They confirm the combination of positive outcomes and challenges when parenting with CF and highlight the difficult journey to parenthood of many participants. Participants with and without LTs demonstrated similar experiences. However, transplant surgery creates significant challenges for families if it occurs once children have been born (inability to parent, separation issues, fear of death). Children are generally told about CF and handle it as part of normal daily life. Nevertheless, CF can negatively impact them and generate emotional difficulties. Finally, spouses appear to contribute to discussions on CF, take on additional responsibilities, and provide general support to parents with CF.

Conclusion: Our results complement and confirm previous findings while being the first to elucidate the experiences of parents with an LT and spouses of parents with CF. New longitudinal and/or systemic studies are needed to increase the holistic understanding of the topic, notably within the context of the generalization of modulator therapies.

*Keywords:* parenthood, cystic fibrosis, lived experience, spouses, qualitative study

**Public health significance statement:** this study provides useful information for clinicians to improve the quality of the general care of patients with CF, most notably those who wish to start a family. It reports general data on the topic and the first qualitative findings about both parents with a lung transplant and the experiences of the spouses of those with CF.

### **Parenting with Cystic Fibrosis: Experiences of Patients and Spouses**

Cystic fibrosis (CF) is a life-limiting autosomal recessive genetic disease caused by mutations of the CFTR (cystic fibrosis transmembrane conductance regulator) gene. It is characterized by mucus retention, which results in a multisystem disease and, at the forefront, respiratory and digestive manifestations. Patients may, therefore, suffer from chronic lung infections and progressive respiratory impairment, pancreatic insufficiency, diabetes, hepatic cirrhosis, and infertility (Grasemann & Ratjen, 2023). Patients with CF must deal with demanding treatments (physiotherapy, nutritional and enzymatic supplements, and/or antibiotic courses) and daily life constraints (hygiene, pain, clinical visits, hospitalizations, etc.).

With the drastic improvement in treatments, the life expectancy of patients with CF has largely increased during recent decades (Burgel et al., 2023; Grasemann & Ratjen, 2023). The median survival rate of newborn babies with CF is now over 60 years in several regions, and adults represent more than 50% of patients in many countries (e.g., USA, Australia, France) (Ahern et al., 2024; Cystic Fibrosis Foundation, 2024; Vaincre la Mucoviscidose, 2023; Zolin et al., 2024). The recent generalization of CFTR modulator therapies, particularly Elexacaftor/Tezacaftor/Ivacaftor, has increased this trend and improved the quality of life of many people with CF (Page, Goldenberg, and Matthews, 2022; Keyte et al., 2022) as well as women's fertility (Grasemann & Ratjen, 2023). Consequently, the number of patients who are parents has increased, and this increase is expected to continue (Ahern et al., 2024; Cystic Fibrosis Foundation, 2024; Vaincre la Mucoviscidose, 2023).

Parenthood is understood as a fulfilling—yet physically and emotionally challenging—experience (Altschuler & Dale, 1999) that impacts couples' relationships (Doss & Rhoades, 2017) and brings specific challenges for people with chronic diseases or handicaps (Candilis-Huisman et al., 2017; Vallido et al., 2021). Both quantitative and qualitative studies have documented the impacts of parenthood on the health and well-being of parents with CF, or described those parents' experiences (Jacob et al., 2021; Kazmerski et al., 2022a; Stransky et al., 2023). Generally, studies have revealed the specific needs of and difficulties faced by parents with CF while depicting an overall

positive experience. However, qualitative results need to be confirmed, and parents with lung transplants have not yet been included in qualitative studies. Additionally, despite their important role, the spouses of people with CF have not been studied in the published research.

Therefore, we designed an explorative and qualitative study called MucoPar, to explore the perceptions, experiences, and needs of French CF patients with children and their spouses. This paper aims to document the lived experiences of parents with CF and their spouses who participated in our study's focus groups.

## **Methods**

### **Transparency and Openness**

In this article, we report manipulations and all data exclusions and measures included in this part of the study. Our previous paper reports the determination of our sample size and provides other detailed information on the general design of the study (Jacob et al., in press). We followed the COREQ checklist for qualitative studies (consolidated criteria for reporting qualitative research) (Tong, Sainsbury, and Craig, 2007). To protect research participants' privacy, our study's datasets (transcripts) are not publicly available. However, some parts may be provided by the corresponding author upon reasonable request.

The analysis was conducted using NVivo, Version Release 1.6.1 (1137) and 1.7.2.) by A.J. and N.T., supervised by C.F. A.J. is a psychologist and PhD student in health psychology, with clinical experience of parenthood topics and group facilitation, who had never worked with patients with CF before. N.T. is a psychologist with a PhD in psychology, and C.F. is a professor and PhD supervisor with clinical and research experience in psycho-oncology, specializing in qualitative studies.

The Institutional Review Board of the French Learned Society for Respiratory Medicine - Société de Pneumologie de Langue Française approved the study in July 2019 (reference: CEPRO 2019-014). No written consent was requested, following French regulations concerning observational studies. However, all participants received written information and provided verbal informed consent. This study is registered with ClinicalTrials.gov under number NCT04133246.

**General MucoPar Design**

MucoPar was a bi-centric study conducted in the Paris region of France. The study had one general design, detailed in our previous article (Jacob et al., in press), and two recruitment conditions. The participants were met either at a focus group session or at a single interview; the two conditions were analyzed separately to produce more in-depth data and because the groups included spouses while the interviews did not. This article presents the results of the focus groups' analysis.

Parents with CF were invited to participate in a two-hour focus group. They were divided into groups according to their lung transplant status, lung bacterial colonization (to avoid contamination between participants with different colonizations), and availability. Their spouses were also invited but were not obliged to participate.

Sessions were to be conducted at CF centers. After the COVID-19 lockdown of spring 2020, ethical authorization was provided to conduct the remaining sessions online. All participants were asked to present themselves and their families and answer four questions: 1. "What is it like being an adult with a chronic disease, CF, since childhood (or since you have been diagnosed)?" 2. "In your experience, what is it like being a parent?" 3. "In your experience, what is it like being a parent with CF?" 4. "Do you have anything to add regarding parenthood with CF that the health professionals should be aware of?" Some questions were more directed to parents with CF, but spouses were invited to contribute to the discussion. All focus group sessions were conducted by the same female researcher (A. J.), who presented herself as a PhD student and a psychologist. Groups were all audio-recorded and transcribed verbatim. No video or notes were taken.

**Analysis of the Focus Groups**

An inductive thematic analysis was conducted with a realist epistemology, following six recommended steps (Braun & Clarke, 2006). Three sessions (around 30% of the content) were coded by two different researchers (A.J. and N.T.) to compare and adjust the thematic grids. As it was expected that CF would permeate many verbatim transcripts, all quotations referring to the disease

that did not reference parenthood or children were separated into a domain called "The Disease." General presentations were also separated. Besides the presentations and the disease, researchers decided on three distinct domains, which were linked to the types of family members: the parent with CF, the spouses, and the children. The first two domains grouped all transcripts of the parents with CF relating to parenthood or their children. Researchers discussed whether or not to group the spouses' transcripts mentioning children with those of the parents with CF. They decided to separate them to highlight the spouses' discourse and to avoid their quotations being eclipsed by the more numerous quotations of parents with CF. The "Spouses" domain was therefore created to group all spouses' transcripts and also those from parents with CF relating to the couple or their spouse.

A provisional grid was then created, in which researchers specified themes and sub-themes (to the 4<sup>th</sup> level), focusing on highlighting the important aspects of participants' discourse when the distinction between themes or between sub-themes was not obvious. After a consensus was reached for all the transcripts, the remaining coding was conducted by N.T., who met regularly with A.J. to discuss the progression of the thematic grid. The analysis was supervised by C.F. Once the coding was completed, A.J. and N.T. went back and forth between the analysis and the transcripts to create the best thematic grid. In terms of saturation, no new themes appeared after the coding of four groups.

## **Results**

### **Characteristics of Participants (113)**

From a list of 232 parents with CF, 52 participated in the study (34 in focus groups, 18 in single interviews). Exclusion criteria and refusals are detailed in our previous article (Jacob et al., in press). Eleven spouses took part to group sessions. Most spouses who did not participate were either working or looking after the children during the sessions; also, some participants did not want their spouses to participate, and some spouses were not willing to join.

Participant recruitment took place between September 2019 and December 2020. Five focus group sessions were conducted at a CF center before the 2020 lockdown. Four sessions were conducted online after September 2020, including two with parents who had had a lung transplant.

Table 1 presents the socio-demographic information of the participants and the characteristics of their children. Table 2 details the medical characteristics of the parents with CF.

### **General Findings of the Thematic Analysis of Content**

In the general analysis, five domains were identified: Personal and Actual Family Presentations, the Disease, Becoming and Being a Parent with CF, the Children, and the Spouses. The domain Becoming and Being a Parent with CF was the most developed by participants (39% of the transcript), followed by the Disease (23%), Children (16%), and Spouses domains (15%). Finally, 3% of the verbatim transcripts were coded as interactions between participants.

To meet the study's aims, this article presents the Becoming and Being a Parent with CF, Children, and Spouses domains. Figure 1 presents their themes and sub-themes in a detailed thematic tree. Distinctions between participants with or without a lung transplant are reported when applicable, and the experiences of the participating spouses are presented separately. Finally, we discuss participant interactions during the focus groups.

### **Parents with CF**

This section compiles the discourse of parents with CF within the three selected domains. Table 3 presents illustrated verbatim quotations.

#### ***Becoming and Being a Parent with CF.***

Within this domain, the theme "becoming a parent" makes up 55% of the transcripts, "being a parent" 40%, and "genetics" 5%. This reflects the importance all participants placed on detailing their journey to parenthood. Many reported the length and the difficulties, particularly those who went through assisted reproductive technology (ART) and the two patients who adopted children after several attempts using ART. Participants described the difficult feelings (sadness, despair, stress, guilt, fear of death) their journey brought, counterbalanced by hope and determination, fueled by their strong desire to have at least one child. However, some participants, particularly three with a lung transplant, spoke about experiencing resignation about not having children. One gave up on having a second child, while others explained that they did not think about having children in the first place

because they were too sick or too aware of their short life expectancy. The latter saw the desire to be a parent emerge because they met someone they wanted to have children with.

Participants expressed good and bad feedback about the healthcare support they had received during their fertility journeys. Disappointment and blame were sometimes directed towards pulmonologists or other doctors who doubted their project (generally for health reasons) but mainly towards ART centers. Parents felt a shared lack of guidance and support in their path to parenthood, which could last years and be grueling. One mother with a lung transplant even said that ART had been harder for her than the transplant surgery. Good feedback was generally related to the support provided by pulmonologists, the CF team, and sometimes the psychologist at the CF center. One participant expressed gratitude for the recommendation he received, while young and not thinking about parenthood, to collect his sperm before the lung transplant surgery.

Participants evoked general representations of parenthood and of their own peculiar form of parenthood living with CF. First, most said how positive parenthood was for them. It was described as "a gift," "joy," "happiness," "a victory," or "a resistance against the disease." Several participants also explained how challenging parenting could be. Some felt they were "diminished parents"; others said parenting was more complicated with CF than without. However, some considered themselves parents like those without a disease, and some even said the disease made them better parents.

Most participants spoke about their daily lives, describing the impact on their family life and how the disease and/or fatigue prevented them from parenting as they wished. This was particularly pronounced for the transplant participants who had received their transplant when they were already parents; they expressed being unable to parent properly before the transplant and/or during the re-education period. Despite the negative impacts of CF, some participants explained how they were trying to maintain a sense of normality, particularly the transplant participants, who more often expressed an eagerness to protect their children from the disease. Some participants also said they enjoyed their children as much as possible. In parallel, participants described their disease management since becoming parents and the strategies they used to cope with the diverse issues CF

creates. Thus, they expressed the importance of anticipation and organization with respect to the family's routines, social support, and/or help from their spouse. Some also explained how they could surpass themselves or look after themselves first to better care for their children.

Besides all the positive aspects of emotions about parenthood, some participants experienced ambivalence (between the joy and the challenges of parenthood), and most experienced negative feelings, such as guilt, fears, worries, or sadness about imposing the disease on their children or leaving them if they were to die. Finally, the three participants who received their transplant while being parents explained that they had reinvested positively in parenthood after the transplant.

Seven groups discussed the genetic aspects of CF linked to parenthood. Participants spoke about genetic screening and/or about what they had transmitted to their children. Six participants expressed guilt about having transmitted a defective gene or feared that their children had CF.

### ***The Children***

In this domain, we observed real concerns about communicating about CF to the children (59% of the transcripts). Most parents described how and when they talk(ed) about CF and why they wished to speak about it or not. All transplant participants spoke with their children about CF, whereas three participants without a transplant did not. Two of them only talked about some visible symptoms and treatments (such as stomach pains or insulin shots), while the other had never told his children, even when they became adults. It appears that transplant participants were more willing to discuss complicated issues, like their own death, and that participants with more visible and/or severe symptoms were more willing to tell the whole truth about the disease. These participants said that their children had no choice but to see things, so they could not avoid explanations. Some participants also wanted to tell the truth anyway. Participants expressed experiencing difficulties with knowing how to explain the disease, particularly to young children or knowing what details should be kept from the children to protect them. Children appeared to be different in relation to their wish to speak about CF, but most of them were described as really wanting to know about the disease or when there was a CF-related problem. Transplant participants reported that their children

had specific questions about the transplant procedure, and young children often had questions about the scars left by the surgery. Several participants expressed a need for communication support, like leaflets or books about children with a parent with CF, not just about people with CF themselves. Some participants recalled meeting their pulmonologist with their children to offer them better or additional information on the disease, which always proved helpful.

Most participants reported on their children's experience of the disease (36% of the transcripts). Many said that their children wanted to participate or be with the parent with CF while they underwent treatment. While some children were not allowed to participate, most had some active or passive involvement, and one teenage boy even asked to try his mother's nasogastric tube. Some participants explained how normal all this was for their children, and that their children therefore did have some sort of normal life.

However, many participants thought that CF negatively impacted their children, mainly because it was complicated to deal with a sick or tired parent as well as the constraints brought by the disease. They also described different emotional difficulties, mainly worries, fears, anxiety, and stress about their CF parent's health; this was expressed slightly more by the transplant participants. Some participants also described particular issues occurring with their children when they had to be hospitalized (more stress for many children, fights at school for one boy). Others described separation difficulties. It was a major issue for one child who suffered intensely because of the separation from his parents during the period of his father's transplant. Of the two other children who had already been born when their parent received the transplant, "it went very well" for one, and the process for the other, a teenager, was facilitated because she was absent on the night of the transplant.

Besides the negative impacts, a dozen participants also said that having a parent with CF could have positive effects on the children. Some explained that their children had more empathy, some said the disease made them stronger and better equipped to face life, while others said CF made their children responsible and independent.

### ***The Spouse and the Couple***

Twenty-four parents with CF spoke about their relationship or their spouse, emphasizing communication around CF, the spouse's support, and the negative impacts of the disease on them as a couple. Hence, some participants explained how their spouses very quickly became informed about CF and also, for two male participants, about their infertility. However, the spouses' families were informed about CF at different points in the relationships, depending on the participants' history. Only two participants mentioned having difficulties speaking about CF with their spouse.

Fifteen participants mentioned support from their spouses. Participants detailed the general support (actual and/or during the journey to parenthood) and logistical help provided, particularly when CF and fatigue prevented them from parenting, and how some found a balance in their relationship. Three participants expressed being grateful for their spouse's presence or help, and three others described feeling reassured to know their spouse would be there for their children if they were to die.

For some participants, CF had a negative impact on the couple and/or the spouses themselves. CF could complicate things between the partners or give participants a bad image of themselves. Three spouses were said to feel stress or fear because of CF, and one participant said his wife could find it difficult that he sometimes was unsupportive of her little troubles.

CF appeared to be part of the couples' histories, particularly for three transplant participants who said that their spouse went through all the hard times with them.

Finally, some participants without a transplant expressed feeling some lack of support and/or presence towards the disease or in terms of parenting. It happened for participants whose spouses seemed not to understand all that CF implies, or when spouses were regularly absent from home because of work, or in specific situations of conflict.

### **The Spouses**

Generally, spouses spoke less than their partners. Three topics were observed in their discourse: their relation to CF, parenthood and CF, and the children. Table 4 presents illustrative verbatim quotations.

***Spouses and CF***

Spouses are confronted with CF as individuals and partners before being parents. First, many spouses said they were informed about their partner's disease very early on in the relationship, and three of them mentioned being surprised or shocked by the announcement. Then, two spouses explained how, in their own family, their partner's CF was dealt with. We observed disparities, as was the case in the CF participants' discourse, with one spouse for whom CF was clearly identified and easily spoken of among family members, while it was taboo in the other spouse's family.

The male spouses and a female spouse expressed how CF and its treatment were their norm or at least were not a problem. However, many spouses mentioned their partner's difficulties due to CF and/or the difficulties they faced together because of CF. Some spouses also said they felt helpless in the face of the disease when it brought big complications.

Eventually, a very few spouses mentioned either their admiration for their partner, their emotion on seeing their partner rediscover basic things after the transplant, or the support they had felt from the healthcare team for them or their partner.

***CF and Parenthood***

Four mothers and two fathers participated in the discussions about the journey to parenthood. They gave details about their psychological and physical experiences of becoming a parent or confirmed what their spouse had said. In particular, mothers who had used ART described their experience, highlighting the length, constraints, and complications of the journey.

Spouses did not discuss the "impact of CF on parenthood" much. No real common discourse appeared; only some isolated difficulties were mentioned. However, a few topics grouped some of the participants. For example, two spouses with babies explained how CF changed their vision of parenthood and taught them to live in the moment.

On the other hand, the fear of genetic transmission was shared by three spouses, who mentioned it as an issue affecting their decision-making about having a child with a CF partner, an issue during the pregnancy, or even an issue months after the child's birth.

Spouses spoke more about their family's daily life. Particularly, eight spouses described trying to adapt as much as possible to CF and its constraints and/or gave details about when they took over for their partner. Some also gave examples of their daily organization, and some explained how their life was normal or that they were trying to maintain as much normality as possible. This corroborates the discourse of parents with CF about their spouse's help. Finally, some spouses mentioned seeking and/or receiving support from outside the family.

### ***The Children***

Six spouses contributed to this sub-theme, usually augmenting their partners' views, with mothers generally being more involved on the subject.

Five spouses, in particular, described the difficulties experienced by their children because of CF (e.g., when the parent was hospitalized, experiencing anxiety and needing reassurance) or explained how CF was the norm for their children and might even be/become a strength for them. Two mothers also added information about the psychological follow-up for their children.

Five spouses expanded upon their partners' comments on communicating about CF. Similar to the CF participants' descriptions, they recounted what they had said to their children and wanted to show them about CF, how and when they spoke about it, the reasons for speaking about it or not, and what the children saw and understood. When mentioning the reasons for speaking about the disease, spouses appeared to be active in making the decision about whether to tell the children or not. Only one mother indicated that she disagreed with her husband about what to say to their daughters out of a desire to protect them.

### **Group Interactions**

In all groups, we mainly observed simple interactions, such as questions asked directly between participants, acquiescence and disagreement, and the expression of similar or different experiences. In some groups, participants also expressed a lot of support for one another (reassurance, help with feeling less guilty, and even offering small tips); for example, Katy (42-year-old mother of one 2.5-year-old boy) who told another mother:

You've been through a very harsh time with your eldest, but it will pass. [...] I really think it's a period, and for him, it's also hard to see his mother being sick.

The researcher did not have to intervene much in the participants' interactions except to make sure the less talkative participants could express themselves and that everyone had said what they wanted to say. Because of the context, participants digressed more or for longer from the questions asked during in-person groups than in the online groups. This sometimes meant that the researcher had to steer participants back to the question at hand when the digressions lasted too long or strayed too far from the topic. Because the participants respected the rules regarding respecting everyone's opinions, the researcher only had to intervene in one situation to remind participants to refrain from judgment.

During the conclusion of the sessions, several participants said they enjoyed participating and speaking with other parents with CF. Some participants also expressed their positive attitude towards the research, such as Daniel (36-year-old father of girls aged 5 and 1.5 years), who said:

I was not here to speak about me, but to help you with your study. [...] I don't need it, but I'm willing to help [...]. And now that I've done it, I realize it felt good to discuss [...] to open myself up and speak with others.

Finally, some parents also expressed the importance of questioning their children on the topic.

## **Discussion**

### **Strengths and Perspectives**

Thanks to the inclusion of various profiles of CF parents and spouses, the MucoPar study confirmed the overall positive aspects of parenthood for CF patients despite the challenges it also brings (Jacob et al., in press) as previously described in other qualitative studies (Barker, Moses, & O'Leary, 2017; Cammidge et al., 2016; Hailey et al., 2019; Jessup et al., 2017). Hence, parenthood appears to be thriving for patients with CF, and our results might be in line with studies that showed that parenthood can be related to increased happiness and a sense of well-being compared to not having children (Nelson et al., 2013). Despite emotional and daily challenges, the biggest distress

expressed by our sample was related to the journey to parenthood—particularly when participants experienced ART—and not parenthood itself. Thus, in line with other research (Kazmerski et al., 2022; Hailey et al., 2019), our results call for better global support from CF health professionals when patients embark on the project of parenthood (information, communication with ART services, mental health screening and support [Quittner et al., 2016] during the process, etc.). In the long run, the inevitable challenges brought by parenthood should not be neglected either (Jacob et al., 2021; Kazmerski et al., 2022), as they can impact the physical and mental health of patients (Jacob et al., 2021).

There is evidently a need for conversations about topics related to parenthood for CF patients (Hailey et al., 2019). The participants' feedback on the study brought out the positive experiences they had to share with other CF parents. Hence, we plea for the development of spaces and/or interventions whereby parents with CF can collectively share their particular experiences of parenthood. Nowadays, online groups can easily be used for this purpose, as telehealth has undergone great developments and has demonstrated its relevance for this fragile population, even with respect to mental health (Verkleij, Georgiopoulos, & Friedman, 2021).

Regarding the experience of parents with a lung transplant, the analysis revealed only a few specificities related mainly to the severity of their symptoms or the transplant surgery. In particular, we observed that there are sensitive periods before and right after the surgery during which all family members would benefit from more support. The family's role and support are general concerns of patients regarding their experiences of the adult transplant care pathway (Pougheon et al., 2023). However, the loss of autonomy before and the separation after the surgery have important impacts on children and both parents (the patient who cannot parent the way they used to and the spouse who must take over) and would benefit from being addressed specifically.

All transplant participants appeared to be more communicative with their children about the complicated issues surrounding CF, including their eventual death, than participants without a transplant. As it was easily discussed by many participants, it would be interesting to explore the

participants' reasons for speaking about CF with their children. This would help us to understand what aids or blocks communication, as our results and others have revealed support needs in terms of communicating about CF to children (Hailey et al., 2019; Jacob et al., in press).

The small number of spouses and the fact that they were less talkative than the CF participants mean that we cannot generalize their discourse. However, it clearly appears that they play an important part in the functioning of the family's daily life by helping their CF partner, adapting to the treatment obligations, and taking over for their partner when needed. Many also play an active role in communicating about CF with their children. Some spouses expressed difficulties they might face, but, unexpectedly, this topic was underdeveloped. We wonder whether this was due to our design and the presence of the CF partner or whether there are other explanatory factors that could reduce the negative feelings or impacts. We notably consider the involvement of a specific form of dyadic coping with the disease (Berg & Upchurch, 2007), where CF may have been part of the couple from the beginning, impacting all the transactions between patient and spouse (Untas et al., 2009). Hence, our results call for more exploration of the experience of the spouses of people with CF and the dynamic within the couple, which will be addressed in the Health Outcomes of Parents with CF study (Kazmerski et al., 2024).

### **Limits and Constraints on Generality**

Our sample comprised patients who were older, healthier, and more educated than the national average of patients with CF (Vaincre la Mucoviscidose, 2023). However, there are no national data on parents with CF, which would have allowed us to see whether the sample was representative of this specific population. We were also only able to conduct two focus groups with six transplant participants. A third analysis could therefore be useful for more precisely cross-checking the data from the group sessions and interviews, during which we met 15 transplant participants (Jacob et al., in press), to enable generalization.

We observed that participants sometimes digressed from the questions during group sessions, particularly during the in-person groups, maybe because our questions were too global. A

few more focused questions, particularly on daily life topics, might have provided more specific information and avoided digressions. However, our grid brought out that the journey to parenthood was generally the hardest part of parenthood for most of the 34 participants.

Finally, this study was conducted just before the generalization of CFTR modulator therapies, which have undoubtedly impacted the parenthood of many participants. Therefore, new studies are needed to observe the changes for people within the context of modulators, and the differences between patients with or without modulators. Thus, a follow-up of our study could be very informative about the impact of modulators on parenthood.

### **Conclusion**

The MucoPar study elucidates important information about the positive but challenging lived experiences of parents with CF. This article is innovative in highlighting the specificities of the lung transplant participants' experience and by giving voice to spouses for the first time. Participants with or without a transplant appear to have similar lived experiences of parenthood, with a few differences, mainly around the time of the transplant surgery. The spouses' experiences are unfortunately not developed enough, but provide a good overview of their involvement and the daily help they provide. These findings support calls for new research to observe the potential changes caused by modulators, confirm results about the lung transplant population, specifically study the spouses of those with CF, and explore the dyadic dynamic within couples.

### References

- Ahern, S., Pourghaderi, A. R., Ruseckaite, R., et al. (2024) *The ACFDR Registry Annual Report, 2023*. (25) School of Public Health and Preventive Medicine. Retrieved September 10, 2024 from [https://www.cysticfibrosis.org.au/wp-content/uploads/2024/07/ACFDR\\_2023\\_Annual-Report.pdf](https://www.cysticfibrosis.org.au/wp-content/uploads/2024/07/ACFDR_2023_Annual-Report.pdf)
- Altschuler, J., & Dale, B. (1999). On being an ill parent. *Clinical Child Psychology and Psychiatry*, 4(1), 23–37. <https://doi.org/10.1177/1359104599004001003>
- Barker, H., Moses, J., & O’Leary, C. (2017). “I’ve got to prioritise”: Being a parent with cystic fibrosis. *Psychology, Health & Medicine*, 22(6), 744–752. <https://doi.org/10.1080/13548506.2016.1233345>
- Berg, C. A., & Upchurch, R. (2007). A developmental-contextual model of couples coping with chronic illness across the adult life span. *Psychological Bulletin*, 133(6), 920–954. <https://doi.org/10.1037/0033-2909.133.6.920>
- Braun, V., & Clarke, V. (2006). Using thematic analysis in psychology. *Qualitative Research in Psychology*, 3(2), 77–101. <https://doi.org/10.1191/1478088706qp063oa>
- Burgel, P.-R., Burnet, E., Regard, L., & Martin, C. (n.d.). The changing epidemiology of cystic fibrosis: the implications for adult care. *Chest*, 163(1), 89–99.
- Cammidge, S. L., Duff, A. J. A., Latchford, G. J., & Etherington, C. (2016). When women with cystic fibrosis become mothers: psychosocial impact and adjustments. *Pulmonary Medicine*, 2016, 1–11. <https://doi.org/10.1155/2016/9458980>
- Candilis-Huisman, D., Dommergues, M., Becerra, L., & Viaux-Savelon, S. (2017). Handicap moteur, maladies rares et maternité: Une revue de la littérature. *Devenir*, 29(4), 307–325. <https://doi.org/10.3917/dev.174.0307>
- Cystic Fibrosis Foundation (2023) *Patient Registry 2022: Annual data report*. Retrieved October 21, 2024, from <file:///C:/Users/doct04/Downloads/2023-Patient-Registry-Annual-Data-Report.pdf>
- Doss, B. D., & Rhoades, G. K. (2017). The transition to parenthood: Impact on couples’ romantic

- relationships. *Current Opinion in Psychology*, 13, 25–28.  
<https://doi.org/10.1016/j.copsyc.2016.04.003>
- Grasemann, H., & Ratjen, F. (2023). Cystic Fibrosis. *New England Journal of Medicine*, 389(18), 1693–1707. <https://doi.org/10.1056/NEJMra2216474>
- Hailey, C. E., Tan, J. W., Dellon, E. P., & Park, E. M. (2019). Pursuing parenthood with cystic fibrosis: Reproductive health and parenting concerns in individuals with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, 54(8), 1225–1233. <https://doi.org/10.1002/ppul.24344>
- Jacob, A., Journiac, J., Fischer, L., Astrologo, L., & Flahault, C. (2021). How do cystic fibrosis patients experience parenthood? A systematic review. *Journal of Health Psychology*, 26(1), 60–81.  
<https://doi.org/10.1177/1359105320916539>
- Jacob, A., Hubert, D., Brain, C., Grenet, D., & Flahault, C., (in press). Exploring the lived experiences of parents living with Cystic Fibrosis: a qualitative study. *Journal of Health Psychology*.
- Jessup, M., Li, A., Fulbrook, P., & Bell, S. C. (2017). The experience of men and women with cystic fibrosis who have become a parent: A qualitative study. *Journal of Clinical Nursing*.  
<https://doi.org/10.1111/jocn.14229>
- Kazmerski, T. M., Jain, R., Lee, M., & Taylor-Cousar, J. L. (2022a). Parenthood impacts short-term health outcomes in people with cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis*, 21(4), 662–668.  
<https://doi.org/10.1016/j.jcf.2022.02.006>
- Kazmerski, T. M., Stransky, O. M., Lee, M., Prangle, K. A., Jain, R., Georgiopoulos, A. M., Shaw, D. S., & Taylor-Cousar, J. (2024). Assessing the health impacts of parenthood on people with cystic fibrosis: The HOPeCF prospective cohort protocol. *BMJ Open Respiratory Research*, 11(1), e002383. <https://doi.org/10.1136/bmjresp-2024-002383>
- Kazmerski, T. M., West, N. E., Jain, R., Uluer, A., Georgiopoulos, A. M., Aitken, M. L., & Taylor-Cousar, J. L. (2022b). Family-building and parenting considerations for people with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, 57(S1). <https://doi.org/10.1002/ppul.25620>

- Keyte, R., Kauser, S., Mantzios, M., & Egan, H. (2023). The psychological implications and health risks of cystic fibrosis pre- and post- CFTR modulator therapy. *Chronic Illness*, 19(3), 539–556. <https://doi.org/10.1177/17423953221099042>
- Nelson, S. K., Kushlev, K., English, T., Dunn, E. W., & Lyubomirsky, S. (2013). In defense of parenthood: children are associated with more joy than misery. *Psychological Science*, 24(1), 3–10. <https://doi.org/10.1177/0956797612447798>
- Page, A., Goldenberg, A., & Matthews, A. L. (2022). Lived experiences of individuals with cystic fibrosis on CFTR-modulators. *BMC Pulmonary Medicine*, 22(1), 42. <https://doi.org/10.1186/s12890-022-01825-2>
- Pougheon Bertrand, D., Fanchini, A., Lombrail, P., Rault, G., Chansard, A., Le Breton, N., Frenod, C., Milon, F., Royer, C. H., Segretain, D., Silber, M., Therouanne, S., Haesebaert, J., Llerena, C., Michel, P., & Reynaud, Q. (2023). A conceptual framework to develop a patient-reported experience questionnaire on the cystic fibrosis journey in France: The ExPaParM collaborative study. *Orphanet Journal of Rare Diseases*, 18(1), 31. <https://doi.org/10.1186/s13023-023-02640-6>
- Quittner, A. L., Abbott, J., Georgiopoulos, A. M., Goldbeck, L., Smith, B., Hempstead, S. E., Marshall, B., Sabadosa, K. A., & Elborn, S. (2016). International Committee on Mental Health in Cystic Fibrosis: Cystic Fibrosis Foundation and European Cystic Fibrosis Society consensus statements for screening and treating depression and anxiety. *Thorax*, 71(1), 26–34. <https://doi.org/10.1136/thoraxjnl-2015-207488>
- Stransky, O. M., Benipal, S., Pam, M., Taylor-Cousar, J. L., Documet, P., & Kazmerski, T. M. (2023). “Find ways to work parenting into cystic fibrosis”: A PhotoVoice exploration of being a parent and having CF. *Pediatric Pulmonology*, 58(5), 1527–1534. <https://doi.org/10.1002/ppul.26355>
- Tong, A., Sainsbury, P., & Craig, J. (2007). Consolidated criteria for reporting qualitative research (COREQ): A 32-item checklist for interviews and focus groups. *International Journal for Quality in Health Care*, 19(6), 349–357. <https://doi.org/10.1093/intqhc/mzm042>

Untas, A., Koleck, M., Rascle, N., & Bruchon-Schweitzer, M. (2012). Du modèle transactionnel à une approche dyadique en psychologie de la santé. *Psychologie Française*, 57(2), 97–110.

<https://doi.org/10.1016/j.psfr.2012.03.004>

Vaincre la Mucoviscidose (2023) *Registre français de la mucoviscidose – Bilan des données 2022*.

Retrieved September 10, 2024, from

[https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre\\_francais\\_mucoviscidose\\_bilan2022.pdf](https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre_francais_mucoviscidose_bilan2022.pdf)

Vallido, T., Wilkes, L., Carter, B., & Jackson, D. (2010). Mothering disrupted by illness: A narrative synthesis of qualitative research. *Journal of Advanced Nursing*, 66(7), 1435–1445.

<https://doi.org/10.1111/j.1365-2648.2010.05350.x>

Verkleij, M., Georgiopoulos, A. M., & Friedman, D. (2021). Development and evaluation of an internet-based cognitive behavioral therapy intervention for anxiety and depression in adults with cystic fibrosis (eHealth CF-CBT): An international collaboration. *Internet Interventions*, 24, 100372. <https://doi.org/10.1016/j.invent.2021.100372>

Zolin, A., Adamoli, A., Bakkeheim, E., Prasad, V., Fox, A., Krasnyk, M., Lorca-Mayor, S., Naehrlich, L., Gkolia, P., Enguídanos-Nieto, A., Kirwan, L., Krivec, U., Zomer, D., & Laidlaw, K., (2024) *ECFSPR Annual Report 2022*. Retrieved October 21, 2024, from

[https://www.ecfs.eu/sites/default/files/Annual%20Report\\_2022\\_ECFSPR\\_20240603.pdf](https://www.ecfs.eu/sites/default/files/Annual%20Report_2022_ECFSPR_20240603.pdf)

**Table 1***Socio-demographic characteristics of participants and information about their children*

| <i>Socio-demographic characteristics</i>                | <i>Parents with CF</i>             |          | <i>Spouses</i>           |          |
|---------------------------------------------------------|------------------------------------|----------|--------------------------|----------|
|                                                         | <i>N or mean</i>                   | <i>%</i> | <i>N or mean</i>         | <i>%</i> |
| Sex                                                     |                                    |          |                          |          |
| Female                                                  |                                    |          |                          |          |
| Male                                                    | 21                                 | 62       | 5                        | 45       |
|                                                         | 13                                 | 38       | 6                        | 55       |
| Mean Age in years (min-max)                             | 44<br>(31–64)                      |          | 42.4<br>(29–62)          |          |
| Marital status                                          |                                    |          |                          |          |
| Living together (married or not)                        | 33                                 | 97       | 11                       | 100      |
| Single                                                  | 1                                  | 3        | -                        | -        |
| Education level - highest diploma                       |                                    |          |                          |          |
| Upper secondary education or less                       | 9                                  | 26.5     | 4                        | 36.5     |
| Undergraduate degree or less                            | 9                                  | 26.5     | 4                        | 36.5     |
| Master's degree or more                                 | 16                                 | 47       | 3                        | 27       |
| Work status                                             |                                    |          |                          |          |
| Full-time job                                           |                                    |          |                          |          |
| Part-time job                                           | 11                                 | 32       | 10                       | 90       |
| Not working                                             | 14                                 | 41       | -                        | -        |
| Retired                                                 | 8                                  | 24       | 1                        | 9        |
|                                                         | 1                                  | 3        | -                        | -        |
| <i>Characteristics of children</i>                      | <i>Children of parents with CF</i> |          | <i>Spouses' children</i> |          |
|                                                         | <i>N or mean</i>                   | <i>%</i> | <i>N or mean</i>         | <i>%</i> |
| Number of children in total                             | 52                                 |          | 14                       |          |
| Number of children per participant (min-max)            | 1.5<br>(1–3)                       |          | 1.3<br>(0–2) *           |          |
| Sex of the children                                     |                                    |          |                          |          |
| Female                                                  | 33                                 | 63       | 10                       | 73       |
| Male                                                    | 19                                 | 37       | 4                        | 27       |
| Mean age of children in years                           | 11.2<br>(0.25–38)                  |          | 8.9<br>(0.5–27)          |          |
| Number of children born by                              |                                    |          |                          |          |
| Spontaneous pregnancies                                 | 12                                 | 23       | 3                        | 21       |
| Pregnancies with assisted reproductive technique (ART)  | 34                                 | 65       | 11                       | 79       |
| Adoptions                                               | 5                                  | 10       | -                        | -        |
| Step-parent considering their partner's child as theirs | 1                                  | 2        | -                        | -        |

\* One spouse was not the other parent of the CF participant's child and had no other children.

Another spouse had a child with a previous partner. Otherwise, spouse participants had the same children as their CF partner.

**Table 2***Medical characteristics of parents with CF – At the time of the group*

| <i>Medical characteristics</i>                                                   | <i>Mean</i> | <i>Minimum -Maximum</i> |
|----------------------------------------------------------------------------------|-------------|-------------------------|
| Body Mass Index (BMI) in kg/m <sup>2</sup>                                       | 22.3        | 18–27.5                 |
| Age at CF diagnosis (years)                                                      | 11.1        | 0–46                    |
| Percentage predicted of Forced Expiratory Volume in 1 second (FEV1) <sup>a</sup> | 69%         | 22%–107%                |
| <i>Number of participants</i>                                                    | <i>n</i>    | <i>%</i>                |
| With a lung transplant                                                           | 6           | 18                      |
| With diabetes                                                                    | 11          | 32                      |
| With pancreatic insufficiency                                                    | 20          | 59                      |
| With ≥ 1 IV antibiotic course during the previous year <sup>b</sup>              | 24          | 70                      |

<sup>a</sup> FEV1: Measure of the participants' breathing capacities<sup>b</sup> From 1 to 6 courses during the previous year (mean=1.9)

Table 3

Verbatim quotations of the parents with CF

| Domains                   | Themes            | 1 <sup>st</sup> Sub-themes                            | 2 <sup>nd</sup> Sub-themes (when applicable)                               | Verbatim quotations                                                                                                                                                                                                                                                                 |
|---------------------------|-------------------|-------------------------------------------------------|----------------------------------------------------------------------------|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Becoming and being parent | Becoming a parent | Experience of the emergence of the parenthood project | Giving up and failures                                                     | <u>M (50) with LT, with one D (5)</u><br><i>I thought I would not have children [...], because of my health I didn't even think about having children.</i>                                                                                                                          |
|                           |                   |                                                       | Desire – Motivation - Determination                                        | <u>M (31), with one S (1)</u><br><i>I explicitly said that I would rather die trying to have a child than not try and regret it all my life.</i>                                                                                                                                    |
|                           |                   | Experience of the journey to parenthood               | Negative experience                                                        | <u>F (55), with two adopted D (19 and 14)</u><br><i>It was a nightmare more than anything... eight years of protocol for nothing.</i>                                                                                                                                               |
|                           | Being parent      | Daily life of a parent with CF**                      | Spend as much time as possible with the children - Enjoy their children*** | <u>F (48), with one S (9,5)</u><br><i>The goal is to be there as long as possible, in order to look after him, and to see him grow. And if by any chance I'm still there and he needs me, to be there for him.</i>                                                                  |
|                           |                   |                                                       | What goes well – The positive aspects***                                   | <u>M (38), with one D (3,5)</u><br><i>Even when I'm on an IV course, I can manage her.</i>                                                                                                                                                                                          |
|                           |                   | Daily life                                            | Negative impact of CF on daily life                                        | <u>F (46) with LT, with twins D (6,5) and one step-D (17)</u><br><i>Those changes, those never-ending changes. Sometimes it goes well, others it doesn't and when it doesn't, it's really hard.</i>                                                                                 |
|                           |                   |                                                       | Take care of oneself to better look after the children***                  | <u>M (31), with two S (14 and 8) and one D (12)</u><br><i>When I'm too tired, I go to the hospital to have a break from my children. Because at home, even if my partner's there, I must look after them. Then, when I'm too tired, I'd rather do my IV course at the hospital.</i> |
|                           |                   | Emotional experience                                  | Ambivalence                                                                | <u>M (44), with one D (9,5)</u><br><i>There's this ambivalence about the guilt, like someone else said, "the Damocles sword" [...] But I think that without my daughter, I would never have fought this hard for myself.</i>                                                        |
|                           |                   |                                                       | Emotional difficulties due to their parenthood                             | <u>M (59), with one D (28)</u><br><i>I don't wanna say I regret it, but sometimes, I feel bad because I haven't given her everything I wanted to.</i>                                                                                                                               |

|              |                                               |                                                 |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                          |
|--------------|-----------------------------------------------|-------------------------------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| The children |                                               |                                                 | <u>M (40), with two D (12 and 9)</u><br><i>Being a parent with CF and being unwell is hard. [...] now CF affects me more, and my children feel it. And that's really painful for me.</i>                                                                                                                                 |
|              |                                               | Reinvestment of parenthood after the transplant | <u>F (45) with LT, with one D (15) and on S (10)</u><br><i>I love to walk to the supermarket with my daughter and to shop for groceries [...] What a pleasure to be able to do it again with her. This rebirth with the children, it definitely allowed me to do things again with the children, and that's awesome!</i> |
|              |                                               | Positive emotions                               | <u>M (31), with a S (7months old)</u><br><i>I'm delighted to be a mother.</i>                                                                                                                                                                                                                                            |
|              | Children's reported experience of the disease | Normal childhood: CF as a normal thing          | <u>M (32), with one S (11.5)</u><br><i>Children see everything, so that's something normal for them. While they grow, they've always seen and lived this way, so I don't think it's shocking for them.</i>                                                                                                               |
|              |                                               | Negative impact of CF                           | <u>F (58), with one D (23)</u><br><i>I do one IV course out of two at the hospital and she visits me then. I don't know, but it might be very difficult for her.</i>                                                                                                                                                     |
|              |                                               | Worries, stress and anxiety                     | <u>F (49) of two adopted D (20 and 10)</u><br><i>When I'm hospitalized, then they do worry a bit.</i>                                                                                                                                                                                                                    |
|              |                                               | Emotional difficulties                          | <u>F (38) with LT, with one S (6.5)</u><br><i>I received the transplant two years ago and we still feel that he fears to be separated from us.</i>                                                                                                                                                                       |
|              |                                               | Other                                           | <u>M (56), with one D (16)</u><br><i>There are depressing moments... she spent, I don't know, like until she was 10, every night she would ask « will you be there tomorrow mommy? »</i>                                                                                                                                 |
|              | Communication about CF                        | Involvement in treatment                        | <u>M (42), with one S (2.5)</u><br><i>He welcomed the nurses, he was happy and wanted to look, [speaks while laughing], he played with the gloves, and participated.</i>                                                                                                                                                 |
|              |                                               | Show and speak about the disease                | <u>M (37), with one S (13)</u><br><i>I've always told him everything</i><br><u>M (51), with one D (21)</u><br><i>We have always told her everything [about CF]. Similarly, when the transplant surgery time had come, we explained it to her.</i>                                                                        |
|              |                                               | Children's questions                            | <u>M (37), with one S (13)</u><br><i>They ask questions. My son already asked me if I was going die because of this disease.</i><br><u>M (50) with LT, with one D (5)</u><br><i>For instance, about the scars on the body, very early there are questions about them.</i>                                                |

|            |                                                    |                                                            |  |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                       |
|------------|----------------------------------------------------|------------------------------------------------------------|--|-----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
|            |                                                    |                                                            |  | <i>Hence the question about the replacement of the lungs comes very early.</i>                                                                                                                                                                                                                                        |
| The spouse | Parent-children relationship                       | Caregiving                                                 |  | <u>M (42), with one S (8)</u><br><i>Sometimes I ask him to push the piston of the insulin pen. I try to empower him a lot, because I'm alone with him. And when he sees I'm sick, breathless, or whatever, he does things to help me.</i>                                                                             |
|            |                                                    |                                                            |  | <u>F (45) with LT, with one D (15) and on S (10)</u><br><i>When we started dating, I told my wife right away [about CF and infertility]. She knew.</i>                                                                                                                                                                |
|            | The couple, the spouse –as seen by the participant | To speak about CF with their spouse and spouse's reactions |  | <u>M (44) with one D (9.5)</u><br><i>We met and two days after he knew that I had CF.</i>                                                                                                                                                                                                                             |
|            |                                                    |                                                            |  | <u>F (36), with two D (5 and 1.5)</u><br><i>I had to say from the beginning: "if you want to be with me, the problem is that it might be complicated to have children."</i>                                                                                                                                           |
|            |                                                    | Spouse's support during access to parenthood               |  | <u>M (31), with one S (1)</u><br><i>My spouse really helped me with this [improving her FEV1]. We motivated one another, we forced ourselves to do sport together, etc.</i>                                                                                                                                           |
|            |                                                    |                                                            |  | <u>M (51) with LT, with one D (21)</u><br><i>Happily, I have him by side and he always supported me. Because sometimes things can be really complicated.</i>                                                                                                                                                          |
|            |                                                    | Daily help and support from the spouse                     |  | <u>M (32), with a S (11.5)</u><br><i>My spouse is really helpful, and when I'm tired he takes over everything.</i>                                                                                                                                                                                                    |
|            |                                                    |                                                            |  | <u>M (37) with LT, with one D (7)</u><br><i>The balance came naturally. We managed ART, the pre-transplant, then the transplant... it all came naturally, we did adapt as things went.</i>                                                                                                                            |
|            |                                                    | Spouse's reassuring presence (anticipation of death)       |  | <u>F (46) with LT, with twins D (6,5) and one step-D (17)</u><br><i>Having a spouse is really reassuring. I tell myself "they won't be on their own [if he dies]".</i>                                                                                                                                                |
|            |                                                    |                                                            |  | <u>M (37), with a D (3months old)</u><br><i>I fear my decline mostly for our intimacy [...] because of the relationship's picture, and the image of the woman I want my partner to see. This image is tarnished from the beginning, which is hard to accept, and it's harder to think it might be more tarnished.</i> |
|            | Negative impact of CF on couple and/or spouse      | Negative impact on the couple                              |  | <u>M (38), with S (2) and one D (1)</u><br><i>I also think he's afraid and he doesn't know how to deal with this disease.</i>                                                                                                                                                                                         |
|            |                                                    | CF, difficult for the spouse                               |  |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                       |

---

|                                                        |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                   |
|--------------------------------------------------------|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Lack of support or presence from the spouse- conflicts | <p><u>F (63), with one D (34) and two S (33 and 30)</u><br/> <i>There's an ongoing conflict with my wife who is against any revelation [about CF and ART]. [...] it's been an unbearable debate for 30 years.</i></p> <p><u>M (36), with one S (4)</u><br/> <i>I think my partner does not fully understand all the disease dimensions [...] and sometimes he says things like: "it's not that bad if you skip your aerosol for one day".</i></p> |
|--------------------------------------------------------|---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|

---

*Note.* Abbreviations in the column of verbatim quotations provide quick information about the parents with CF.

Legend: *M*: mother – *F*: father – *LT*: lung transplant – (*Number*): age in years, (except specified exceptions). For

example: "*M (37) with LT, with two D (10 and 5) and one son (2)*" stands for: "Mother, aged 37 years, with a lung-transplant, with two daughters aged 10 and 5 years and one son aged 2 years".

\*\* Second sub-themes in the column of first sub-themes

\*\*\*Third sub-themes in the column of second sub-themes

---

Table 4

Verbatim quotations of the spouse participants

| 1 <sup>st</sup> Sub-theme | 2 <sup>nd</sup> Sub-theme                                | 3 <sup>rd</sup> Sub-theme (when applicable) | Verbatim quotations                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                          |
|---------------------------|----------------------------------------------------------|---------------------------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| CF and parenthood         | Psychological and physical experience of becoming parent |                                             | <u>M (36), with two D (5 and 1,5)</u><br><i>We're really poorly informed about ART, where to go and what to do. That's quite hard, and it is still very taboo.</i>                                                                                                                                                                                           |
|                           |                                                          |                                             | <u>M (43), with two D (13 and 8)</u><br><i>Clearly, the full hormonal treatment is not easy.</i>                                                                                                                                                                                                                                                             |
|                           | Daily life                                               | Living a normal life                        | <u>F (52), with one D (21)</u><br><i>I acted like we were a normal family [...]. Sometimes she couldn't do things, but we always tried to act like a normal family.</i>                                                                                                                                                                                      |
|                           |                                                          | Support from others                         | <u>M (41), with one S (9,5)</u><br><i>I seek advice from our friends who have boys. When I panic, "what should I do?", I have a friend whom I regularly ask about how she deals with things.</i>                                                                                                                                                             |
|                           |                                                          | Take over children in daily life            | <u>F (32), with one S (1)</u><br><i>I look after him [his son] on waking because she goes to the physio at 8:30. I'm the one who wakes him up, changes him, brings him to the daycare. And the same in the evenings: shower, supper, bedtime... We need to distribute the chores, and discuss it, and organize. Once the organization is good, it works.</i> |
|                           |                                                          | Daily life organization                     |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                                              |
|                           |                                                          | To adapt to the other's rhythm              | <u>Step-F (32), with one step-D (37)</u><br><i>I try to help her with many things. [...] And if I can keep helping her, well I'll try, even more now that she's not very well.</i>                                                                                                                                                                           |
|                           | Impact of CF on parenthood                               | Fear of transmission                        | <u>F (52), with one D (21)</u><br><i>At first there's always this little fear. [...] and over time, because we see that everything goes well, and they confirm that there's no risk, then we breathe and enjoy. But the doubts prevented us from enjoying the first months.</i>                                                                              |
|                           |                                                          | Changed vision of parenthood                | <u>F (32), with one S (7months old)</u><br><i>Like someone else said, it [parenting with someone who has CF] allows me to live day by day.</i>                                                                                                                                                                                                               |
|                           |                                                          | An additional responsibility                | <u>M (29), with one D (10 months old)</u><br><i>I tell myself that I can't (laughs), I can't fail and I always have to be there. It's classic motherhood, except for this kind of burden on my shoulders.</i>                                                                                                                                                |
|                           |                                                          | Difficulties                                | <u>F (50), with one D (27) and one S (13)</u><br><i>Just having CF is already tiring. To deal with the treatments and all this, it's draining. And on top of that having children... I had to, well, she [his wife] couldn't do it anymore at night.</i>                                                                                                     |
| The children              | Experience of the disease                                |                                             | <u>M (46), with twins D (11)</u><br><i>We had to explain that when you go to the hospital, most of the time you're cured by the time you come out. You don't come out dead. Both things got quite mixed up.</i>                                                                                                                                              |

|                    |                                     |                                      |                                                                                                                                                                                                                                                                                                                    |
|--------------------|-------------------------------------|--------------------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| The spouses and CF | Psychological follow-up             |                                      | <u>M (41), with one S (9,5)</u><br><i>"There's a second appointment in two weeks. We are doing this, just to try to ease his mind a bit."</i>                                                                                                                                                                      |
|                    | Speaking about CF to the children   | Reasons and moment to speak about it | <u>F (50) with one D (27) and one S (13)</u><br><i>It's part of his life. It concerns him as well, so we estimated that well...to not hide it.</i><br><u>F (32), with one S (1)</u><br><i>We'll have to talk about it quite early on to make the boy understand and adapt.</i>                                     |
|                    |                                     | How to speak about CF                | <u>M (46), with twins D (11)</u><br><i>We don't have the same vision of what to say. He's affected by not being told things about his disease, and I, I think that we should say things, but maybe not start by throwing out life expectancy numbers.</i>                                                          |
|                    | Knowing about the disease           | -                                    | <u>F (32), with one S (7months old)</u><br><i>I was informed very quickly by [name of the partner] about her disease.</i>                                                                                                                                                                                          |
|                    |                                     | Shock of the announcement            | <u>F (43), with one D (9)</u><br><i>I've been working in the medical field for 20 years now. So, I knew CF only from a theoretical perspective. And like [name of another spouse] said, we understand when we see. And when she told me she was sick, it was a shock.</i>                                          |
|                    | Difficulties due to the disease     |                                      | <u>M (29), with one D (10 months old)</u><br><i>It was extremely hard for me the first times I came with [name of the partner] to the medical follow-up. I think it made the thing very real. And by the way, I think it's [name of the pulmonologist] who recommended I see the psychologist at the center.</i>   |
|                    | Easier daily life after transplant  |                                      | <u>F (52), with one D (21)</u><br><i>For us it's weird because it's basic, it's normal. But you [addressing to the transplanted participants], you discover things for the first time. It's... I take my hat off to you!</i>                                                                                       |
|                    | CF a normality                      |                                      | <u>F (43), with one D (9)</u><br><i>The courses, the treatments, the follow-ups, the physio, it's part of the life. It might be shocking, but for me it's the norm. There's nothing... it's like this.</i>                                                                                                         |
|                    | Speaking about CF with their family |                                      | <u>F (50), with one D (27) (from previous union) and one S (13)</u><br><i>We told them right away. Because once, during a family meeting, the nurse came home and they were asking questions. So, I explained what she had. It stopped the questions and we're not bothered anymore. That is how we proceeded.</i> |

Note. Abbreviations in the column of verbatim quotations provide quick information on the spouses.

Legend: M: mother – F: father – (Number): age in years, (except specified exceptions). For example: "M (37), with one D (10) and one son (2)" stands for: "Mother, aged 37 years, with one daughter aged 10 years and one son aged 2 years".



## Reporting Checklist

### COREQ (CONsolidated criteria for REporting Qualitative research) Checklist

A checklist of items that should be included in reports of qualitative research. You must report the page number in your manuscript where you consider each of the items listed in this checklist. If you have not included this information, either revise your manuscript accordingly before submitting or note N/A.

| Topic                                          | Item No. | Guide Questions/Description                                                                                                                              | Reported on Page No. |
|------------------------------------------------|----------|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|----------------------|
| <b>Domain 1: Research team and reflexivity</b> |          |                                                                                                                                                          |                      |
| <i>Personal characteristics</i>                |          |                                                                                                                                                          |                      |
| Interviewer/facilitator                        | 1        | Which author/s conducted the interview or focus group?                                                                                                   | p5                   |
| Credentials                                    | 2        | What were the researcher's credentials? E.g. PhD, MD                                                                                                     | p4                   |
| Occupation                                     | 3        | What was their occupation at the time of the study?                                                                                                      | p4 and 5             |
| Gender                                         | 4        | Was the researcher male or female?                                                                                                                       | p5                   |
| Experience and training                        | 5        | What experience or training did the researcher have?                                                                                                     | p4                   |
| <i>Relationship with participants</i>          |          |                                                                                                                                                          |                      |
| Relationship established                       | 6        | Was a relationship established prior to study commencement?                                                                                              | p4                   |
| Participant knowledge of the interviewer       | 7        | What did the participants know about the researcher? e.g. personal goals, reasons for doing the research                                                 | p5                   |
| Interviewer characteristics                    | 8        | What characteristics were reported about the interviewer/facilitator? e.g. Bias, assumptions, reasons and interests in the research topic                | p4-5                 |
| <b>Domain 2: Study design</b>                  |          |                                                                                                                                                          |                      |
| <i>Theoretical framework</i>                   |          |                                                                                                                                                          |                      |
| Methodological orientation and Theory          | 9        | What methodological orientation was stated to underpin the study? e.g. grounded theory, discourse analysis, ethnography, phenomenology, content analysis | p4-6                 |
| <i>Participant selection</i>                   |          |                                                                                                                                                          |                      |
| Sampling                                       | 10       | How were participants selected? e.g. purposive, convenience, consecutive, snowball                                                                       | p6 + other article   |
| Method of approach                             | 11       | How were participants approached? e.g. face-to-face, telephone, mail, email                                                                              | + other article      |
| Sample size                                    | 12       | How many participants were in the study?                                                                                                                 | p6                   |
| Non-participation                              | 13       | How many people refused to participate or dropped out? Reasons?                                                                                          | other article        |
| <i>Setting</i>                                 |          |                                                                                                                                                          |                      |
| Setting of data collection                     | 14       | Where was the data collected? e.g. home, clinic, workplace                                                                                               | p6 + other article   |
| Presence of non-participants                   | 15       | Was anyone else present besides the participants and researchers?                                                                                        | p5                   |
| Description of sample                          | 16       | What are the important characteristics of the sample? e.g. demographic data, date                                                                        | p7, 22 and 23        |
| <i>Data collection</i>                         |          |                                                                                                                                                          |                      |
| Interview guide                                | 17       | Were questions, prompts, guides provided by the authors? Was it pilot tested?                                                                            | p5 + other article   |
| Repeat interviews                              | 18       | Were repeat interviews carried out? If yes, how many?                                                                                                    | No: not specified    |
| Audio/visual recording                         | 19       | Did the research use audio or visual recording to collect the data?                                                                                      | p5                   |
| Field notes                                    | 20       | Were field notes made during and/or after the interview or focus group?                                                                                  | p5                   |
| Duration                                       | 21       | What was the duration of the interviews or focus group?                                                                                                  | p5                   |
| Data saturation                                | 22       | Was data saturation discussed?                                                                                                                           | p6                   |
| Transcripts returned                           | 23       | Were transcripts returned to participants for comment and/or                                                                                             | No: not specified    |

| Topic                                  | Item No. | Guide Questions/Description                                                                                                        | Reported on Page No. |
|----------------------------------------|----------|------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|----------------------|
|                                        |          | correction?                                                                                                                        |                      |
| <b>Domain 3: analysis and findings</b> |          |                                                                                                                                    |                      |
| <i>Data analysis</i>                   |          |                                                                                                                                    |                      |
| Number of data coders                  | 24       | How many data coders coded the data?                                                                                               | p4 and 6             |
| Description of the coding tree         | 25       | Did authors provide a description of the coding tree?                                                                              | p7 + Fig 1 p30       |
| Derivation of themes                   | 26       | Were themes identified in advance or derived from the data?                                                                        | p6                   |
| Software                               | 27       | What software, if applicable, was used to manage the data?                                                                         | p4                   |
| Participant checking                   | 28       | Did participants provide feedback on the findings?                                                                                 | No: not specified    |
| <i>Reporting</i>                       |          |                                                                                                                                    |                      |
| Quotations presented                   | 29       | Were participant quotations presented to illustrate the themes/findings?<br>Was each quotation identified? e.g. participant number | p7-14                |
| Data and findings consistent           | 30       | Was there consistency between the data presented and the findings?                                                                 | p7-17                |
| Clarity of major themes                | 31       | Were major themes clearly presented in the findings?                                                                               | p7-14                |
| Clarity of minor themes                | 32       | Is there a description of diverse cases or discussion of minor themes?                                                             | p7-14                |

Developed from: Tong A, Sainsbury P, Craig J. Consolidated criteria for reporting qualitative research (COREQ): a 32-item checklist for interviews and focus groups. *International Journal for Quality in Health Care*. 2007. Volume 19, Number 6: pp. 349 – 357

Once you have completed this checklist, please save a copy and upload it as part of your submission. DO NOT include this checklist as part of the main manuscript document. It must be uploaded as a separate file.

### 3) Synthèse des articles 2 et 3 – Résultats MucoPar

#### a) Echantillon global

Avant de revenir sur l'ensemble de nos résultats, il nous semble nécessaire de présenter l'échantillon général de l'étude MucoPar, en rassemblant les données sur les participant.e.s des deux conditions de recrutement. Le Tableau 14 rassemble ainsi les caractéristiques socio-démographiques de tou.te.s les participant.e.s (patient.e.s et conjoint.e.s), le Tableau 15 présente les informations sur leurs enfants et le Tableau 16 rassemble les caractéristiques médicales des patient.e.s inclus.e.s.

**Tableau 14.**

*Caractéristiques socio-démographiques des participant.e.s et information sur leurs enfants.*

| <i>Données socio-démographiques</i>           | <i>Patient.e.s (n=52)</i> |          | <i>Conjoint.e.s (n=11)</i> |          |
|-----------------------------------------------|---------------------------|----------|----------------------------|----------|
|                                               | <i>N ou moyenne</i>       | <i>%</i> | <i>N ou moyenne</i>        | <i>%</i> |
| Sexe                                          |                           |          |                            |          |
| Féminin                                       | 33                        | 63       | 5                          | 45       |
| Masculin                                      | 19                        | 37       | 6                          | 55       |
| Age moyen en années (min-max)                 | 44<br>(28–65)             |          | 42.4<br>(29–62)            |          |
| Statut Marital                                |                           |          |                            |          |
| En couple (mariage, pacs, concubinage)        | 50                        | 96       | 11                         | 100      |
| Célibataire                                   | 2                         | 4        | -                          | -        |
| Plus haut niveau de diplôme obtenu            |                           |          |                            |          |
| Niveau bac ou moins                           | 15                        | 29       | 4                          | 36.5     |
| Entre bac +2 et bac +4                        | 16                        | 31       | 4                          | 36.5     |
| Master ou plus                                | 21                        | 40       | 3                          | 27       |
| Emploi                                        |                           |          |                            |          |
| Travail à temps-complet                       | 15                        | 29       | 10                         | 90       |
| Travail à temps partiel                       | 22                        | 42       | -                          | -        |
| Sans travail (arrêt maladie, parent au foyer) | 13                        | 25       | -                          | -        |
| Retraité.e                                    | 2                         | 4        | 1                          | 9        |

**Tableau 15.***Informations sur les enfants des participant.e.s.*

| <i>Caractéristiques des enfants</i>                               | <i>Enfants des patient.e.s</i> |          | <i>Enfants des conjoint.e.s</i> |          |
|-------------------------------------------------------------------|--------------------------------|----------|---------------------------------|----------|
|                                                                   | <i>N ou moyenne</i>            | <i>%</i> | <i>N ou moyenne</i>             | <i>%</i> |
| Nombre total d'enfants                                            | 76*                            |          | 14*                             |          |
| Nombre d'enfants par participant.e (min-max)                      | 1.46<br>(1–4)                  |          | 1.3<br>(0–2) **                 |          |
| Sexe des enfants                                                  |                                |          |                                 |          |
| Féminin                                                           | 47                             | 62       | 10                              | 73       |
| Masculin                                                          | 29                             | 38       | 4                               | 27       |
| Age moyen des enfants en années (min-max)                         | 11.8<br>(0.25 –38)             |          | 8.9<br>(0.5–38)                 |          |
| Nombre d'enfants                                                  |                                |          |                                 |          |
| Né.e.s de grossesses spontanées                                   | 19                             | 25       | 2                               | 18       |
| Né.e.s grâce à l'AMP                                              | 44                             | 58       | 11                              | 79       |
| Adopté.e.s                                                        | 12                             | 16       | -                               | -        |
| Beau-parent considérant l'enfant de son partenaire comme le sien. | 1                              | 1        | 1                               | -        |

*Note.*

\* Nous avons comptabilisé les enfants pour lesquels le participant est beau-parent, dans les situations où ce dernier est impliqué depuis plusieurs années dans le quotidien des enfants en question. Cela concerne deux situations : un patient et un conjoint.

\*\* Un des conjoints n'est pas le parent de l'enfant de sa partenaire, et n'a pas d'autre enfant. Deux conjoints ont eu un enfant d'une union précédant celle avec leur partenaire atteinte de mucoviscidose. Sinon les conjoint.e.s ont les mêmes enfants que les patient.e.s.

**Tableau 16.***Caractéristiques médicales des patient.e.s inclus.e.s.*

| <i>Caractéristiques médicales</i>                                | <i>Moyenne</i> | <i>Minimum – Maximum</i> |
|------------------------------------------------------------------|----------------|--------------------------|
| Indice de masse corporelle (IMC) en kg/m <sup>2</sup>            | 21.9           | 16.9 – 29.4              |
| Age au diagnostic (en années)                                    | 11             | 0 – 59                   |
| Volume Expiratoire Maximal par Seconde (VEMS)                    | 66%            | 22% – 115%               |
| <i>Nombre de patient.e.s (Total n = 52)</i>                      | <i>n</i>       | <i>%</i>                 |
| Avec une greffe pulmonaire                                       | 15             | 29                       |
| Avec diabète                                                     | 18             | 35                       |
| Avec insuffisance pancréatique exocrine (IPE)                    | 35             | 67                       |
| Ayant reçu au moins une cure antibiotique IV au cours de l'année | 40             | 77                       |

## **b) Résultats – Ce qu'il faut retenir**

Nous avons conduit deux analyses thématiques de contenu inductives, en utilisant une épistémologie réaliste et une classification sémantique des thèmes, en nous appuyant sur les recommandations de Braun et Clarke (2006).

Dans les deux analyses thématiques nous avons considéré que les grands thèmes « présentation et histoire personnelle » et « maladie », contenaient des verbatims qui ne contribuaient pas à répondre à notre question de recherche. Ceux-ci donnaient des informations contextuelles très intéressantes, notamment sur l'histoire de la maladie, ou la relation rapportée des conjoint.e.s à la maladie (sans lien avec la parentalité), mais n'apportaient pas d'éléments en lien avec la parentalité ou les enfants des patient.e.s. Ainsi, ils n'ont pas fait l'objet d'une présentation détaillée.

A l'intérieur des grands thèmes présentés pour répondre à notre problématique, les deux analyses nous ont conduit à proposer une distinction des thèmes en fonction des membres de la famille auxquels ils faisaient référence. Cela nous a permis de distinguer ce qui relevait de l'expérience propre des patient.e.s, de ce qu'ils.elles rapportaient sur celles de leurs enfants et de leurs conjoint.e.s. Dans l'analyse des focus groupes, nous avons pu rassembler les propos sur les conjoint.e.s avec les propres propos des conjoint.e.s.

Concernant l'expérience des patient.e.s, les deux analyses ont permis d'observer deux grands thèmes : « devenir parent » et « être parent ». Le premier thème regroupe les mêmes types de sous-thèmes dans les deux analyses et a permis de documenter avec précision l'accès à la parentalité des participant.e.s et ce, dans des contextes très variés (notamment en lien avec le mode de procréation/l'adoption et le contexte de l'arrivée de l'enfant). Ce thème a énormément mobilisé les participant.e.s pendant les groupes comme les entretiens. Il en ressort que c'est une des étapes les plus délicates et difficiles dans la parentalité des parents atteints de mucoviscidose, particulièrement lorsqu'il y a recours à l'AMP ou l'adoption. Dans l'ensemble, les patient.e.s décrivent du soutien de la part des équipes des CRCM, mais se montrent très critiques envers les services d'AMP. Les participant.e.s appellent à un meilleur accompagnement global des projets de parentalité, et à plus de lien entre les CRCM et les équipes d'AMP.

Le thème « être parent » a en revanche été opérationnalisé différemment dans les deux analyses. Dans l'analyse des entretiens, il y a eu séparation entre ce qui était plutôt expérientiel (émotions, représentations, relations avec l'enfant, projection dans le futur

notamment) de ce qui était plutôt pragmatique (description du quotidien, de l'impact de la maladie et ajustements), alors que ces notions ont été regroupées dans l'analyse des focus groupes. Néanmoins les analyses font ressortir des sous-thèmes très similaires, et l'analyse des entretiens a permis de rentrer plus dans le détail des aspects émotionnels. On observe ainsi un vécu très positif de la parentalité, partagés par tou.te.s. les participant.e.s. C'est « une joie », « une chance », « une victoire », « une revanche sur la maladie » etc. Le lexique reflète l'importance que revêtent leur parentalité et leur(s) enfant(s). Ces émotions positives sont néanmoins contrebalancées chez tous les participant.e.s par des émotions négatives : grande culpabilité, inquiétude et tristesse face à l'impact de la maladie sur les enfants, frustration de ne pas pouvoir faire ce qu'ils.elles voudraient en tant que parent, pression à faire le mieux possible et pour certains, notamment les greffés, peur de mourir trop tôt dans la vie de leur enfant. On observe également de l'ambivalence concernant la parentalité. Les enfants sont une grande motivation à rester en bonne santé et à bien suivre les traitements, mais être parent est aussi à l'origine de fatigue, de maladies (virus), voire de dégradations de l'état de santé. Les parents se sentent globalement des parents comme les autres, même s'ils.elles concèdent qu'être parent avec la mucoviscidose est plus difficile. Enfin, les participant.e.s ayant été greffé.e.s alors qu'ils.elles étaient déjà parents, rapportent leur bonheur de pouvoir réinvestir leur rôle après l'opération.

Concernant la vie quotidienne, les deux analyses font ressortir que l'impact négatif de la maladie s'exprime généralement en termes d'incapacité du parent à pouvoir faire certaines choses à cause de leur manque de souffle ou de la fatigue, des besoins de repos ou des soins. Les patient.e.s greffé.e.s après être devenu.e.s parents, rapportent à quel point la maladie a pu les empêcher d'assumer leur rôle de parent avant la transplantation. En termes d'ajustement, la question de l'organisation du quotidien est centrale. Les stratégies d'ajustement sont en premier lieu tourné vers le problème. Ainsi, les familles ont généralement une organisation précise qui leur permet d'assurer à la fois les traitements et de répondre aux besoins de l'enfant et certains choix de vie sont faits en fonction de la maladie (travail, lieu d'habitation). La plupart des parents rapportent bénéficier de soutien social, notamment de la part des conjoint.e.s, mais également des grands-parents ou d'ami.e.s. De nombreux parents n'hésitent également pas à impliquer les enfants dans les traitements.

Ce dernier point fait le pont avec le grand thème « enfants » des focus groupes » et le thème « interactions entre la mucoviscidose et la vie des enfants » des entretiens. Dans les

deux analyses, on observe que plusieurs enfants participent et souhaitent être impliqués dans les soins de leur parent malade. Les parents rapportent des questionnements sur quoi dire de la maladie et comment dire, et ce qu'ils.elles ont déjà pu verbaliser. Les parents les plus atteints sont généralement ceux ayant donné le plus d'information à leurs enfants. Les parents rapportent que la maladie a une incidence émotionnelle négative sur leurs enfants, stress et inquiétude concernant la santé du parent malade étant très souvent mentionnés. Néanmoins, ils.elles sont plusieurs à relever également les impacts positifs de la maladie qui rend les enfants plus autonomes, responsabilisés, plus forts et plus empathiques que les autres enfants de leurs âges.

En termes administratif et financier, l'analyse des entretiens nous a permis d'évoquer la difficulté d'accès à la propriété des patient.e.s. Cet aspect a également été discuté dans certains groupes, bien que nous n'ayons pas pu en rendre compte dans notre article, et était une thématique qui tenait à cœur à plusieurs participant.e.s

Enfin la question du couple et des conjoint.e.s a été abordée différemment dans les deux analyses. Dans celle des entretiens, les verbatims ont permis de préciser comment les parents se répartissent les tâches familiales, comment les conjoint.e.s apportent du soutien (durant l'AMP, puis pour gérer la maladie et les enfants), et peuvent faire plus que le patient.e.s au quotidien, voire tout prendre en charge lorsque le/la patient.e est trop fatigué.e, malade ou hospitalisé.e. L'analyse des groupes a rapporté sensiblement les mêmes éléments, et a permis de détailler un peu plus l'impact de la maladie sur le couple et des aspects pouvant relever du coping dyadique (communication, gestion du stress notamment). Dans les deux analyses, certain.e.s patient.e.s non greffé.e.s, particulièrement des femmes, font également état du manque de soutien de la part de leur conjoint ou de leur charge de travail plus importante en termes de tâches familiales.

Quant aux conjoint.e.s, ils.elles ont pu ajouter des détails au récit des patient.e.s, particulièrement sur l'accès à la parentalité, l'organisation au quotidien, la gestion en couple de la maladie, sur l'expérience des enfants et sur ce qui leur est dit au sujet de la maladie. Nous déplorons le faible nombre de conjoint.e.s dans notre étude et nous avons constaté que notre guide d'entretien était mal adapté pour leur laisser autant de place qu'aux patient.e.s.

Enfin, l'analyse des groupes a fait ressortir certains types d'interactions entre les participant.e.s pendant les groupes. Dans tous les groupes, les participant.e.s n'ont pas hésité à se questionner directement, et à échanger des points de vue variés et à parfois être en

désaccord. En parallèle, dans certains groupes, certain.e.s participant.e.s ont pu se montrer soutenant.e.s envers d'autres participant.e.s et ce via des conseils ou de la validation émotionnelle. Enfin, les groupes ont souvent reçu un accueil positif, notamment car les patient.e.s ont apprécié échanger avec d'autres parents malades.

### **c) Discussion, limites et perspectives**

En se complétant, nos deux analyses offrent une présentation détaillée de l'expérience des parents ayant la mucoviscidose. Elles rapportent des résultats similaires à ceux des précédentes études qualitatives, tout en relevant certaines spécificités propres à notre échantillon et au contexte français (AMP largement remboursée favorisant l'accès à la parentalité des patient.e.s, liens entre parentalité et accès à la propriété) et à la greffe pulmonaire (notamment différence de communication et d'expérience). Elles confirment notamment que les patient.e.s vivent globalement de façon très positive leur parentalité, malgré les nombreux défis auxquels ils.elles font face sur le plan logistique et émotionnel.

En termes méthodologiques, notre protocole n'a pas permis d'adresser autant que d'autres études les questions du quotidien et de l'adhérence thérapeutique. Néanmoins cela a contribué à faire émerger d'autres aspects. La densité de nos corpus ne nous a pas permis de faire ressortir aussi nettement que nous l'aurions voulu les différences entre patient.e.s greffé.e.s et non greffé.e.s. De plus, notre méthode n'a pas permis d'accueillir autant que nous l'aurions souhaité le discours des conjoint.e.s. Cependant, notre étude reste, à notre connaissance, la première au monde à leur avoir donné la parole sur ce sujet et a ainsi permis de faire ressortir certains éléments, notamment leur implication compensatrice au quotidien, ou leur implication dans la gestion de la maladie et la communication à son sujet avec les enfants. Ces résultats appellent de nouvelles explorations dédiées aux patient.e.s greffé.e.s et aux conjoint.e.s.

La principale limite de notre étude est qu'elle a été conduite juste avant la généralisation des modulateurs CFTR. Même si quelques rares participant.e.s en bénéficiaient déjà via des essais cliniques, la grande majorité de notre échantillon n'y a eu accès qu'après. Ainsi leur quotidien a pu évoluer depuis, et l'expérience décrite dans notre étude est probablement plus représentatives de celle des patient.e.s ne bénéficiant pas des modulateurs CFTR.

## C. Résultats préliminaires de l'étude MucoKids

L'article que nous souhaitons proposer pour l'étude MucoKids est en cours de rédaction. Ainsi, nous présentons les résultats de cette étude sous un format classique : état de l'art en 2020 (correspond à l'état fait lors de la rédaction du protocole, celui-ci sera réactualisé dans la rédaction de l'article), méthodologie, résultats préliminaires (ces deux parties étant présentées sous un format article) et éléments de discussion.

L'article sera finalisé et traduit avant fin 2025 pour être publié en anglais, si possible dans une revue médicale sur les troubles respiratoires. Une bourse « Animations Scientifiques » de la Commission Recherche de la Faculté Sciences Humaines Paris Cité a d'ailleurs été obtenue pour financer la traduction dans le courant de l'année 2025.

### I. Enfants et maladies parentales - Etat de la littérature en 2019-2020

Des études ont constaté que la maladie d'un parent pouvait avoir différents impacts sur les enfants au niveau émotionnel et comportemental (Chen, 2017; Oppenheim-Gluckman et al., 2007; Razaz et al., 2014) ou sur leur éducation en générant plus d'absentéisme et de moins bonnes performances scolaires (Chen, 2016).

Une revue systématique de littérature a relevé des effets négatifs et positifs sur les enfants et adolescents de parents atteints de SEP (Razaz et al., 2014). Sont notamment cités les effets négatifs suivants : problèmes émotionnels (colère, tristesse) et comportementaux, corrélés au fonctionnement familial et à la dépression maternelle, plus de somatisations, plus de tensions familiales, moins de temps pour être avec ses amis, inquiétude pour le futur, une vie moins satisfaisante et, pour les adolescents ayant le plus de responsabilités familiales, plus de stress et moins de relations sociales. En parallèle les ajustements positifs pour les enfants et les adolescents sont : de meilleures compétences personnelles, plus d'optimisme, plus d'empathie envers les autres, une meilleure spiritualité, une bonne qualité de vie et plus de responsabilités (vécues positivement). Cette revue met en avant un manque de consensus entre les articles, dans un domaine où il existe encore peu d'études.

Ce constat se retrouve dans une autre revue de littérature portant sur plusieurs maladies parentales (Oppenheim-Gluckman et al., 2007). Les résultats sont variables d'une étude à l'autre, ne serait-ce que parce que les maladies étudiées sont différentes, que l'âge des

enfants varie et que les études s'intéressent à des aspects (trop) variés pour présenter des résultats homogènes. Cependant, les auteurs de cette revue soulignent que les difficultés des adolescents ne sont pas liées à la gravité de la maladie, mais au fonctionnement familial antérieur. La qualité de celui-ci apparaît comme un facteur protecteur, quand le dysfonctionnement familial est un facteur de risque face à la maladie du parent (Oppenheim-Gluckman et al., 2007).

Cette observation est également faite dans une autre revue de littérature, portant sur les effets de la maladie chronique parentale sur le fonctionnement psychosocial et éducatif des enfants (Chen, 2017) et dans une étude de l'impact des cancers parentaux (Huizinga et al., 2011). La maladie parentale est un réel défi pour les familles lorsqu'elle se déclare dans les jeunes années de l'enfant. Elle va forcément impacter la cellule familiale qui réagira plus ou moins bien en fonction de son style de communication, son adaptabilité, sa cohésion, etc. (Chen, 2017). Les enfants sont impactés différemment en fonction de ces paramètres, ainsi que ceux concernant le type de maladie et la présence ou non de douleurs. En effet, selon une étude comparative (Evans et al., 2006), les mères douloureuses semblent plus susceptibles de s'engager dans des stratégies parentales ayant des impacts négatifs pour les enfants sur le plan émotionnel et comportemental, que les mères non douloureuses.

En parallèle, plusieurs études n'observent pas de différence sur différents indicateurs entre les enfants de parents malades et des enfants contrôles (Alexander et al., 2002; Razaz et al., 2014). Par exemple, dans une étude approfondie de l'impact du handicap des mères avec traumatismes médullaires, les auteurs n'observent pas de différence entre les enfants de celles-ci, peu importe leur âge, et ceux de leurs contrôles en termes : d'ajustements individuels, d'attitude envers leurs parents, d'estime de soi et de fonctionnement familial (Alexander et al., 2002). Dans cette étude, un des critères d'inclusion est que la mère ait déclaré ce handicap au plus tard avant les deux ans de l'enfant. Ces mères se rapprochent en cela des parents atteints de mucoviscidose qui sont malades avant l'arrivée de leur enfant. En revanche les pathologies sont différentes avec un suivi qui est plus important au début pour les traumatisées médullaires et qui a tendance à diminuer, alors que la prise en charge des parents atteints de mucoviscidose reste lourde au quotidien et peut s'alourdir à certains moments ou en fin de vie.

Ainsi la mucoviscidose reste une maladie très particulière avec des contraintes non communes aux autres maladies chroniques. De plus, diagnostiquée majoritairement durant

l'enfance, elle n'impacte probablement pas des parents qui la gèrent depuis toujours (ou presque) de la même façon que des parents qui déclarent une maladie à l'âge adulte. On peut donc supposer que la mucoviscidose d'un parent a des impacts différents de ceux des autres maladies sur la cellule familiale, et notamment sur les enfants. Il est par conséquent important de distinguer cette population et de s'intéresser spécifiquement à l'expérience de ces enfants.

Tout en étant incomplète, cette revue de littérature permet d'observer les répercussions d'une maladie parentale sur les enfants. Elle permet de renforcer ce que nous avons suggéré à l'issue de notre revue systématique de littérature, à savoir étudier les autres membres de la famille et notamment les enfants. Si depuis 2020, nous avons pu recenser de nombreuses nouvelles études portant sur les enfants de parents malades, nous avons constaté qu'il n'existait toujours pas d'étude sur les enfants de personnes atteintes de mucoviscidose. Notre étude MucoKids vient ainsi documenter l'expérience toute spécifique des enfants ayant un parent atteint de mucoviscidose.

## **II. Méthode**

### **1) Ethique, rigueur et transparence**

Le projet est porté par l'Unité de Recherche Clinique (URC) de Paris centre – Necker enfants malades de l'APHP, et a été financé par l'association Grégory Lemarchal. Cette étude a été validée auprès du Comité d'Evaluation des Protocoles de Recherche Observationnelle (CEPRO) de la Société de Pneumologie de Langue Française (SPLF) le 7 janvier 2021.

Les chercheuses ont travaillé sur les logiciels NVivo (version Release 1.6.1 (1137)) et Excel (Microsoft 11). Les rencontres en visio ont eu lieu sur l'application Zoom de l'Université Paris Cité.

Nous suivons les recommandations de la COREQ pour la rédaction de cet article (Tong et al., (2007)).

### **2) Design de l'étude**

MucoKids est une étude exploratoire bi-centrique, s'intéressant aux expériences, attentes et besoins des enfants de parents atteints de mucoviscidose. Son protocole est une

extension de celui de l'étude MucoPar qui s'intéressait à l'expérience des parents atteints de mucoviscidose (A. Jacob et al., 2025). Les participant.e.s étaient invité.e.s à participer soit à un focus groupe de deux heures, soit à un entretien individuel, soit à un entretien de fratrie. Un focus groupe était proposé en première intention à tous les enfants de plus de 13 ans. Les focus groupes étaient organisés par tranche d'âge (13-17 ans et plus de 18 ans). Celles et ceux qui ne souhaitent pas participer à un groupe, ainsi que les enfants de moins de 13 ans, se voyaient proposer un entretien semi-directif. Les enfants concernés avaient le choix de faire un entretien individuel, ou un entretien avec leurs frères et sœurs si leur écart d'âge était inférieur à 4 ans. Pour les enfants les plus jeunes, du matériel était à disposition pour les soutenir dans leur élaboration : matériel pour dessiner, figurines (Playmobils) pour mettre en scène une famille et l'hôpital.

Les focus groupes devaient initialement être organisés dans les CRCM (Centre de Ressources de Compétences pour la Mucoviscidose), et les entretiens dans les CRCM ou au domicile des enfants. Suite à la pandémie de COVID-19, le protocole a été revu pour que les groupes aient lieu en visio et les entretiens en visio ou à domicile, dans tous les cas sans la présence des parents. Aucune durée d'entretien n'était préétablie, notamment pour s'adapter aux capacités psycho-cognitives des plus jeunes. Ils ont duré entre 27min et 94min. Tous les groupes et entretiens ont été menés par la même personne (A.J.), qui se présentait comme une psychologue et chercheuse. Ils ont tous été enregistrés en audio et retranscrits pour être analysés.

Le déroulé des groupes et entretiens a été pensé par les chercheuses dans le but de favoriser l'exploration en profondeur des thématiques, tout en s'adaptant aux besoins psycho-cognitifs de chaque tranche d'âge. Ainsi, les groupes et entretiens s'organisaient, autant que possible, autour de trois temps. Un premier temps de présentation permettait à la chercheuse de poser le cadre de la rencontre, de se présenter et d'inviter les participant.e.s à se présenter et à présenter leur famille. Ce temps était fondamental pour établir un rapport propice à l'échange avec les plus jeunes, comme le soulignent Irwin et Johnson (2005). Les participant.e.s étaient ensuite invité.e.s à parler de leur vie au quotidien (actuelle ou passée) avec le parent malade, à discuter des différences qu'ils.elles percevaient entre leur vie et celle d'enfants n'ayant pas de parent malade, et enfin à adresser leurs attentes ou besoins aux professionnel.le.s de santé prenant en charge leur parent malade. Les échanges avec les adultes étaient basés sur des questions ouvertes. Face aux enfants les plus jeunes, les mots et

le discours étaient adaptés, donnant souvent lieu à beaucoup de questions fermées pour étayer les enfants qui avaient du mal à élaborer. Le temps de jeu (notamment Playmobil) a permis à plusieurs enfants de décrire leur quotidien, sans permettre à certains enfants très jeunes d'élaborer plus sur la maladie de leur parent.

### **3) Critères d'inclusion et de non-inclusion**

Les participant.e.s devaient avoir au minimum 6 ans au moment de l'inclusion dans l'étude et avoir un parent atteint de mucoviscidose suivi dans un des deux CRCM d'Ile de France. Le parent atteint de mucoviscidose devait être majeur et ne pas présenter de pathologie psychiatrique ou de maladie somatique grave non liée à la mucoviscidose au moment de l'inclusion.

Les participant.e.s devaient avoir un bon niveau d'expression en français (en lien avec leur âge), ne pas présenter de trouble psychiatrique diagnostiqué ou de maladie somatique grave en phase aigüe.

### **4) Recrutement des participant.e.s**

Tous les parents atteints de mucoviscidose éligibles ont été contactés par mail pour proposer à leur(s) enfant(s) de participer. Celles et ceux qui acceptaient que leur(s) enfant(s) participent étaient ensuite sollicité.e.s soit pour l'organisation des rencontres avec leur(s) enfant(s) mineur(s), soit pour communiquer l'adresse mail de leur(s) enfant(s) majeur(s) afin que ceux.celles-ci soient directement contacté.e.s.

Selon les règles éthiques en vigueur en France, tou.te.s les participant.e.s devaient donner leur consentement oral pour participer, consentement redemandé le jour de la rencontre, et les deux parents des enfants mineurs devaient donner leur consentement oral pour que leur(s) enfant(s) puisse(nt) participer à l'étude.

Les données socio-démographiques des enfants et de leurs parents ont été recueillies via un questionnaire rempli en début ou fin de rencontre. Les données médicales des parents atteints de mucoviscidose ont été récoltées dans les dossiers des patients par D.H et D.G.

## 5) Analyses

Face au petit nombre de groupes et au contenu limité de certains entretiens, il a été décidé de faire une analyse thématique unique de l'ensemble des contenus. Cependant, pour vérifier qu'il n'y ait pas de différences marquées entre les types de contenus, et pour mieux relever les interactions des groupes, les contenus ont été analysés séparément dans un premier temps.

Les groupes ont été analysés par A.J. et les entretiens par C.B. Elles ont également codé chacune un des deux entretiens de fratrie. En respectant les six étapes proposées par Braun & Clarke (2006), les deux chercheuses ont mené des analyses thématiques inductives de contenu dans une épistémologie réaliste. Après comparaison des grilles thématiques, la décision de les fusionner a été confirmée. De nombreux échanges ont eu lieu pour élaborer la grille la plus cohérente permettant de rendre compte de la réalité des deux types de contenu et de décrire le plus richement possible les données. Dans cette grille, les chercheuses ont mis de côté tout ce qui concernait le récit de vie des participant.e.s non en lien avec la maladie du parent (histoires à l'école, au travail, jeux et centre d'intérêt) et leur présentation. Ainsi un focus était porté sur toutes les unités de sens empreintes de la maladie du parent. Les deux chercheuses ont relevé des difficultés de classification pour certains verbatims, notamment tout ce qui touchait au vécu général de la maladie du parent. Elles ont alors cherché à organiser des sections dans ce grand domaine afin de faire ressortir plusieurs points saillants. Les thématiques étant souvent étroitement liées, elles ont tenté notamment de distinguer ce qui relevait de l'expérience des participant.e.s de ce qui relevait plutôt de leurs connaissances de la maladie, ou encore de distinguer entre ce qui avait trait à leur compréhension de la maladie, de ce qui leur était dit de la maladie. Enfin il a été décidé de créer un thème à part pour tout ce qui renvoyait à la conception ou à l'adoption des participant.e.s ou de leur fratrie. La thématique ayant été particulièrement développée, notamment par le groupe des adultes, il paraissait plus pertinent de la faire ressortir en elle-même plutôt que de lui faire perdre de la visibilité en la laissant dans un autre thème. Après de nombreux aller-retours entre les transcriptions et le codage, un arbre thématique final a été structuré permettant d'établir ces distinctions d'une façon cohérente.

### III. Résultats

#### 1) Caractéristiques de l'échantillon

Au total, 27 enfants ont participé à deux focus groupes, deux entretiens de fratrie et 13 entretiens individuels. Leurs caractéristiques sont présentées dans le Tableau 17.

**Tableau 17.**

##### *Caractéristiques des participant.e.s*

| <i>Caractéristiques</i>                                   | <i>N ou moyenne</i> | <i>Min-Max</i> |
|-----------------------------------------------------------|---------------------|----------------|
| Nombre total d'enfants                                    | 27                  |                |
| Sexe des enfants                                          |                     |                |
| Féminin                                                   | 21                  |                |
| Masculin                                                  | 6                   |                |
| Moyenne d'âge de enfants (années)                         | 15.4                | (6 –38)        |
| Nombre d'enfants par tranche d'âge                        |                     |                |
| 6-13 ans                                                  | 10                  |                |
| 13-17 ans                                                 | 8                   |                |
| 18 ans et plus                                            | 9                   |                |
| Fratries                                                  |                     |                |
| Nombre d'enfant par fratrie                               | 1.5                 | (1–4)          |
| Nombre d'enfants uniques                                  | 11                  |                |
| Nombre d'enfants avec un frère ou une sœur                | 9                   |                |
| Nombre d'enfants avec plus d'un frère ou une sœur         | 6                   |                |
| Nombre d'enfants avec un demi-frère ou une demi-sœur      | 1                   |                |
| Naissances et adoptions                                   |                     |                |
| Enfants nés suite à une grossesse spontanée               | 4                   |                |
| Enfants nés suite à une AMP                               | 20                  |                |
| Enfants adoptés                                           | 3                   |                |
| Lieux de vie                                              |                     |                |
| Ile de France                                             | 17                  |                |
| Province                                                  | 10                  |                |
| Avec le parent muco (actuellement ou avant sa vie adulte) | 24                  |                |
| Garde alternée                                            | 2                   |                |
| Sans le parent muco                                       | 1                   |                |

Les données socio-démographiques des parents des participant.e.s sont présentées dans le Tableau 18. Les données médicales des parents atteints de mucoviscidose sont présentées dans le Tableau 19.

**Tableau 18.***Données socio-démographiques des parents des participant.e.s.*

| <i>Données socio-démographiques</i>       | <i>Parents muco (n=20)</i> |          | <i>Autre parent (n=20)</i> |          |
|-------------------------------------------|----------------------------|----------|----------------------------|----------|
|                                           | <i>N ou<br/>moyenne</i>    | <i>%</i> | <i>N ou<br/>moyenne</i>    | <i>%</i> |
| Sexe                                      |                            |          |                            |          |
| Féminin                                   | 12                         | 60       | 8                          | 40       |
| Masculin                                  | 8                          | 40       | 12                         | 60       |
| Moyenne d'âge* (minimum-maximum)          | 46.75<br>(38–60)           |          | 45.71<br>(38–56)           |          |
| Statut marital**                          |                            |          |                            |          |
| En couple (marié.e, pacsé.e, concubinage) | 18                         | 90       | 15                         | 83       |
| Célibataire                               | 1                          | 5        | 2                          | 11       |
| En cours de divorce                       | 1                          | 5        | 1                          | 6%       |
| Niveau d'éducation**                      |                            |          |                            |          |
| Bac ou moins                              | 6                          | 30       | 6                          | 33       |
| Bac +2, licence                           | 10                         | 50       | 5                          | 28       |
| Master ou plus                            | 4                          | 20       | 7                          | 39       |
| Activité professionnelle*                 |                            |          |                            |          |
| A temps plein                             | 6                          | 30       | 18                         | 90       |
| A temps partiel                           | 8                          | 40       | 1                          | 5        |
| Non actif.ve (raison médicale ou autre)   | 5                          | 25       | -                          | 0        |
| Retraité.e                                | 1                          | 5        | -                          | -        |
| Participation à MucoPar                   |                            |          |                            |          |
| Oui                                       | 17                         | 85       | 2                          | 10       |
| Non                                       | 3                          | 15       | 20                         | 90       |

*Note.**\* Données manquantes pour deux parents non muco**\*\* Données manquantes pour un parent non muco*

**Tableau 19.***Données médicales des parents atteints de mucoviscidose.*

| <i>Caractéristiques médicales</i>                                                                        | <i>Moyenne</i> | <i>Minimum -<br/>Maximum</i> |
|----------------------------------------------------------------------------------------------------------|----------------|------------------------------|
| Indice de masse corporelle (IMC) en kg/m <sup>2</sup>                                                    | 23.4           | 18.2–32.3                    |
| Age au diagnostic (années)                                                                               | 7.8            | 0–46                         |
| Pourcentage du volume expiratoire maximal par seconde (VEMS1) <sup>a</sup>                               | 59%            | 24%–92%                      |
| <i>Nombre de parents</i>                                                                                 | <i>N</i>       | <i>%</i>                     |
| Avec une greffe pulmonaire                                                                               | 6              | 30                           |
| Avec un diabète                                                                                          | 10             | 50                           |
| Avec une insuffisance pancréatique exocrine (IPE)                                                        | 15             | 75                           |
| Ayant reçu une ou plusieurs cures antibiotiques par intraveineuse pendant la dernière année <sup>b</sup> | 12             | 70                           |
| Sous modulateurs CFTR au moment de l'échange avec leur(s) enfant(s)                                      | 15             | 75                           |
| Kaftrio                                                                                                  | 7              | 35                           |
| Orkambi                                                                                                  | 2              | 10                           |
| Kalydeco                                                                                                 | 2              | 10                           |
| Symkevi                                                                                                  | 1              | 5                            |
| Sous modulateurs depuis un an ou plus au moment de l'échange avec leur(s) enfant(s) <sup>c</sup>         | 8              | 40                           |

*Note.*<sup>a</sup> VEMS1: Mesure de la capacité respiratoire des patient.e.s<sup>b</sup> Entre 1 et 6 cures durant l'année écoulée<sup>c</sup> dont un parent sous Kaftrio depuis trois ans.

Des informations individuelles sur les participant.e.s sont présentées dans le Tableau 20.

**Tableau 20.***Informations individuelles sur les participant.e.s*

| Pseudo                               | Age<br>(respectivement) | Nombre<br>d'enfants dans<br>la fratrie | Informations sur le<br>parent atteint de<br>mucoviscidose |
|--------------------------------------|-------------------------|----------------------------------------|-----------------------------------------------------------|
| <i>Arthur</i>                        | 6                       | 1                                      | Mère                                                      |
| <i>Téa</i>                           | 6,5                     | 1                                      | Mère - Greffée                                            |
| <i>Marion</i>                        | 8                       | 1                                      | Mère                                                      |
| <i>Sarah</i>                         | 8                       | 1                                      | Mère - Greffée                                            |
| <i>Antoine</i>                       | 9                       | 1                                      | Mère                                                      |
| <i>Lilas, Kathy et<br/>Laure</i>     | 11, 11 et 12            | 4                                      | Père                                                      |
| <i>Olivia et <u>Léonie</u></i>       | 11 et 13                | 2                                      | Mère                                                      |
| <i>Suzanne et<br/><u>Michaël</u></i> | 11 et 13                | 2                                      | Mère                                                      |
| <i><u>Marco</u></i>                  | 13                      | 2                                      | Père                                                      |
| <i><u>Nora</u></i>                   | 14                      | 1                                      | Père                                                      |
| <i><u>Chloé</u></i>                  | 15                      | 2                                      | Père - Greffé                                             |
| <i><u>Johan et Julie</u></i>         | 15 et 15                | 2                                      | Père                                                      |
| <i><u>Enzo</u></i>                   | 16                      | -                                      | Mère                                                      |
| <i>Violaine, Céleste<br/>et Rose</i> | 18, 18 et 18            | 3                                      | Père                                                      |
| <i>Fanny</i>                         | 21                      | 1                                      | Mère                                                      |
| <i>Justine</i>                       | 21                      | 2                                      | Père                                                      |
| <i>Louise</i>                        | 22                      | 1                                      | Mère - Greffée                                            |
| <i>Agathe</i>                        | 24                      | 2 (demi-sœurs)                         | Père                                                      |
| <i>Célia</i>                         | 29                      | 1                                      | Mère                                                      |
| <i>Marie</i>                         | 38                      | 1                                      | Mère                                                      |

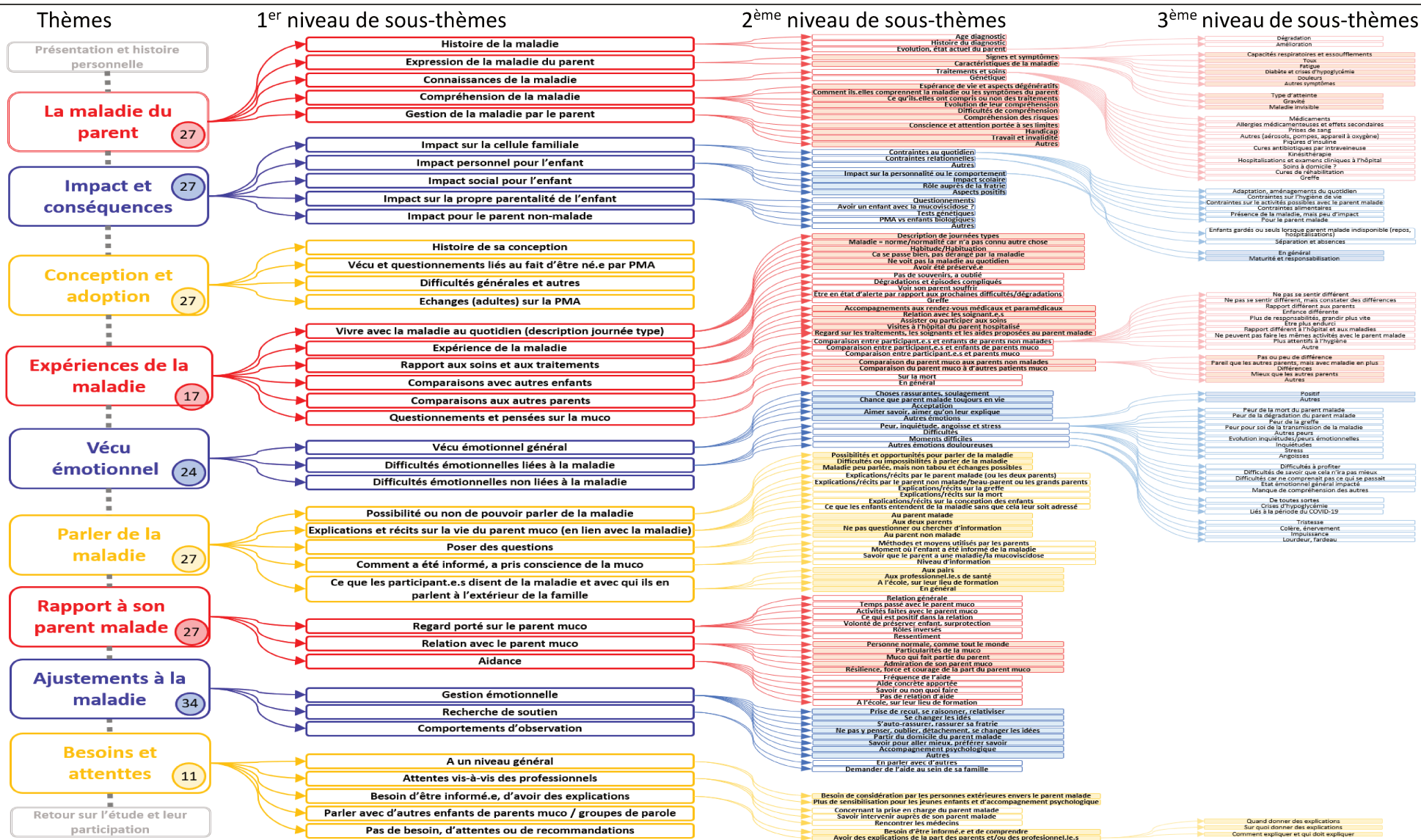
*Note. Prénoms en italiques : enfants de 6 à 13 ans ; Prénoms soulignés : adolescent.e.s de 13 à 17 ans ; Prénoms sans mise en forme : enfants majeurs*

## 2) Résultat de l'analyse thématique de contenu

L'analyse thématique de contenu a fait ressortir trois thèmes annexes (présentations, histoire des participants, retour sur l'étude) et neuf thèmes permettant de répondre à notre problématique de recherche : 1. La maladie du parent, 2. Conception et adoption, 3. Impacts et conséquences de la maladie, 4. Expérience de la maladie, 5. Vécu émotionnel de la maladie, 6. Parler de la maladie, 7. Ajustements à la maladie, 8. Rapport au parent malade, 9. Besoins et attentes. La Figure 20 présente en détail ces neuf thèmes et leurs sous-thèmes.

Figure 20.

Arbre thématique des neufs thèmes principaux.



Note. Les nombres dans les cercles indiquent le nombre de participant.e.s ayant contribué au thème

### a) La maladie du parent

Ce thème regroupe tout ce que les enfants ont pu décrire de la maladie de leur parent. Ainsi ils.elles ont rapporté des éléments de l'histoire de la maladie (diagnostic, autres personnes concernées dans la famille), expliqué la forme que prend la maladie chez leur parent (les symptômes, la gravité, le type d'atteinte), la prise en charge de leur parent (médicaments, cures d'antibiotiques avec perfusion, piqûres d'insuline, examens médicaux et hospitalisations, la kinésithérapie, la greffe etc.) et les aspects génétiques de la maladie. Au-delà de la description de ces différents aspects, les enfants ont expliqué ce qu'ils.elles comprenaient de la maladie, des symptômes et de leur évolution, des traitements et des risques associés à la maladie (rhumes qui dégénèrent, risque de greffe, de mort). Certains enfants ont reconnu ne pas tout comprendre, d'autres semblaient ne pas s'en soucier et nous avons observé des disparités dans le niveau de compréhension, qui ne semblaient pas toujours corrélées à l'âge des participant.e.s, notamment sur la question des gènes récessifs. Enfin, les enfants adolescents et adultes ont souvent décrit une amélioration de leur compréhension de la maladie et de ses enjeux, au fil des années.

*Arthur (6 ans)<sup>41</sup> : « [Maman] m'a expliqué que [...] elle avait deux gènes bleus, alors ça a fait la mucoviscidose. Et moi j'en avais un blanc et un bleu, et papa il en avait deux blancs. Ça fait rien. Et aussi, je sais pareil pour les yeux. Mon papa il a deux bleus, parce que il a les yeux bleus, moi j'ai un marron et un bleu, et le plus fort est le marron, alors j'ai les yeux marrons. »*

*Marco (13 ans) : « J'ai posé d'autres questions en grandissant, et là j'ai vraiment compris, j'connais entre guillemets la globalité de c'que c'est la mucoviscidose ».*

### b) Conception et adoption

Certaines participantes, notamment presque toutes les adultes, ont détaillé comment elles avaient été conçues ou les difficultés de conception ayant mené leurs parents à les adopter ou à faire appel à des dons de gamètes. Sans détailler précisément le rôle de la

---

<sup>41</sup> Tous les verbatims ont été modifiés pour faciliter leur lecture et compréhension. Ainsi la majorité des mots parasites (ex : euh, bah) et les répétitions de mots ont été supprimés. En revanche la structure des phrases et leur forme grammaticale n'ont pas été modifiées pour rester au plus proche du discours des participant.e.s.

mucoviscidose dans ces difficultés, elles ont surtout parlé des difficultés émotionnelles et logistiques rencontrées par leurs parents pour les avoir.

*Justine (21 ans) : « Ils ont fait plusieurs tentatives, ils ont fait des FIV avant d’être. Finalement ça a pas marché et c’est pour ça justement qu’ils ont lancé la procédure d’adoption. »*

*Nora (14 ans) : « Ils ont eu du mal à être aussi mes parents... j’ai cru qu’il y avait eu une éprouvette ou un truc comme ça. »*

*Marie (38 ans) : « Beaucoup de médecins qui connaissaient pas la situation, une maman muco [...] y a presque 40 ans c’était pas possible pour eux. Donc elle a tout entendu, et ils lui avaient dit que de toutes façons elle mourrait en couche, que son gamin ce serait un monstre. [...] c’était plus dans c’sens-là pour elle que c’était difficile. »*

Les participantes adultes ont échangé entre elles sur l’AMP de façon générale, sur ce qu’elle apporte aux parents infertiles et ont conclu qu’avoir recours à l’adoption ou l’AMP montrait la motivation de leurs parents à avoir des enfants. Enfin, deux participantes ont parlé de leur vécu d’être née par AMP. L’une a reporté le fait de bien le vivre malgré un environnement qui trouvait parfois cela bizarre. L’autre jeune fille a fait part des questionnements qu’elle avait pu avoir en apprenant qu’elle était issue d’un don d’ovocyte.

*Léonie (13ans) : « Quand j’ai appris comment j’ai été née, ‘fin comment j’ai été fabriquée, au début ça m’a un peu... j’ai pas trop compris parce que j’ai me suis dit « mais alors est-ce que c’est ma maman ? Est-ce que j’ai leur enfant ? » [...] et en fait j’ai compris que oui, c’est juste que y a une personne qui a aidé ma maman à être et à avoir ma sœur. »*

### **c) Impacts et conséquences de la maladie**

Dans ce thème les enfants ont décrit les différents impacts de la maladie au niveau familial comme au niveau personnel. Ainsi ils.elles ont fait état des contraintes quotidiennes comme l’adaptation du fonctionnement familial autour des traitements du parent, une hygiène de vie rigoureuse et renforcée pendant la période COVID, une incapacité ou une capacité limitée de certains parents malades à effectuer certaines activités avec les enfants (jouer dehors, faire du vélo), ou une alimentation particulière dans les familles avec un parent diabétique. Certain.e.s participant.e.s ont également listé les contraintes pour le parent malade, notamment le poids des traitements et les incapacités physiques. Enfin les enfants

ont rapporté l'impact relationnel sur la famille, notamment les séparations avec le parent malade et/ou la nécessité d'être régulièrement gardé.e.s par d'autres personnes que leurs parents (notamment les grands-parents).

Fanny (21 ans) : « *C'est plein d petites choses qui, encore aujourd'hui, me suivent alors que j'suis pas la personne malade. Que ce soit les activités, que ce soit des séances ciné/canapé... c'était pas faisable, c'était pas possible et encore aujourd'hui le problème des siestes dans la journée tellement elle est fatiguée...* »

Justine (21 ans) : « *Quand ça [le COVID] a commencé on appliquait hyper strictement les gestes barrières et c'est vrai que du coup moi j'fais hyper attention à mes sorties, j'embrasse pas les gens et c'est vrai qu'j'suis hyper rigoureuse sur ça donc, 'fin c'est aussi pour l'protéger.* »

Certains enfants ont rapporté le stress que la maladie peut générer chez le parent non malade, ou les responsabilités supplémentaires endossées par celui.celle-ci (déposes scolaires, faire les cures quand l'infirmière est indisponible).

Plusieurs enfants ont rapporté un impact social pour elles et eux, notamment des difficultés de partage et de compréhension avec des camarades, les regards/remarques négatives d'enfants à l'école ou de passants qui ne voient/comprennent pas la maladie. Une jeune fille a également parlé de privations sociales pour limiter son exposition aux germes suite à la pandémie de COVID-19. Enfin, deux jeunes filles ont rapporté des attitudes positives de la part de personnes extérieures.

Louise : « *Certains comprennent totalement et font très attention par rapport à moi, [...] et d'autres qui savent c'qu'a ma mère, [...] au bout d'un moment ils en ont tellement marre qu'ils font même plus attention. Donc c'est moi qui à chaque fois recule. Donc forcément j'm'éloigne quand même, j'me prive de certaines choses avec mes amies.* »

Au niveau personnel, plusieurs participant.e.s ont rapporté que la maladie les avait responsabilisé.e.s plus rapidement, parfois endurci.e.s et souvent rendu.e.s assez matures. Une jeune fille a d'ailleurs rapporté avoir un rôle de « *seconde mère* » auprès de sa petite sœur pour pallier les absences de leur mère. Certains enfants ont rapporté avoir parfois fait leurs devoirs chez le kiné et une adolescente a expliqué avoir manqué l'école un jour sur deux pendant une période d'hospitalisation durant laquelle son père était dans un état critique.

Agathe (24 ans) : « *Effectivement ça fait gagner en maturité, ça permet d'se construire de manière un peu différente aussi.* »

*Violaine (18 ans) : « P't-être que nous avec mes sœurs ça nous rend un peu plus fortes quoi. »*

*Léonie (13 ans) : « Je prends souvent la place de maman quand elle est pas là [...] je sais pas comment expliquer c'est... comme un... c'est automatique. »*

Enfin, dans les deux groupes et chez une jeune femme est apparue la question de l'impact sur leur propre parentalité. Cela suscitait des questionnements, notamment sur comment faire pour avoir des enfants qui n'aient pas la mucoviscidose ou comment la maladie de leur parent impacterait leur relation à leur enfant. L'ensemble des participant.e.s concerné.e.s par le sujet ont exprimé leur souhait de ne pas avoir un enfant avec la mucoviscidose. Néanmoins une adulte a pu préciser que cela ne lui faisait pas peur d'avoir un enfant avec cette maladie car elle la connaissait « *par cœur* », contrairement à d'autres maladies génétiques qu'elle appréhenderait beaucoup plus. Cela a soulevé la question des tests génétiques à faire pour les participant.e.s ou leurs partenaires. Certaines participant.e.s étaient très bien informé.e.s à ce sujet, ce dont d'autres ont pu profiter pendant les groupes. Trois participantes ont de plus parlé de leurs questionnements concernant l'AMP et leurs éventuelles difficultés à concevoir.

*Chloé (15ans) : « Vu qu'j'ai bientôt 16 ans, j'vais m'faire tester à Foch, je crois, pour savoir de quel allèle je suis porteuse... Pour savoir déjà, et puis qu'mon futur mari, fin voilà, c'est pour savoir si lui il aura les mêmes allèles que moi ou pas. Et puis après faire d'la sélection de, j'sais plus comment ça s'appelle, d'la sélection quelque chose. »*

*Célia (29ans) : « Avoir un enfant par rapport au, bah au passé d'ma mère [...] c'est vrai qu'moi c'est des questions que j'me pose. Après c'qui est bien c'est qu'on est quand même pas mal accompagné, parce que je sais que mon compagnon devra faire un test pour savoir s'il a la muco, mais j'trouve que c'est quand même pas simple quoi. »*

#### **d) Expérience de la maladie**

Ce thème rassemble tout ce qui concerne l'expérience plus personnelle de la maladie du parent, hors vécu émotionnel. Dans celui-ci, quatre des participant.e.s les plus jeunes ont décrit leur journées types (petit déjeuner, école, cantine, retour à la maison etc.) sans mentionner spontanément les soins du parent malade. Si des questions plus précises leur ont permis ensuite de pouvoir en parler, la maladie du parent n'apparaissait pas vraiment de façon

spontanée dans leur discours sur leur quotidien. Les participant.e.s plus âgé.e.s, ont été nombreux.ses à faire état d'un sentiment de normalité envers la maladie, dans le sens où ils.elles n'ont jamais connu autre chose, ou en décrivant une habitude à la maladie et ce qui l'entoure (toux, traitements, faire attention à l'hygiène). Certain.e.s participant.e.s ont pu formuler que la maladie ne les dérangeait pas, voire qu'ils.elles vivaient bien que leur parent soit malade. D'autres ont expliqué ne pas voir la maladie au quotidien, car peu visible chez le parent malade, tellement habituelle que les enfants n'y prêtent pas attention, ou car une participante n'a pas vécu avec son père malade.

Réponses spontanées des plus jeunes à la question : « comment ça se passe pour toi d'avoir une maman/un papa qui a la mucoviscidose ? » *Arthur (6 ans) : « Très bien. » Téo (6 ans) : « Bien. » Marion (8 ans) : « Bien. 'Fin ça m'dérange pas trop. » Antoine (9 ans) : « Boh normalement. »*

*Johan (15ans) : « moi j'le vis bien, 'fin j'le vis normalement [...] y a pas vraiment d'soucis, tout s'passe bien, tout s'passe tranquillement, voilà. »*

*Kathy (11 ans) : « ça m'change rien. Parce que... je suis habituée. »*

*Enzo (16 ans) : « des fois [quand sa mère tousse] j'ai l'impression qu'ma mère elle s'étouffe [...] après vu qu'elle a ça d'puis toujours, je sais qu'ça va mieux tout ça, après au bout d'cinq minutes c'est bon. »*

En parallèle, Une participante pense avoir été particulièrement préservée de la maladie de sa mère grâce à la présence compensatrice de son père. Enfin quelques participant.e.s ont également précisé avoir oublié certaines choses de leur petite enfance, comme une adolescente qui précise ne pas avoir de souvenir de la maladie car son père a été greffé quand elle avait 2-3 ans, même si elle sait qu'elle l'a vu dans un état très dégradé. Le sentiment de normalité face à la maladie était donc très présent dans le discours explicite et implicite de la majorité des participant.e.s. Malgré ce sentiment de norme, certain.e.s adolescent.e.s et adultes ont pu dire qu'ils.elles avaient vu leur parent malade souffrir à cause de la maladie, et qu'ils.elles étaient en alerte vis-à-vis de la prochaine dégradation.

*Célia (29 ans) : « On s'habitue, mais on sait pas des fois si, en rentrant l'soir, si ça va bien s'passer, si va pas y avoir quelque chose, l'état va pas être dégradé ou est-ce que là va pas falloir aller à l'hôpital, ou des choses comme ça. »*

En lien avec ces aspects quotidiens de la maladie, la majorité des participantes adultes et certaines adolescentes ont pu décrire certains épisodes compliqués qui les ont marquées

(un pneumothorax, une impressionnante crise d'hypoglycémie, une hospitalisation particulièrement longue) et les dégradations progressives et généralement inéluctables. Une participante adulte a mentionné la dégradation rapide de sa mère l'ayant conduite à la greffe, greffe à laquelle elle a néanmoins eu le temps de se préparer pendant environ une année.

Violaine (18 ans) : « J'ai entendu mon père qui était censé dormir, il avait laissé sa porte ouverte, faire des bruits bizarres, et en fait j'ai tout d'suite compris, parce que j'l'avais déjà vu faire une crise, sauf qu'en fait là, il avait fait un coma diabétique. »

En parallèle de ces dégradations, certain.e.s participant.e.s rapportent les améliorations qu'ils.elles ont perçues dans la santé de leur parent malade, notamment en lien avec les nouveaux traitements (moins de kinésithérapie, arrêt de la toux). Quelques patientes adultes ont également décrit les améliorations de qualité de vie de leur parent malade, en lien avec les progrès de la prise en charge.

Justine (21 ans) : « Depuis quelques temps il prend un nouveau médicament et il tousse plus du tout. Ça m'a fait vraiment bizarre parce que avant c'était normal en fait de de l'entendre tousser, j'étais habituée et maintenant j'l'entends vraiment plus tousser ».

Marie (38ans) : « On est parti d'loin mais... c'est vrai que y a pleins d'choses qui arrivent à leur faciliter un p'tit peu la vie quoi. Mais bon, ça empêche pas la dégradation au fur et à mesure. »

Louise (22 ans) : « Depuis qu'elle est greffée c'est quand même plus simple... [...] mais elle a eu pleins d'autres choses après. Y a eu des années qu'ont été très difficiles où en un an elle est allée 3-4 fois à l'hôpital pour d'autres petites choses, des conséquences de la greffe. »

Les participant.e.s ont parlé de leurs propres rapports aux soins et traitements de la mucoviscidose. Ainsi ils.elles ont raconté s'ils.elles assistaient ou participaient aux soins à domicile (perfusion, kinésithérapie, aérosols, visites des infirmières etc.) et s'il leur était arrivé d'accompagner leur parent malade à des soins/examens en dehors de la maison. Certains enfants se sont dit très impliqués dans les soins et les rendez-vous, quelques participantes ont parlé des liens gardés avec les infirmières et les kinésithérapeutes des parents, d'autres ont pu dire qu'ils.elles avaient rencontré ponctuellement ou plusieurs fois les médecins pneumologues. Certain.e.s ont précisé s'ils.elles étaient déjà allé.e.s rendre visite ou non à leur parent malade lorsqu'il ou elle était hospitalisé.e. Enfin certaines adultes ont pu exprimer leur doute ou leur enthousiasme concernant des traitements (notamment les modulateurs) et

autres aspects de la prise en charge globale (chance d'avoir la sécurité sociale, effacement face aux anciennes conditions de distribution de l'AAH (Allocation aux Adultes Handicapés)).

Antoine (9 ans) : « j'la vois s'piquer [...] matin, midi et soir. »

A.J. : « tu fais quoi quand elle fait ça [l'aérosol] ? Arthur (6 ans) : moi j'colorie ou sinon je joue. »

Marion (8 ans) : « Avant elle allait à la kiné. Quand personne pouvait m'garder, du coup j'y allais avec elle. »

Téa (6 ans) : « J'allais pas la voir souvent mais j'suis d'jà allée la voir [à l'hôpital]. »

Fanny (20 ans) : « J'ai été à quasiment tous les rendez-vous, [...] j'connais des médecins... ils m'ont connue j'étais comme ça [toute petite]. »

En lien avec les questions qui leur étaient posées, ou de façon plus spontanée, beaucoup de participant.e.s ont rapporté des éléments de comparaison avec les autres enfants, entre leur parent malade et les autres parents, voire pour quelques participantes, entre elles et leur parent malade. Ainsi ils.elles étaient plusieurs à ne pas se sentir différents des autres enfants, ou à ne pas se sentir différents tout en ayant conscience de certaines particularités. D'autres ont fait état d'un rapport différent à leurs parents, plus proche, plus attentif, que ne l'était celui d'enfants de parents non malades. Certain.e.s ont relevé des différences dans leur rapport aux maladies, à l'hôpital ou à l'hygiène (plus d'aisance), dans les activités qu'il est possible de faire avec son parent malade ou dans l'alimentation. Certaines participantes du groupe adultes sont allées jusqu'à parler d'une enfance différente, teintée par un manque d'insouciance, d'inquiétude et de plus de responsabilités. Enfin deux adolescent.e.s ont précisé que la maladie de leurs pères les avait rendu.e.s plus endurci.e.s que d'autres enfants.

« A.J. : Est-c'que toi t'as l'impression, par rapport à d'autres enfants, des enfants qui ont pas de parents de maman avec la mucoviscidose, que ta vie est différente ?

Marion (8 ans) : Euh nan pas trop.

A.J. : Pas trop ?

Marion : Ouais pas du tout même (petit rire). »

Sarah (8 ans) : « Oui j'dirais un peu qu'j'suis pareille »

Antoine (9 ans) : « Bah c'est pas normal mais... maman elle est quand même différente des autres... Elle a la mucoviscidose alors oui c'est différent. »

Enzo (16 ans) : « Surtout par rapport au sport, parce que ma mère du coup elle a peu d'endurance tout ça, et c'était j'avais quand j'étais p'tit, j'avais les mères emmener leurs enfants faire du vélo ou quoi, c'était qu'moi elle pouvait pas [...] Mais sinon à peu près tout l'autre, elle était comme les autres parents.

Julie (15 ans) : « [Les autres enfants] avaient beaucoup moins d'appréhensions sur le fait que ils pourraient p't-être plus avoir leur papa ou d'autres trucs comme ça ».

Olivia (11 ans) : « A force que ma maman elle ait des médicaments on comprend mieux, on connaît mieux les médicaments que les autres enfants qui ont leur maman ou leur papa n'ont pas d'maladie. »

Nora (14 ans) : « Les autres ils vont faire passer, [...] eux avant leurs parents, alors que moi j'fais passer mes parents avant moi. »

Marie (38 ans) : « On a un regard sur la vie qui est un peu différent des autres gamins [...] ce manque d'insouciance, je pense que ça nous différencie vraiment des autres enfants. »

Deux participantes se sont également comparées à leur parent malade car elles souffrent de difficultés respiratoires (asthme notamment) et trouvent que leurs pères gèrent plus de choses liées à la maladie ou gèrent mieux leur maladie qu'elles ne le font.

Laure (12 ans) : « J'ai des médicaments à prendre chaque jour pour mon asthme et mon allergie, et même ça parfois j'oublie d'en prendre un, alors que... lui [son père] il en a tous les matins, tous les midis, tous les soirs et il pense tout le temps à les prendre... »

Violaine (18 ans) : « Comme moi aussi j'ai des problèmes pulmonaires, mon père me disait souvent « oui mais regarde, moi j'fais du vélo, j'fais du sport, tu devrais faire la même chose, ça pourrait t'aider ! » et en fait du coup lui et moi on s'compare beaucoup. Et ma mère [...] j'avais l'impression qu'elle comparait elle aussi. Mais j'crois qu'c'était plus pour me montrer qu'on pouvait avoir des mauvais poumons et quand même s'en sortir quoi. C'était pas mauvais, mais moi j'prenais d'une mauvaise manière. »

Enfin, les participant.e.s ont rapporté des pensées ou questionnements au sujet de la mort ou de la maladie en général. Il y a notamment des questionnements sur le fait que le parent puisse mourir jeune, des pensées sur ce qu'il se passerait si le parent venait à mourir, ou sur le fait que le parent malade pourrait tout aussi bien vivre assez vieux même s'il a plus de chance de mourir jeune et brutalement. Trois sœurs précisent qu'elles pensent peu à l'éventualité de la mort de leur père, sauf lorsqu'il traverse un épisode compliqué. Enfin, on observe des niveaux de préoccupations très différents entre les participant.e.s, avec par

exemple Marco (13 ans), qui précise que la maladie de son père « *c'est 10% de c'qui [le] préoccupe dans la vie* » et une adulte qui elle se demande pourquoi cette maladie qui n'est pas la sienne la travaille autant.

Enzo (16 ans, dont la tante malade est morte quand il était tout petit) : « *En plus avec ma tante j'me demandais si elle [sa mère] allait mourir ou pas.* »

Léonie (13 ans) : « *Oui, ça m'arrive de penser au pire.* »

#### e) Vécu émotionnel de la maladie

Les participant.e.s ont fait état de nombreuses difficultés émotionnelles, au premier rang desquelles apparaissent la peur, l'inquiétude, l'angoisse et le stress. Certain.e.s ont décrit une inquiétude ou un stress latent concernant l'état de santé du parent malade. Cela se caractérisent notamment avec la peur de la dégradation et de la mort. Les participant.e.s ont aussi exprimé le fait d'avoir peur quand le parent souffre, quand il tousse tellement fort qu'il.elle donne l'impression de s'étouffer, quand il fait une crise d'hypoglycémie, ou lors de dégradations brutales. Les plus jeunes, et certain.e.s adolescent.e.s à posteriori, ont exprimé avoir peur de certains traitements, comme des perfusions, notamment car ils.elles ne comprenaient pas bien ce qui se passait. Enfin, Sarah (8 ans) explique qu'elle a eu un peu peur quand elle a compris ce que représentait la greffe de sa mère et conclut « *mais j'ai pas vraiment très peur, à part si là ses poumons ils s'aggravent un p'tit peu. Là j'aurais un peu plus peur* ».

Rose (18 ans) : « *Ça fait toujours peur parce que y'a les pompiers qui doivent venir, parce que on sait jamais si p't-être qu'il s'est fait mal, p't-être qu'il s'est pas fait mal, mais en soi, 'fin c'est des frayeurs sur le coup.* »

Céleste (18 ans) : « *Imaginez, il fait une crise d'hypoglycémie où il est tout seul... et j'sais pas... il avale sa langue et hop il meurt. 'Fin après c'est quand même très extrême comme cas mais euh, c'est possible.* »

Chloé (16 ans) : « *J'crois qu'les chiffres ils sont tellement inquiétants [...], donc on s'dit « ouais quand même », ça [mort de son père] peut arriver du jour au lendemain quoi.* »

Les participantes adultes ont également parlé de difficultés à profiter de la situation sachant que cela n'ira pas mieux et que l'état de leur parent continuera à se dégrader. Une participante a précisé que son état émotionnel avait été et est toujours très impacté par la maladie de sa mère. Enfin, deux adolescent.e.s ont parlé de difficultés émotionnelles car

ils.elles ne comprenaient pas ce qui se passait et deux adultes ont rapporté mal vivre le fait de ne pas se sentir comprises par leur entourage.

Agathe (24 ans) : « *On profite jamais des moments où ça va, parce que en fait, 'fin de c'que j'ai l'impression, ça va jamais. L'état actuel est toujours le pire état qu'on n'a jamais connu [...] donc y a jamais un moment où on s'dit « bah là ça va », parce qu'en fait ça allait toujours mieux avant. »*

Johan (15ans) : « *C'est peur entre guillemets, parce que c'est surtout beaucoup d'incompréhension qu'j'avais lorsque j'étais p'tit, j'me d'mandais qu'est-c'qui s'passait. »*

D'autres émotions ont été rapportées comme le sentiment d'impuissance face à la maladie du parent, la tristesse due à l'absence du parent ou à son incapacité à faire certaines activités, parfois la colère face à une certaine inertie du parent malade, la lourdeur de la situation avec la maladie, qui s'est notamment transformée en fardeau pendant la période de COVID-19 pour une participante adulte vivant toujours avec sa mère malade.

Olivia (11 ans) : « *J'suis triste parce que ses câlins ils me manquent »*

Célia (29 ans) : « *J'ai une certaine colère par rapport à tout ça, et par moment [envie de] lui dire « bouge-toi, fais les choses ». »*

La période du COVID-19 a été décrite par deux autres adultes comme un moment difficile du fait de la distance prise pour protéger le parent malade et le manque de contact physique que cela imposait. D'autres moments difficiles ont été évoqués, notamment des périodes de dégradation du parent, la greffe pour une participante adulte, et les crises d'hypoglycémie pour une fratrie d'adultes.

D'autres états émotionnels ont également été rapportés, comme les choses qui ont pu rassurer ou soulager les participant.e.s (cures à la maison plutôt qu'à l'hôpital, le fait de comprendre ce qui se passait, prise en charge à l'hôpital quand cela n'allait pas bien), la joie de voir le dernier traitement marcher, l'émotion d'entendre son père dire vouloir se battre pour voir grandir sa fille ou la chance d'avoir son parent malade toujours en vie etc. Certaines adolescentes ont également partagé qu'elles aimaient savoir, qu'on leur explique. Enfin, une adulte et une enfant ont pu dire qu'elles aimeraient que leurs mères respectives aillent mieux.

Fanny (21 ans) : « *Globalement j'ai quand même eu une très belle enfance, une très belle vie au côté de mon parent malade. »*

Léonie (13 ans) : « J'aime bien qu'on m'explique c'qui s'est passé, qu'est-c'qu'elle a ressenti aussi, comment, qu'est-c'qu'ils lui ont fait, qu'est-c'que elle, elle a fait d'son côté, et j'aime beaucoup oui ces moments. »

A.J. : « Tu voudrais qu'elle soit comment ? »

Olivia (11 ans) : Elle soit mieux.

A.J. : C'est-à-dire mieux ?

Olivia : En pleine forme. »

#### **f) Parler de la maladie**

De nombreux.ses participant.e.s ont rapporté comment ils.elles avaient été informé.e.s, ou comment ils.elles avaient pris conscience de la maladie de leur parent. Certain.e.s ont identifié un moment, soit parce qu'on leur avait dit, soit à cause d'un événement particulier. Pour d'autres il n'y pas de moment précis, la maladie ayant toujours été visible et l'information transmise au fur et à mesure. Certain.e.s ont également raconté comment cela leur avait été dit, avec des mots adaptés, avec un petit livre ou un document.

Julie (15ans) : « Depuis petit on sait que notre père il est malade. »

Marie (38 ans) : « On m'a jamais caché non plus la maladie d'ma mère. J'ai toujours su voilà qu'elle était malade, ça s'voyait. »

Lilas (11 ans) : « J'me souviens, on avait même un livre sur la mucoviscidose, parce que du coup on comprenait pas c'que c'était. Donc euh... ils nous avaient acheté un livre, pour qu'on sache ce que c'était, pour comprendre. »

La prise de conscience de la maladie est mise en lien avec les explications et les récits sur la maladie que les participant.e.s ont reçus. La majorité des enfants rapportent avoir reçu des informations principalement par les deux parents ou par le parent malade (parfois le beau-parent ou les grands-parents) et avoir questionné leurs parents. Deux adolescents ont précisé s'être contentés de ce qu'on leur disait sans chercher à en savoir plus. Deux participantes (de 8 et 13 ans) ont également rapporté avoir obtenu des informations en entendant des choses qui ne leur étaient pas adressées, lors d'un appel téléphonique ou de conversations entre les parents. Plusieurs participant.e.s ont précisé qu'il était tout à faire possible de parler de la maladie dans leur famille, même si pour certain.e.s elle était finalement peu souvent mentionnée. Trois participant.e.s ont fait état de ce qui pouvait limiter le dialogue dans leur

famille (peur de blesser son parent malade, parent qui ne veut pas être renvoyé au statut d'handicapé, parent qui fait de la rétention d'information pour protéger ses enfants).

Suzanne (11 ans) : « Elle nous expliquait et ça rentrait, et après on oubliait donc on redemandait. »

Julie (15 ans) : « J'ai un p'tit rituel, c'est quand on est en voiture, souvent je pose beaucoup d'questions ou quand on est à table et qu'on mange, j'ai aussi beaucoup d'questions. »

Marco (13 ans) : « Il nous a raconté plein d'fois les examens qu'il faisait, comment ça s'passait. »

Enzo (16 ans) : « Parler d'la maladie en soit oui, sauf par exemple le fait qu'elle soit handicapée. Elle aime pas trop qu'on en parle ».

Chloé (15 ans) : « [Avec] ma famille aussi, avec tout l'monde, moi c'est un sujet on peut en parler, 'fin, c'est pas tabou. »

En parallèle, certain.e.s participant.e.s ont pu expliquer ce qu'ils.elles pouvaient dire de la maladie de leur parent en dehors de la cellule familiale, et avec qui. Ainsi, certain.e.s. ont mentionné leur réserve générale à parler de la maladie de leur parent, quand d'autres se sont dit très à l'aise de le faire, voire même d'expliquer si nécessaire. Certain.e.s participant.e.s ont dit en parler avec leurs ami.e.s, généralement dans les grandes lignes car ceux.celles-ci ne comprennent pas tout. Certains adolescents ont précisé ne pas en parler à l'école et ne pas trop savoir si les enseignant.e.s étaient informé.e.s. Trois préadolescentes se sont également plaintes de ne pas être crues à ce sujet par d'autres élèves de leur école. De façon plus particulière, un adolescent a expliqué en avoir discuté avec son maître de stage, lui-même père d'un enfant atteint de mucoviscidose, et une adolescente a précisé en parler beaucoup avec une amie elle-même atteinte.

Johan (15 ans) : « J'en parle pas lorsque j'suis à l'école ou même quand j'suis dehors. »

Nora (13 ans) : « J'peux parler de c'que j'ressens à mes amies mais... elles vont pas forcément tout comprendre. [...] J'leur ai déjà expliqué un peu c'que c'était, donc elles comprennent les enjeux mais j'avais pas pouvoir leur poser des questions. »

Sarah (8 ans) : « J'l'ai dit que à mon amie d'enfance, de maternelle. J'lui dis mais pas trop souvent, parce que des fois ça me fait bizarre d'en parler [...] parce que elle sa maman elle a rien. Enfin j'pense pas qu'elle a une maladie, par rapport à la mienne, du coup ça m'fait bizarre. »

*Kathy, Lilas et Laure (11 et 12 ans) - Kathy : « Y en a qui nous croient pas en même temps. A.J. : Ah bon ? Laure : ouais. A.J. : y en a qui vous croient pas ? Comment ça ? Lilas : bah ils disent que c'est faux, qu'c'est pas vrai, ils disent « t'as inventé ça ». »*

Enfin, certain.e.s participant.e.s ont expliqué avoir échangé avec des professionnel.le.s de santé, ou les pompiers, qui leur ont donné des explications sur ce qu'il se passait.

*Michaël (13 ans) : « Le Dr H. m'a d'mandé si j'avais des questions à poser. Et j'lui avais posé cette question, « [qu'est-]c'que c'est vraiment la maladie ? » [...] enfin d'où provient la maladie en quelque sorte, enfin c'que c'est, c'que ça affecte. »*

#### **g) Rapport au parent malade**

Les participant.e.s ont pu décrire leur relation de façon générale avec leur parent malade. Ainsi certain.e.s ont parlé des aspects positifs de la relation (parent sympa, agréable, doux, ouvert, bon parent etc.), du temps passé avec ce parent, des activités faites ensemble et d'aspects généraux de la relation (se ressembler, se comprendre). Une fratrie de préadolescentes a également mentionné les conflits avec leur père malade, souvent liés à des aspects du quotidien, deux adultes ont évoqué une légère forme de ressentiment face au parent malade et plusieurs participantes (adultes et une adolescente) ont parlé de surprotection à leur égard de la part de leur parent malade. Enfin deux adultes ont évoqué une forme d'inversion des rôles avec leur parent malade. La thématique de l'aidance a été abordée par plusieurs participantes. Deux adultes ont précisé ne pas avoir de rapport d'aidance avec leur parent malade, quant aux autres, elles ont parlé de leur envie d'aider le parent malade, ont décrit l'aide concrète qu'elles pouvaient apporter et parfois la fréquence de cette aide. La question de savoir ou non quoi faire pour aider son parent malade a été abordée dans deux fratries. Une autre participante adolescente a elle précisé avoir été formée par les médecins à la gestion des crises d'hypoglycémie de son père.

*Suzanne (11 ans) : « On prenait les courses, on montait, on redescendait, on reprenait les courses, on montait [...] des fois on a apporté des verres d'eau... »*

*Marion (8 ans) : « A chaque fois qu'elle doit enlever un mouchoir ça lui prend un temps fou (rit), du coup moi j'allais prendre une autre boîte et j'enlevais le mouchoir et je mettais sur la jambe et comme ça ma maman elle pouvait se servir. »*

Chloé (15 ans) : « J'ai dû apprendre à reconnaître quand il faisait des crises d'hypoglycémie et puis à savoir c'qu'il fallait faire. C'est pas très compliqué, mais apprendre ça à 10 ans [...] c'est pas qu'c'est pas normal mais tout l'monde ne sait pas faire ça. [...] d'un côté moi j'étais contente parc'que j'me disais [...] « j'vais pouvoir l'aider. »

Rose (18 ans) : « Je sais à peu près, je sais pas faire la piqûre de sucre, mais je sais qu'ça sert à rien, quand il commence à faire sa crise d'hypoglycémie, ça sert à rien que j'essaye de lui donner du sucre, vaut mieux qu'appelle les pompiers. »

Enfin les participant.e.s ont été nombreux.ses à caractériser le regard qu'ils.elles portaient sur leur parent malade. Certain.e.s ont dit de leur parent malade qu'il.elle était une personne comme une autre malgré ses particularités. Certain.e.s ont décrit de l'admiration, souvent associée à l'observation d'une grande force, de courage et de résilience face à la maladie et ses contraintes.

Johan (15 ans) : « Des fois j'ai l'impression qu'mon père c'est un super héros. »

Marco (13 ans) : « Il est comme tout l'monde. »

Céleste (18ans) : « C'est juste sa bonne volonté si... s'il est toujours vivant et en pleine forme quoi. De la volonté. »

Marie (38 ans) : « [C'est] quelqu'un qui est ultra fort, mais aussi qui s'bat perpétuellement et qui gagne, perpétuellement, contre sa maladie chaque jour. Chaque jour c'est une bataille de gagnée. »

#### **h) Ajustements à la maladie**

Plusieurs participant.e.s ont pu parler de la façon dont ils.elles s'ajustaient aux difficultés rencontrées. Plusieurs stratégies de gestion émotionnelle ont été énoncées, pouvant être associées ou non à de la recherche de soutien extérieur (notamment en parler avec des ami.e.s, sa fratrie, ses parents, la maitresse).

Olivia (11 ans) : « Mon ancienne maitresse et bah ça m'faisait du bien, [de lui parler de sa mère malade] ça m'donnait du courage. »

Lilas (11 ans) : « J'en parle à... soit à mes sœurs, soit à ma mère, ou des, quelques fois en fait, c'est à une copine que j'en parle. A.J. : Ouais ? Et ça fait quoi d'en parler ? Lilas : Bah ça m'soulage. »

Quelques adultes et quelques adolescent.e.s ont expliqué qu'ils.elles pouvaient oublier la maladie, ou qu'ils.elles n'y pensaient pas, notamment dans les moments où leur parent malade allait bien. D'autres ont, quant à eux.elles, parlé de leur prise de recul sur la maladie, notamment en grandissant ou grâce à des études dans le milieu médical, ou de leur capacité à relativiser les choses. Deux adolescentes et une jeune adulte ont raconté qu'elles cherchaient à se rassurer elles-mêmes dans certaines situations (en cherchant à comprendre, en faisant confiance aux équipes médicales en charge de leur parent malade), et l'une d'entre elles a précisé qu'elle cherchait aussi à rassurer sa petite sœur. Une fratrie de pré-adolescentes a mentionné le fait de se focaliser sur le présent pour mieux gérer la maladie de leur père. D'autres adolescentes et adultes ont également précisé qu'elles se sentaient mieux quand elles été informées sur ce qui se passait.

*Célia (28ans) : « J pense que par moment j'arrive à l'oublier [...] et p't-être aussi c'est ma manière de m'protéger. »*

*Agathe (24 ans) : « J pense que moi aussi ça m'a aidée à... prendre du recul sur la maladie et voir d'un côté mon père en tant qu'mon père, et d'un autre côté sa maladie en tant que pathologie. »*

*Julie (15 ans) : « Ça cogite beaucoup mais souvent y'a ma partie du cerveau qui dit « on n'en est pas là, ça sert à rien d'se stresser pour ça, profite de l'instant présent et après on verra le moment présent qu'est-c'qu'il faudra faire. Mais pas maintenant. »*

*Kathy (11ans) : « Quand il se sentira pas bien, je... bah j'y penserai. »*

D'autres stratégies ont été mentionnées comme se changer les idées, extérioriser, le fait de partir de chez son parent malade (participante adulte). Certaines adultes ont également parlé de leur suivi psychologique qui pouvait être un lieu pour aborder la question de la maladie du parent. Enfin quelques participantes ont mentionné avoir parfois demandé de l'aide ou du soutien émotionnel à leur famille, et d'autres ont pu dire en avoir reçu spontanément de personnes extérieures, notamment lors de crises.

*Violaine : « Mon oncle habitait juste en face en fait, et il est médecin, et [...] j crois qu'on l'avait appelé à c'moment-là, ma mère répondait pas et j crois qu'il nous a aidé. »*

*Céleste : « On était dans une espèce de ranch [...] avec mes sœurs, en fait il avait fait une crise d'hypoglycémie et on était petites du coup y'avait une famille qui s'était occupée d nous, qui nous avait dit d pas regarder parce que c'est hyper violent quoi. »*

## **i) Besoins et attentes**

Les participant.e.s ont pu exprimer certains besoin et attentes. Le besoin principal d'une majorité de participant.e.s est le besoin d'être informé.e et d'avoir des explications sur certains aspects de la maladie. Ainsi certaines participantes ont précisé qu'elles avaient besoin d'avoir des explications (sur la maladie en elle-même, la transmission génétique, comment la greffe est arrivée), notamment car savoir diminuait leur peur, leur permettait de se préparer aux moments difficiles et de savoir où trouver les ressources. Ils.elles ont été plusieurs à préciser comment il fallait expliquer et quel moment était le plus adapté pour parler aux enfants de la maladie (au fur et à mesure, en fonction des soins visibles ou quand les enfants questionnent et nommer la maladie au début du primaire). L'idée de recevoir une information simplifiée et adaptée à l'enfant (âge, personnalité), est beaucoup revenue, en lien avec les limites de compréhension des plus jeunes et ce que les participant.e.s ont vécu. En filigrane, le message de plusieurs étaient qu'ils.elles attendaient de meilleures explications et que les explications devaient venir des parents comme des professionnel.le.s de santé.

*Rose (18 ans) : « Ça s'rait bien que, dès petits, on nous en parle. Après pas forcément qu'on nous l'apprenne dès petits, mais qu'on nous en parle dès petits. »*

*Johan (15 ans) : « Leur expliquer régulièrement qu'est-c'que c'est etcetera. Si ils posent la question, leur expliquer avec des mots qu'ils peuvent comprendre, en fonction d leur âge. Et p'tit à p'tit j'pense ils vont comprendre. »*

*Michaël (13 ans) : « Il faudrait dire aux parents comment expliquer tout ça à leurs enfants, pour éviter qu'les parents, 'fin pas qu'ils commettent une gaffe, mais qu'ils leur expliquent petit à p'tit aussi. »*

*Violaine (18 ans) : « Il faudrait quand même mieux informer les enfants du diabète, peut-être mieux expliquer, parce que c'est quand même quelque chose d'assez complexe et on nous dit « c'est très, très simple ». Bah non, 'fin moi j'trouve pas... »*

*Léonie (13 ans) : « Il faudrait qu'y ait une personne qui p't-être, qui côtoie l'hôpital d notre maman, au lieu qu'ce soit notre maman qui nous explique, qui vienne un jour et qui commence à nous expliquer, qui entre guillemets « nous rassure », qui nous explique un peu plus c'qu'elle vit, pour qu'on comprenne un peu. »*

Plusieurs adolescentes et adultes ont en parallèle exprimé le besoin d'échanger avec d'autres enfants ayant un parent atteint de mucoviscidose. La demande n'était pas unanime et certain.e.s ont même pu dire ne pas avoir ce besoin. En revanche il apparaissait assez fort

pour celles qui l'ont exprimé et certaines ont suggéré de proposer des groupes de paroles à différents âges, même à l'âge adulte.

Enfin quelques adolescent.e.s et enfants n'ont pas identifié de besoins ou d'attentes lors des rencontres.

Léonie (13 ans) : « Y a quelque chose d'autre que j'lui avais déjà parlé y a longtemps : de rencontrer d'autres enfants de... de malades comme elle, pour pouvoir en parler entre nous, pour savoir comment elle vit ou il le vit [la maladie du parent] de son côté. »

Louise : « Quand j'étais p'tite face à une psychologue, [mes parents] ont pas réussi à m'faire parler. Et j pense que face à des enfants qui sont comme moi, dans la même situation, ça aurait été p't-être plus facile de mettre des mots sur c'que j'vivais. »

Célia : « J pense que ça aurait été bénéfique de comprendre comment les autres pouvaient le vivre aussi et de permettre aussi de... de grandir avec quelqu'un qui nous comprend. Parce que [...] on peut en parler à n'importe qui, même à des amies, même la famille, ils vont pas comprendre la situation dans laquelle on vit. »

## j) Interactions

Dans les groupes ou les entretiens de fratrie, des interactions simples ont été relevées, comme le fait d'être d'accord ou en désaccord avec le discours d'un.e autre participant.e. Dans les deux groupes, et plus fréquemment dans le groupe des adultes, certaines participantes ont posé directement des questions aux autres participant.e.s. Dans les fratries il y a eu également quelques moments où les participant.e.s finissaient la phrase d'un.e autre, ou complétaient des informations données par l'un.e ou l'autre. Enfin dans le groupe des adultes, une jeune femme a demandé aux autres si elles accepteraient de rester en contact à l'issue du groupe. Les participantes ont toutes acceptées la proposition et se sont mises en relation par mail.

## IV. Synthèse et discussion

### 1) Résultats - Ce qu'il faut retenir

Il ressort de cette analyse, que le niveau de connaissance sur la mucoviscidose est assez variable en fonction des enfants, ce qui nous semble notamment en lien avec les manifestations cliniques des parents. Ainsi, les parents souffrant principalement de leur

diabète ont tendance à laisser de côté les autres aspects de la maladie dans ce qu'ils.elles en disent à leurs enfants et ceux-ci sont beaucoup moins au fait des particularités de cette maladie. En revanche, les enfants semblent être bien au fait des raisons ayant conduit leurs parents à les avoir grâce à l'AMP ou l'adoption. L'AMP peut d'ailleurs générer des questionnements chez certain.e.s participantes.

La plupart des participant.e.s rapportent à quel point la maladie façonne le quotidien familial, avec une vie familiale qui s'organise autour des traitements et des contraintes du parent malade, une hygiène de vie rigoureuse, et parfois l'absence du parent malade à cause des soins. Les enfants notent également que la maladie génère des difficultés pour leur parent malade (souffrance, poids des traitements), et pour le parent non malade qui porte souvent beaucoup pour compenser les capacités limitées du ou de la patient.e. D'un point de vue plus personnel, certain.e.s participant.e.s évoquent un impact de la mucoviscidose sur leur relations sociales (isolement, manque de compréhension des autres), sur leur propre parentalité (test génétique et type de relation avec l'enfant), et de façon très peu détaillée sur leur scolarité (absence, faire les devoirs chez le ou la kinésithérapeute).

En termes d'expérience de la maladie, presque tous les enfants ont, de façon plus ou moins explicite, exprimé un sentiment de norme vis-à-vis de la maladie parentale. Ils.elles n'ont pas connu leur parent autrement, ils.elles sont habitué.e.s et, pour certain.e.s, ne sont pas gêné.e.s par la maladie. Plusieurs rapportent avoir été confronté.e.s à des épisodes de dégradation (qu'ils.elles savent inéluctables), ou à des crises aiguës. Certain.e.s ont également observé les améliorations de qualité de vie ou de santé grâce aux progrès de la prise en charge. Concernant les traitements, ils.elles sont nombreux.se.s à y participer, souvent de façon volontaire. Certain.e.s souhaitent également participer aux rendez-vous avec les médecins, et d'autres rapportent des liens étroits avec les soignant.e.s du parent. Il ressort également que plusieurs enfants ne se sentent pas différents des enfants n'ayant pas de parent malade, mais ils.elles sont aussi plusieurs à noter des particularités : soit de leur parent par rapport aux autres parents (notamment sur les activités faisables), soit de leur rapport à leur parent (plus attentifs que les autres enfants), soit dans leur rapport au domaine de la santé (plus éduqués et habitués). Les participantes les plus âgées rapportent elles le sentiment d'avoir eu une enfance différence, avec un manque d'insouciance. Enfin, plusieurs participant.e.s se questionnent sur la mort de leur parent, notamment sur sa possible prématurité et l'organisation de la vie sans le parent.

On a pu également constater que tou.te.s les participant.e.s ont été ou sont confronté.e.s à des émotions douloureuses à cause de la maladie parentale : inquiétude et angoisse concernant la santé du parent malade, peur lors de crises ou d'épisodes de dégradation, anticipation anxieuse de la dégradation, peur de certains traitements, tristesse face à l'absence du parent, difficulté à profiter du moment car état du parent toujours moins bon qu'avant, impuissance, sensation de fardeau, difficultés à se sentir compris.e par l'entourage. Il apparaît que l'inquiétude pour la santé du parent est pour beaucoup relativement permanente, mais les autres émotions sont généralement plus situationnelles.

La maladie du parent est parfois apprise au détour d'une discussion ou d'un événement particulier, mais beaucoup d'enfants n'identifient pas de moment précis car la maladie a toujours été visible et nommée. Les participant.e.s rapportent apprendre sur la maladie principalement grâce aux récits des deux parents. On observe en revanche beaucoup de disparités quant à leurs capacités ou envie d'en parler en famille ou à l'extérieur. Certain.e.s rapportent recevoir du soutien en en parlant à l'extérieur (ami.e.s, enseignant.e.s), mais deux fratries se sont heurtées à des remarques blessantes de la part d'autres enfants (moqueries ou non croyance de la maladie parentale).

Les rapports entre les participant.e.s et leur parent malade apparaissent majoritairement de bonne qualité, malgré quelques reproches (ex : surprotection), plusieurs participant.e.s portent même un regard admiratif sur leur parent malade. En parallèle, certain.e.s participant.e.s rapportent une envie d'aider leur parent sans savoir trop comment faire, d'autres décrivent être ou avoir été dans des rapports d'aidance (tâches domestiques), d'autres ne pas l'être du tout, et une adolescente a été formée à la gestion des crises d'hypoglycémie de son père.

Les stratégies d'ajustement évoquées par les participant.e.s sont principalement tournées vers la gestion des émotions (réassurance, ne pas y penser, se divertir, relativiser, se focaliser sur le présent) et recevoir du soutien social (parler de ses difficultés avec d'autres). Certaines participantes ont précisé qu'avoir de l'information sur ce qui se passait baissait leur niveau d'inquiétude. Ceci est en lien avec le principal besoin exprimé par les participant.e.s. Il y a une grosse attente des participant.e.s à être informé.e.s et correctement informé.e.s. L'information doit venir tant des parents que des professionnel.le.s et doit être adaptée à l'âge de l'enfant. Enfin, certain.e.s participant.e.s souhaiteraient également pouvoir échanger avec d'autres enfants dans leur situation.

## 2) Limites et perspectives

Il est intéressant de noter que les résultats de ces analyses confirment de nombreux propos rapportés par les parents sur le vécu de leurs enfants, notamment les inquiétudes, la participation aux soins, l'aidance, ou la communication voulue mais pas toujours évidente.

Concernant la communication, nous pouvons faire le lien avec ce qui est ressorti de l'étude MucoPar : les patient.e.s communiquent principalement sur ce qui les gêne au quotidien et pour différents motifs, laissent le reste de la maladie dans le flou, voire cachent la maladie. Les cliniciennes que nous sommes s'interrogent forcément sur ces observations, puisqu'il est reconnu que ne pas dire aux enfants a plutôt tendance à empirer leur état émotionnel. Les résultats de MucoKids sont d'ailleurs un plaidoyer dans ce sens. De plus, au-delà du quotidien, certains aspects de la maladie (notamment la génétique pour les enfants biologiques), concernent directement les enfants. Il paraît important que ceux-ci soient correctement informés sur ces questions. Ainsi la prise en charge dans les CRCM des patient.e.s parents gagnerait à développer des consultations dédiées aux enfants. Elles peuvent par exemple être systématisées à partir d'un certain âge de l'enfant. Nous suggérons par exemple une consultation à l'entrée en primaire pour (ré)expliquer à l'enfant la maladie et une consultation à 15-16 ans pour faire un point sur ce que cela implique pour l'adolescent.e d'être porteur.se du gène CFTR. En s'appuyant sur ce qui a pu être proposé dans le cadre d'autres maladies (Geertz et al., 2023; Han et al., 2019; Horner, 2013; Malinowski et al., 2025), des ateliers avec une équipe pluridisciplinaire pourraient également être organisés et permettraient de rassembler les enfants entre eux. Des groupes de paroles menés par les psychologues des CRCM pourraient également être développés pour les enfants. Enfin, ceux-ci devraient pouvoir être accompagnés dans les CRCM en cas de besoins psychologiques. La limite à toutes ces propositions étant bien entendu que les parents acceptent de parler de leur maladie.

A ce niveau, le développement d'outils de communication doit se poursuivre. Des journées de rencontres entre parents gagneraient à être organisées régulièrement. A l'image de celle de novembre 2024 (Vaincre la Mucoviscidose, 2024b), elles permettraient aux parents de recevoir des informations sur l'intérêt de parler de la maladie à leurs enfants et des conseils pratiques pour le faire. Ces journées favoriseraient aussi la mise en lien entre parents malades

et entre conjoint.e.s de parents malades, mise en lien régulièrement demandée dans les études.

Enfin, concernant plus spécifiquement les enfants, ces résultats sont riches, mais appellent de nombreuses nouvelles investigations. Il paraît ainsi essentiel d'aller investiguer plus précisément l'impact psychosocial de la maladie du parent sur les enfants. Des mesures des troubles anxio-dépressifs, de qualité de vie, et leur impact sur les relations sociales sont à effectuer, tant pour évaluer où se situent ces enfants que pour les comparer à des enfants contrôles (sans parent malade) ou à des enfants ayant un parent atteint d'une autre maladie. Ces données quantitatives pourront aider à préciser les besoins en soins de support de ces enfants.

Il apparaît également important de chercher à évaluer le niveau d'aidance des enfants. Dans notre échantillon, celle-ci semble assez limitée, mais il est important de la repérer car les études ont montré qu'elle était souvent sous-estimée, même par les personnes concernées, et qu'elle pouvait avoir des conséquences dramatiques sur les enfants (Untas & Dorard, 2024). Enfin, à l'image de leurs parents, il est possible que les enfants de patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose aient développé des stratégies de coping particulières ou supplémentaires. Il serait intéressant d'investiguer cet aspect et bien sûr de vérifier l'efficacité de ces stratégies.

Notre étude comporte bien évidemment certaines limites, au rang desquelles les limites méthodologiques des études qualitatives avec les plus jeunes. En effet, certains enfants jeunes ont réussi à être très informatifs malgré leur jeune âge. D'autres ont pu trouver l'exercice plus difficile et certains ne semblent pas avoir été aidés par les supports proposés, ayant tendance à basculer trop dans le jeu. Ces aspects n'ont rien d'exceptionnels avec ce public, mais soulèvent néanmoins des interrogations sur les aménagements qui auraient pu être proposés. Néanmoins, en tant que cliniciennes, nous pouvons aussi considérer que tous les enfants se sont sentis suffisamment à l'aise pour jouer avec la chercheuse et leur parler de leur quotidien. Que les jeunes participant.e.s n'aient pas été très informatif.ve.s sur la maladie de leur parent est aussi un résultat en soi, probablement révélateur du fait que la maladie ne soit pas au premier plan dans leurs préoccupations et leur quotidien, ou alors qu'elle soit très intégrée.

Nous pouvons également relever l'hétérogénéité des âges de l'échantillon. Cela nous a permis d'avoir des analyses représentatives des différentes tranches d'âge et d'observer des thématiques communes à tous âges, et une forme d'expérience commune sur la durée

lorsqu'on confronte les vécus rétrospectifs des enfants les plus âgés à l'expérience en cours des plus jeunes. Cependant, étant donné les évolutions de la prise en charge de la mucoviscidose, nous pouvons supposer que l'expérience des adultes et des adolescent.e.s de notre étude ne correspondra pas à celle à venir des enfants plus jeunes. La généralisation des modulateurs entraînera probablement des différences encore plus importantes que celles liées à l'amélioration des traitements de fond. De plus, dans notre échantillon où 75% des parents malades ont été mis sous modulateurs, certains enfants observaient des améliorations de l'état de santé (notamment sur la toux). Cela appelle à de nouvelles études sur les enfants de parents sous modulateurs depuis quelques années. Des études comparatives avec ceux dont les parents ne peuvent pas (encore) bénéficier de ces thérapies protéiques, pourront également être très informatives sur l'effet des modulateurs en termes de vie de famille.

Enfin, la question de la communication sur la maladie doit être également pensée en lien avec la généralisation des modulateurs. Nos résultats peuvent nous amener à supposer qu'en ayant moins de manifestations cliniques, les parents seront amenés à moins communiquer sur leur maladie, alors que celle-ci sera pourtant toujours là ainsi que la question de la transmission génétique.

Nous espérons que cette première étude mondiale sur les enfants de parents atteints de mucoviscidose ouvrira la voie à un nouveau champ de recherches, et permettra de mieux prendre en compte les enfants, voire de proposer des innovations dans la prise en charge des patient.e.s parents dans les CRCM.

# PARTIE DISCUSSION

Parentalité et Mucoviscidose :

Identifier les obstacles et les  
ressources parentales –

Accompagner les difficultés  
émotionnelles des enfants.

Notre étude MucoPar va largement dans le sens des résultats de plusieurs études qualitatives en relevant la coexistence d'une expérience globalement positive avec de nombreux défis pour les parents et leurs conjoint.e.s au quotidien. Elle a montré que de nombreux ajustements étaient mis en place au niveau familial, avec l'utilisation de stratégies organisationnelles et plutôt pragmatiques, un recours important au soutien social et des questionnements sur la façon de communiquer sur la maladie avec les enfants. Les patient.e.s rapportent également de nombreuses émotions négatives, notamment un important sentiment de culpabilité, avec lesquelles ils.elles semblent parfois plus démuni.e.s. Ils nous ont d'ailleurs moins rapporté de stratégies d'ajustements sur le sujet. En parallèle, les parents nous ont longuement parlé de la façon dont ils.elles étaient devenu.e.s parents, soulignant les difficultés rencontrées. Nous pouvons ainsi retenir deux grands aspects à notre recherche : la difficulté à devenir parent et l'expérience positive de la parentalité.

Avec cette discussion nous souhaitons explorer ces deux pôles et proposer des facteurs explicatifs aux difficultés du premier et à l'expérience globalement positive du second.

En parallèle, les échanges avec les enfants de MucoKids ont permis de corroborer certaines perceptions des parents, notamment la normalisation de la maladie et du quotidien avec la maladie et l'inquiétude vis-à-vis de la santé du parent. Les enfants rapportent en effet des difficultés émotionnelles qui semblent les mobiliser plus que le reste, auquel ils.elles sont habitué.e.s. Cette discussion permettra d'explorer les facteurs liés à ces difficultés émotionnelles des enfants et les questions de communication sur lesquelles des besoins persistent.

## **I. L'accès à la parentalité qui fait souffrance**

La façon dont ont été formulées les questions dans nos rencontres a amené les parents à parler longuement de la question de leur accès à la parentalité, et parfois certaine.s en ont parlé plus que de leur parentalité elle-même. Ce point semble cristalliser le plus de difficultés pour une majorité de participant.e.s, patient.e.s et conjoint.e.s confondu.e.s, notamment celles et ceux qui ont eu recours à l'AMP et l'adoption.

La généralisation des modulateurs de CFTR améliorant la fertilité des femmes, nous observerons probablement une évolution de l'expérience générale de l'accès à la parentalité des patient.e.s. Néanmoins de nombreux.ses patient.e.s continueront à avoir recours à l'AMP

pour devenir parents. En effet, les hommes restent infertiles pour la très grande majorité, certaines femmes hypofertiles et certain.e.s conjoint.e.s sont porteurs d'une mutation CFTR qui amènera le couple à avoir recours à l'AMP pour pouvoir faire un diagnostic pré-implantatoire. L'AMP ayant donc des chances de rester un moyen fortement plébiscité par les patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose souhaitant devenir parent, il nous paraît important d'observer les différents facteurs concourant à rendre l'expérience difficile et négative.

Avoir recours à l'AMP confronte la plupart des couples à certaines difficultés identifiées. Certaines sont liées aux protocoles en eux-mêmes : ils demandent parfois des interventions invasives et les traitements stimulateurs sont souvent accompagnés d'effets secondaires désagréables. Cela peut avoir un impact négatif sur leur qualité de vie (QdV), leur bien-être physique, leur sommeil, leur santé mentale (troubles de l'humeur, stress, somatisation entre autres), certains aspects étant majorés par les types de traitements ou par des facteurs personnels (âge, durée du parcours d'AMP) (Skvirsky et al., 2019; D. Song et al., 2024; Toftager et al., 2018). Ainsi plusieurs des participant.e.s de l'étude MucoPar (patient.e.s comme conjoint.e.s), n'ont pas manqué de rapporter que cela pouvait être éprouvant physiquement, particulièrement pour les femmes. En parallèle, le taux d'échec des protocoles reste élevé, et les couples sont donc parfois confrontés à une succession d'échecs ayant un impact psychologique important (Jain, Kazmerski, et al., 2022). De plus, les études ont rapporté que l'échec d'une tentative augmentait le niveau de détresse émotionnelle des femmes (dépression, anxiété, émotions négatives) et que celle-ci empirait au fur et à mesure des échecs (Efua, 2024; Verhaak et al., 2007). Les études sur les hommes sont moins nombreuses, mais quelques-unes ont également révélé les difficultés psychologiques rencontrées par les pères infertiles ou stériles (Johansson et al., 2010, 2011). Dans notre échantillon plusieurs participant.e.s ont vécu des échecs de tentatives d'AMP et ont fait part de leur vécu douloureux, qu'ils.elles aient vécu un ou plusieurs échecs. Certain.e.s ont parfois suivi des années de protocole d'AMP, et les échecs répétés ont conduit deux patients et leurs conjointes à renoncer et à se tourner vers l'adoption.

De plus, suivre des protocoles d'AMP demande du temps, temps qui est pris soit sur les moments de repos, soit sur le temps de travail avec la pose de congés. Une étude sur 319 personnes a ainsi relevé que, sur 18 mois de procédure d'AMP, les individus y consacraient en moyenne 15,6 jours de leur temps (en considérant qu'un jour équivalait à 8h de travail) (Wu et al., 2013). De plus, quelques patient.e.s ont fait part de difficultés supplémentaires en lien

avec leur éloignement géographique des centres d'AMP, généralement situés dans les métropoles françaises. Pour ces dernier.e.s, l'AMP peut alors avoir un coût financier (déplacements) et un coût temporel très élevés.

Ces difficultés sont communes aux personnes ayant recours à l'AMP en France ou à l'international, mais certains aspects peuvent être liés aux différents contextes nationaux. Ainsi, dans de nombreux pays, une des principales difficultés est le coût de l'AMP (Kyei et al., 2020), problématique à laquelle notre échantillon n'a pas été confronté grâce à la politique de remboursement de l'AMP en France. En effet, dans notre pays, l'AMP souhaitant pouvoir répondre aux projets parentaux, s'inscrit à plusieurs niveaux dans l'idée de la solidarité procréatrice. Dans ce sens, la loi de bioéthique de 2019 a ainsi permis l'accès à la parentalité pour une majorité de citoyen.ne.s français.e.s (à l'exception des couples d'hommes), ayant besoin de recourir à l'AMP (Tuffin et al., 2021). L'AMP est largement remboursée et bien mieux que dans une majorité de pays. Cela représente un avantage indéniable pour des personnes avec des taux d'infertilité aussi élevés que les personnes atteintes de mucoviscidose. Il est d'ailleurs probable que cette mesure explique en elle-même la proportion majoritaire d'enfants conçus grâce à l'AMP dans nos échantillons (58% des enfants dans l'étude MucoPar, 74% dans l'étude MucoKids), alors que notre revue de littérature avait relevé une majorité d'enfants nés suite à des grossesses spontanées. Cette chance en termes d'accès à l'AMP peut en revanche s'accompagner d'effets indésirables impactant l'expérience des usagers de l'AMP. Nous pensons notamment au fait que les services publics d'AMP sont souvent des services de taille conséquente, situés dans les CHU des métropoles françaises et accueillant un très grand nombre de personnes. Si comme nous l'avons évoqué, l'accès n'est pas égal pour les personnes vivant loin de ces centres, les usager.e.s sont également confronté.e.s au contexte d'austérité budgétaire des hôpitaux publics et de la crise hospitalière actuelle (manque de lits, manque de soignant.e.s) (Dormont, 2024). Cela impacte les conditions de prise en charge, pas forcément sur le plan technique, mais sur le plan humain, contribuant à une mauvaise expérience pour les usager.e.es. Ainsi, certain.e.s de nos participant.e.s nous ont parlé « d'usine à bébés » et de la déshumanisation qu'ils.elles avaient ressentie dans ces services. Il est à noter que les patient.e.s sont généralement habitué.e.s des hôpitaux, mais les CRCM sont des lieux de soins un peu à part, où les équipes sont connues des patient.e.s et ont du temps. Il est donc possible que le décalage entre les deux types de services contribue à une perception plus négative des services d'AMP. Les personnes ont néanmoins la possibilité d'avoir recours à

l'AMP dans des cabinets ou des cliniques privés, avec des dépassements d'honoraires par rapport aux remboursements proposés par la sécurité sociale. Quelques participant.e.s de notre étude y ont eu recours, notamment une patiente suite à une très mauvaise expérience dans le public. Ces éléments permettent de comprendre que le contexte de la politique de santé française au sujet de l'AMP peut contribuer à la fois à favoriser l'accès des personnes atteintes de mucoviscidose, mais également être à l'origine de difficultés supplémentaires dans l'expérience de l'AMP.

Tous ces facteurs rencontrent ensuite bien évidemment les facteurs individuels des personnes ayant recours à l'AMP et les facteurs spécifiques au fonctionnement dyadique des couples. Ces facteurs peuvent ainsi améliorer ou empirer l'expérience de l'AMP des individus. Certaines difficultés inhérentes à l'AMP peuvent donc être adressées par les équipes (gestion des difficultés physiques et psychologiques), alors que d'autres (manque de temps de équipes, distance géographiques), plus systémiques, sont plus difficiles à adresser. Néanmoins, en observant les personnes ayant adopté, on perçoit que celles-ci semblent avoir été moins impactées par les difficultés liées au processus (longueur et enquête réalisée sur les parents souhaitant adoptés). Les difficultés rapportées étaient plutôt en lien avec le fait de prendre la décision d'adopter ou de dire ou cacher la mucoviscidose aux personnes chargées de donner l'agrément. Les participant.e.s semblaient plus en paix, car probablement préparé.e.s aux difficultés classiquement associées à l'adoption. Ces éléments nous confortent dans l'idée de proposer un accompagnement à l'AMP, notamment pour permettre aux patient.e.s et leurs conjoint.e.s de s'y préparer.

Ces considérations cliniques ne doivent pas éclipser le besoin de recherches à ce niveau. Ainsi, des études pour évaluer concrètement, notamment de façon quantitative, l'expérience de l'accès à la parentalité et le retentissement de l'AMP sur les couples (impacts psychosociaux notamment), s'imposent selon nous pour mieux observer ce qui se joue pour les patient.e.s et leurs conjoint.e.s.

Que ce soit sur le plan clinique ou le plan empirique, l'accès à la parentalité des patient.e.s via l'AMP représente donc selon nous un enjeu à prendre en compte prioritairement par les équipes des CRCM et les équipes de recherche.

## II. La parentalité une expérience positive ? Normalité, ajustements et bien-être comme facteurs explicatifs.

A la vue de tous les défis et toutes les difficultés rencontrées par les parents atteint.e.s de mucoviscidose, que ce soit dans nos études où les précédentes études qualitatives sur le sujet (A. Jacob et al., 2021; Schenkel et al., 2024; Stransky et al., 2023, 2024), il apparaît étonnant de constater qu'en parallèle, le sentiment général dominant pour ces personnes, est une expérience positive de la parentalité. Nos groupes et entretiens nous ont également donné la sensation suivante : ces personnes sont foncièrement heureuses d'être parents.

Pourtant, notre travail montre bien que ces personnes ne se cachent pas derrière les aspects positifs pour éluder les expériences compliquées ou douloureuses. Elles semblent avoir embrassé l'ambivalence de leur position et en tirer autant de bénéfices que possible.

Pour tenter de mieux comprendre les mécanismes à l'œuvre, nous allons questionner cette positivité à la lumière de trois champs théoriques : la question identitaire, l'adaptation au stress, et le bien-être parental.

### 1) Être parent avant tout – La parentalité qui normalise

Au tout début de son entretien, juste après avoir exprimé sa joie d'être mère, Florence prononce les mots suivants : « *[être parent permet] aussi d'oublier la maladie, parce que quand on est parent, on peut être parent muco, mais on est parent avant tout* ». La fin de sa phrase semble illustrer un phénomène identitaire potentiellement à l'œuvre chez plusieurs participant.e.s : la parentalité passe au premier plan et met la maladie au second.

Nous l'avons vu, l'émergence de l'identité parentale vient bouleverser le fonctionnement identitaire des individus, d'autant que cette identité va prendre une place considérable, au détriment d'autres identités (Goodman, 2018). Etant donné le retentissement de la mucoviscidose sur la vie des patient.e.s, nous pouvons supposer que l'identité « personne malade » prend beaucoup de place chez les personnes atteint.e.s de mucoviscidose. Or cette identité n'est pas choisie, bien souvent subie et peut être investie assez négativement, en atteste notamment la prévalence des troubles psychologiques chez les patient.e.s (Quittner et al., 2014).

« Être parent avant tout », et donc être parent avant d'être malade. Nous pouvons supposer qu'au cours de cette transformation identitaire, la parentalité permet aux patient.e.s

de se définir au travers d'une nouvelle identité forte, une identité choisie, pourvue d'une haute valeur sociale. Cette nouvelle identité permet alors de mettre de côté, ou du moins de rendre moins saillante, l'identité de malade, partie de soi généralement non désirée. Cette éclipse de l'identité de malade, associée aux représentations positives de la parentalité pourrait ainsi être un facteur important expliquant un vécu particulièrement positif du changement identitaire (Cast, 2004).

De plus, cette nouvelle identité est largement partagée par les autres individus, celles et ceux qui ne sont pas malades. Pour les patient.e.s qui se vivent bien souvent comme différent.e.s depuis toujours du fait de leur maladie, être parent les relie aux autres. Ainsi, comme le relèvent certaines études sur la parentalité avec d'autres maladies, devenir parent donne accès à une certaine normalité (Holstad et al., 2025; Parchomiuk, 2014). Là où être malade stigmatise, être parent normalise. Selon la revue de littérature sur la prise de décision d'être parent, la normalisation est d'ailleurs une des premières motivations à avoir des enfants, invoquées par les patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose (Vanhollebeke & Van Steijvoort, 2025). Les patient.e.s rapportent que la parentalité leur apporterait un sentiment de normalité et leur permettrait d'être traité.e.s comme les non malades.

De plus, il paraît probable que les patient.e.s aient tendance à considérer la parentalité comme un aspect normal de la vie, ce qui s'avère être est un facteur protecteur pour mieux vivre la transition de la parentalité (Barimani et al., 2017). Se sentir plus « normal », et vivre une expérience normale de la vie pourraient ainsi être des facteurs explicatifs de la perception positive de la parentalité des patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose.

Nous voyons ici un champ passionnant à explorer sur le plan empirique, en lien avec les études s'intéressant aux changements identitaires provoqués par la parentalité, ou celles étudiant la parentalité comme expérience transformative. Ces dernières mériteraient d'observer si le fait d'avoir une maladie chronique depuis l'enfance pourrait être un facteur influençant le vécu de l'expérience de la parentalité, ou un facteur protecteur dans la survenue de difficultés psychologiques, en explorant notamment le sentiment de normalisation comme un facteur médiateur.

### La part de normalité qui reste inaccessible et fait souffrance

Cependant, nous notons dans le discours des patient.e.s que la question de normalité est aussi utilisée à un autre niveau : être un parent normal, offrir un quotidien ou une enfance normale à leurs enfants. En fonction de leurs représentations de ce que doit être ce quotidien normal entre parents et enfants, cette question de la normalité peut parfois se retourner contre eux. Confronté.e.s à certaines de leurs incapacités à atteindre cette norme, cela peut selon nous être à l'origine de certaines de leurs émotions négatives sur le sujet, notamment la culpabilité si souvent exprimée.

En parallèle, la question de la normalité se retrouve également dans un thème qui nous a surprises dans sa fréquence : la question de l'accès à la propriété. Plusieurs études ont montré des liens entre le fait de devenir parent et l'accès à la propriété, dans la culture occidentale ou d'autres (Lennartz et al., 2016; Mu et al., 2022; Mulder, 2006; Tocchioni et al., 2021), et ce bien que depuis la crise économique de 2008, l'accession à la propriété des jeunes adultes diminue dans les pays Européens (Lennartz et al., 2016; Tocchioni et al., 2021). L'association entre les deux s'observe dans le sens où les propriétaires ont généralement plus d'enfants et où les couples cherchent généralement à être propriétaires avant d'être parents pour assurer une stabilité à leur famille (Mu et al., 2022; Mulder, 2006). Nous pouvons supposer que de tels liens existent dans les représentations des personnes de nos échantillons. Or, l'accession à la propriété pour les personnes atteintes de mucoviscidose (ou autre maladie grave) n'est malheureusement pas possible dans les mêmes conditions que pour les personnes non malades. En France pour obtenir un prêt immobilier, une assurance emprunteur est généralement exigée, or les assurances de prêts bancaires exigent un dossier médical à partir d'un certain montant (Service-public.fr, 2022). Dans notre échantillon, les personnes ont généralement dû accepter soit de ne pas être assurées lorsque leur conjoint.e pouvait l'être, soit de renoncer à leur projet. Les participant.e.s de notre étude, dont la plupart se sont déjà heurté.e.s aux difficultés à devenir parent, ont ainsi été confronté.e.s à une nouvelle épreuve les renvoyant à leur statut de malade. Dans une recherche de normalisation via la parentalité, cette expérience a souvent été vécue comme stigmatisante. Cette question illustre à quel point la question de la norme associée à la parentalité est importante pour les patient.e.s. Se heurter à des rappels non anticipés de leurs différences à cause de leur maladie est souvent violent.

Depuis 2022, la convention Aeras permet de réguler les conditions dans lesquelles un dossier médical est exigé pour un prêt bancaire. Elle impose notamment un droit à l'oubli pour

certaines maladies (cancer) et une grille de références pour les autres maladies, afin d'encadrer les conditions d'assurance et les surprimes exigées par les assureurs. Dans cette grille de référence (Site officiel de la convention Aeras, 2023), on observe que les personnes atteintes de mucoviscidose peuvent être assurées notamment si elles ont moins de 40 ans, ne sont pas transplantées, ne présentent pas de diabète, n'ont pas certaines colonisations bactériennes, ont un IMC et un VEMS minimum etc. De plus, l'assurance décès peut faire l'objet d'une surprime jusqu'au plafond de 400%. Malgré une amélioration du contexte depuis la tenue de notre étude MucoPar, on constate à quel point cette liste exclut toujours de nombreux.se.s patient.e.s, notamment les greffé.e.s et tou.te.s celles et ceux atteint.e.s de diabète (environ 50% des patient.e.s de plus de 30 ans). Le maintien d'un meilleur état de santé général grâce à la généralisation des modulateurs de CFTR devrait permettre à de plus en plus de jeunes patient.e.s d'être éligibles à l'âge adulte. Néanmoins, cette question risque de continuer à être problématique pour plusieurs patient.e.s pendant les prochaines années. Ainsi, elle mériterait de faire l'objet d'une information à destination des jeunes adultes atteints de mucoviscidose, au même titre que les autres problématiques auxquelles leur maladie risque de les exposer dans leur vie d'adultes. Celle-ci peut être proposée lors d'ateliers pendant les journées des patient.e.s organisées par les associations, ou faire l'objet d'information écrite (livret par exemple).

## 2) L'ajustement au stress

### a) La mucoviscidose : facteur d'ajustement et de résilience ?

En parallèle de la question identitaire ou de normalité, la question de l'ajustement au stress nous semble particulièrement intéressante à explorer. En effet, en observant d'un côté les contraintes imposées par la mucoviscidose et de l'autre celles de la parentalité, la liste de stressseurs paraît immense. Si l'on se rapporte au modèle du stress parental (Roskam & Mikolajczak, 2015), la maladie peut générer des stressseurs concomitants aux stressseurs parentaux, mais elle infuse également une grande partie des antécédents. Si ces antécédents peuvent être source de difficultés (manque de capacités physiques, fatigue etc.), la maladie peut également être à l'origine d'antécédents plus positifs, notamment en termes d'ajustement. Contrairement à la population générale, les patient.e.s atteint.e.s de maladie chronique depuis l'enfance comme la mucoviscidose sont, pour la plupart, amené.e.s à gérer

des contraintes et des stressors depuis toujours et à mettre en place des ajustements dès la prime enfance (Jamieson et al., 2014; Somanadhan et al., 2023). Ainsi, ils.elles développent et perfectionnent des capacités d'ajustement bien avant d'être parents, (du moins pour la très grande majorité des patient.e.s diagnostiqué.e.s avant) qui leurs sont utiles une fois parents. Cette idée se retrouve d'ailleurs dans le discours des parents cardiaques, qui rapportent utiliser les stratégies d'ajustement qu'ils.elles avaient mis en place en tant que patient.e.s (Holstad et al., 2025).

Un outil a été créé au début des années 2000 pour évaluer les stratégies de coping des patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose, notamment pour améliorer la prise en charge des patient.e.s (repérer les stratégies délétères et accompagner à la mise en place de stratégies efficaces) (Abbott et al., 2001). Il a permis d'identifier chez ces patient.e.s quatre grands types de coping : l'acceptation optimiste (approche cognitive : posture déterminée et positive pour faire face à la maladie), l'espoir (approche émotionnelle avec l'idée que les choses vont aller pour le mieux), la distraction (approche comportementale d'évitement actif pour oublier la maladie) et évitement (évitement et passivité face à la maladie). L'acceptation optimiste était la stratégie la plus utilisée lors de la création de l'échelle, suivie par l'évitement, l'espoir, puis la distraction. L'acceptation optimiste et l'espoir apparaissent liés à une meilleure adhérence thérapeutique (Abbott et al., 2001). L'acceptation optimiste est associée à une meilleure QdV, plus d'émotions positives, un meilleur fonctionnement social (Abbott et al., 2008), et une plus longue espérance de vie (Abbott et al., 2023). De façon générale les stratégies d'évitement et de distraction sont corrélées avec une moins bonne adhérence, une moins bonne QdV et une mortalité plus précoce (Abbott et al., 2001, 2008, 2023). L'utilisation du questionnaire Brief COPE<sup>42</sup> a permis d'observer que chez les patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose la religion, le coping instrumental, et l'acceptation étaient associés à une meilleure QdV émotionnelle et le coping actif à une meilleure QdV sociale (Mc Hugh et al., 2016).

Les stratégies rapportées majoritairement par les patient.e.s de MucoPar semblent rentrer dans les catégories ayant les meilleurs impacts sur leur QdV. En effet, toutes les stratégies organisationnelles du quotidien rentrent dans le spectre de l'acceptation optimiste et du coping instrumental. La notion d'espoir était également présente dans certains de nos contenus, notamment avec les objectifs fixés par certains parents de rester en vie le plus

---

<sup>42</sup> Brief COPE : questionnaires permettant d'évaluer rapidement les stratégies de coping (Carver, 1997).

longtemps possible. Nous pouvons donc faire l'hypothèse que les personnes de notre échantillon étaient des patient.e.s avec des stratégies d'ajustement fonctionnelles, sur lesquelles elles se sont appuyées dans leur parentalité. De plus, si l'on considère qu'être mère avec une maladie est associée à l'utilisation de plus de stratégies de coping (White et al., 2009), on peut supposer que les parents de notre échantillon utilisent un panel de stratégies plus fourni et varié que d'autres parents non malades.

Il nous semble pertinent de faire le lien entre les stratégies d'ajustement et la notion de résilience. La résilience renvoie à la capacité des individus à vivre de façon satisfaisante malgré des circonstances difficiles ou traumatiques. Il nous paraît intéressant d'explorer l'idée que d'utiliser plus de stratégies d'ajustement et surtout d'utiliser des stratégies efficaces confèrent aux patient.e.s une certaine résilience générale et offre potentiellement une plus grande capacité de résilience face aux stressors associés à la parentalité.

Depuis les années 2010, quelques études se sont intéressées à la question de la résilience chez les patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose, et plusieurs ont ainsi souligné de meilleures capacités de résilience dans cette population, en comparaison de la population générale (Hofer et al., 2012; Mitmansgruber et al., 2016; Rabanser et al., 2015; Weldon et al., 2019). Néanmoins ce domaine est encore en plein essor, et peu d'articles ont été publiés sur le sujet. Cependant ces derniers, ainsi que les résumés de communication en congrès sur le sujet, détaillent plusieurs ressources dont de nombreux.ses patient.e.s sont doté.e.s. Des études montrent qu'une meilleure résilience chez les patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose est associée à un meilleur état psychologique (moins de symptômes anxieux et dépressifs) et une meilleure QdV (Mitmansgruber et al., 2019; Rabanser et al., 2015).

Ces données apportent des éléments pour soutenir l'hypothèse qu'une fois devenu.e.s parents, les patients peuvent s'appuyer sur les capacités de résilience développées dans le cadre de la maladie ainsi que sur les stratégies d'ajustement déjà éprouvées.

La mucoviscidose semble être un élément favorisant la résilience, ce qui nous permet de supposer qu'elle pourrait être un facteur de protection face aux stressors de la parentalité. Cette hypothèse est relativement à contre-courant des représentations actuelles de la parentalité avec une maladie chronique et mérite selon nous d'être éprouvée empiriquement. Il pourrait notamment être intéressant d'analyser quantitativement la résilience des parents atteints de mucoviscidose en comparaison de celle des parents sans maladie, en évaluant les stratégies d'ajustement des deux populations, et/ou en explorant la résilience face à certains

stresseurs de la parentalité (Roskam & Mikolajczak, 2015) (ceux concernant les parents : transition vers la parentalité, exigences du parent envers lui-même et projections de ce qu'est être un bon parent). Des études longitudinales observant les évolutions de l'ajustement des parents atteint.e.s de mucoviscidose nous paraissent également pertinentes à mener.

Les patient.e.s sont de plus habitué.e.s à recourir à du soutien social, d'autant que la question du tissu social sur lequel s'appuyer une fois parent est souvent anticipée en amont et rentre même en compte dans la prise de décision de devenir parent (Vanhollebeke & Van Steijvoort, 2025). Le fait d'avoir un couple solide apparaît d'ailleurs comme le premier pré-requis en termes de soutien social, pour pouvoir s'engager dans la parentalité. Si plusieurs sources de soutien social sont rapportées (grands-parents notamment), les conjoint.e.s sont dès le départ identifié.e.s comme la source de soutien et de relai principale lorsque les patient.e.s sont en incapacité d'effectuer leur rôle de parent (Vanhollebeke & Van Steijvoort, 2025).

#### **b) Les conjoint.e.s – soutien social et coping dyadique**

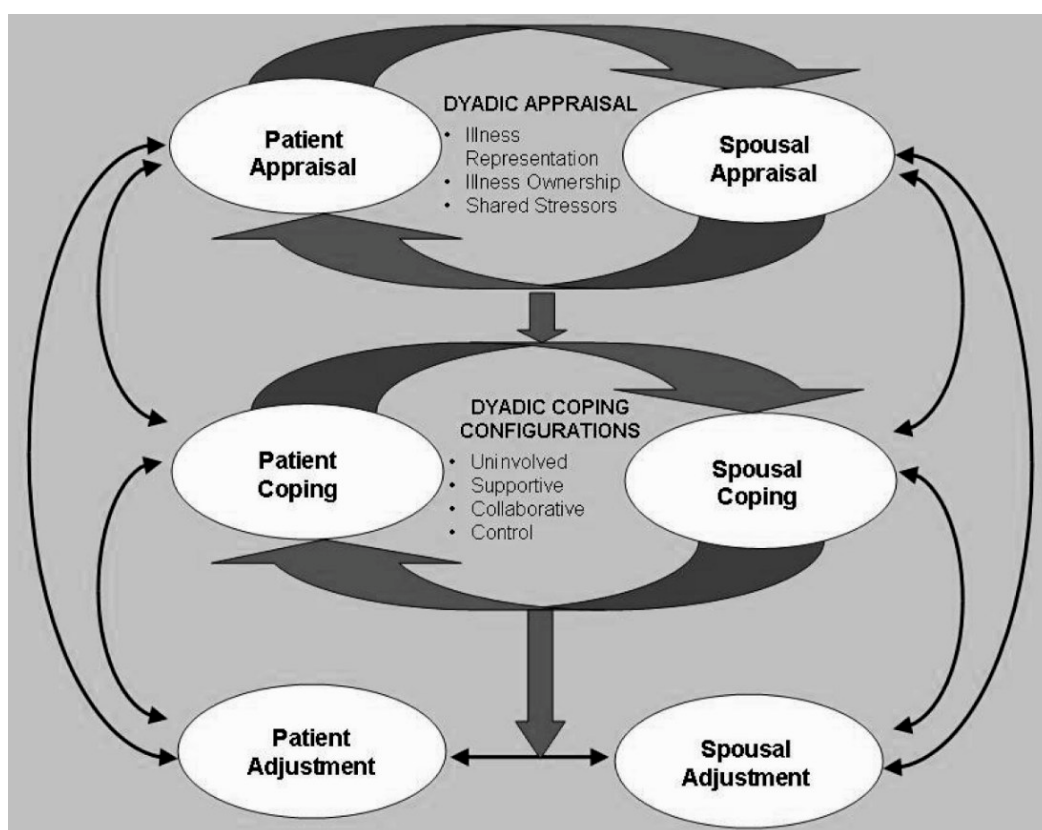
Dans les études sur les couples (parents ou non) confrontés à la mucoviscidose, MucoPar y compris, le soutien des conjoint.e.s apparaît comme la première source de soutien social perçu (A. Jacob et al., 2021, 2025; Stransky et al., 2023, 2024). Or les conjoint.e.s ne sont pas juste des individus sur lesquels les patient.e.s peuvent s'appuyer. Ils.elles sont aussi partie prenante du fonctionnement conjugal et familial et leur vie est impactée par la maladie de leur partenaire. C'est d'ailleurs pour cela que nous souhaitons les inclure dans notre étude et c'est bien un aspect qui ressort : les conjoint.e.s sont impliqué.e.s vis-à-vis de la question de la maladie, tant dans la gestion du quotidien de la famille avec celle-ci que dans la façon de communiquer aux enfants sur la maladie. Ainsi, il nous paraît important de considérer la question des conjoint.e.s sous l'angle du coping dyadique et des processus transactionnels entre les partenaires.

Le modèle de Berg et Upchurch (2007), un des modèles fréquemment utilisés dans les études sur le coping dyadique, décentre le focus parfois fait sur le patient dans d'autres modèles et propose de considérer que la maladie impacte à la fois le patient et le partenaire (qui peut ne pas être un.e conjoint.e). Ce modèle implique ainsi que chacun des partenaires, ainsi que le couple, doivent s'adapter à la maladie. Inscrit dans une approche développementale, ce

modèle considère également que le coping dyadique évolue tout au long de la vie et varie en fonction des événements de vie de la dyade ou des phases de la maladie auxquels cette dyade est confrontée. Concrètement, le modèle considère que les partenaires passent par une phase d'appréciation de la situation (ils se représentent la maladie, observent qui doit en avoir la responsabilité et identifient les stressors partagés), qui va influencer la mise en place d'un ajustement dyadique (Figure 21). Les auteur.rice.s conceptualisent cet ajustement selon un continuum d'implication du partenaire (allant de totalement désengagé (le.la patient.e fait face seul), à surinvesti, surprotecteur voire contrôlant). Quatre grandes catégories de coping dyadique sont proposées pour répartir des styles de coping sur ce continuum : coping désengagé, coping soutenant, coping collaboratif, coping contrôlant.

**Figure 21.**

*Appréciation conjointe et coping dyadique selon le modèle développemental contextuel.*



*Note. Figure issue de l'article de Berg et Upchurch (2007).*

Le modèle a permis d'observer que la mise en place de styles de coping collaboratif et soutenant étaient favorisés lorsque les partenaires faisaient une appréciation similaire de la

situation. A contrario, les divergences d'appréciation favorisent les styles de coping contrôlant et désengagé.

Selon une méta-analyse sur le coping dyadique, il existe un lien très fort entre celui-ci et la satisfaction maritale, avec notamment un effet positif important de la perception d'un coping dyadique fonctionnel sur la satisfaction conjugale (Falconier et al., 2015). Cette étude observe que le coping dyadique est cependant moins corrélé à la satisfaction maritale lorsqu'un des partenaires (ou les deux) est atteint d'une maladie mentale ou somatique. Dans le contexte de plusieurs maladies, des copings dyadiques engageant collaboration et communication entre les partenaires sont associés avec de meilleurs ajustements psychosociaux et émotionnels, et une plus grande satisfaction conjugale (Mittinty et al., 2024; Shrout et al., 2024; L. Song et al., 2016; Vaske et al., 2015). Plus les partenaires se perçoivent comme une entité commune face à la maladie (représentation commune de la maladie, responsabilité partagée de la maladie même si pas égalitaire et partage de stressseurs), meilleur est leur ajustement de couple et leur bien-être.

Nous avons observé que les patient.e.s de notre échantillon étaient très majoritairement en couple (96%), et notamment en couple avec l'autre parent de leur(s) enfant(s) (86%). On observe ainsi 20% de familles traditionnelles en plus par rapport aux chiffres nationaux de l'Insee (86% vs 66%), 21% de familles monoparentales de moins (4% vs 25%) et un nombre équivalent de famille recomposées (10% vs 9%) (Algava et al., 2021). En parallèle, nous avons eu peu de retours sur des difficultés de co-parentage ou de difficultés rencontrées par les conjoint.e.s. Sur ce dernier aspect, il est probable que notre grille d'entretien n'ait pas offert un espace adapté pour que les conjoint.e.s puissent en parler (les questions étant plutôt tournées vers les patient.e.s), ou que les conjoint.e.s ne se soient pas senti.e.s à l'aise d'évoquer ces sujets devant leur partenaire. Cependant peu de patient.e.s ayant participé seul.e.s ont fait état de difficultés au sein du couple, hormis quelques femmes déplorant le manque d'égalité dans la répartition des tâches domestiques, problématique qui concerne la majorité des couples hétérosexuels (Lachance-Grzela & Bouchard, 2010).

En parallèle, les participant.e.s ont pu décrire la répartition des tâches parentales entre conjoint.e.s, l'implication des conjoint.e.s au quotidien et leur important soutien. Ce qui est décrit à ce niveau et les éléments précédemment mentionnés, nous laissent à penser que la plupart des couples de notre échantillon ont mis en place des stratégies de coping dyadique fonctionnelles de type soutenant et/ou collaboratif. Ce fonctionnement dyadique adapté aux

besoins des partenaires dans le contexte de la maladie, pourrait s'expliquer par le fait que le coping dyadique est engagé dès le début de la relation de couple. En effet, comme nous l'avons observé dans notre étude, les conjoint.e.s ont très vite été informé.e.s de la maladie du.de la patient.e. Une étude qualitative sur le partage d'information entre les patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose et leurs partenaires amoureux révèle des éléments qui vont dans ce sens (Broekema & Weber, 2017). Des participant.e.s rapportent ainsi que certain.e.s conjoint.e.s non confronté.e.s, dès le départ de la relation, à la sévérité de la maladie ont eu beaucoup de mal à faire face la dégradation de l'état de santé du.de la patient.e. Ces conjoint.e.s se sont généralement désengagé.e.s et la relation a périclité. En revanche, les conjoint.e.s confronté.e.s à la maladie très tôt dans la relation se sont mieux adapté.e.s et sont généralement toujours les conjoint.e.s des participant.e.s au moment de l'étude. Des expériences similaires ont été rapportées par des participant.e.s de MucoPar, et un des participant.e.s de focus groupes le rapporte ainsi : *« J'ai eu plusieurs expériences et, dès l'départ, à l'inverse de mon milieu professionnel, je l'ai dit [qu'il avait la mucoviscidose] très rapidement. [...] Et ç'a été en général, c'est déterminant quoi. C'est à dire qu'il y a des femmes pour qui ce n'était pas audible et qui sont parties rapidement. [...] et y en a d'autres [...] qui développent un sentiment d'empathie, un peu exagéré, un peu maternel, [...] pas forcément très sains non plus. Et puis y a une espèce d'entre deux en disant « bon on va faire avec quoi ».* Ce paragraphe est à l'image de ce que d'autres participant.e.s ont pu rapporter, et les conjoint.e.s avec qui ils.elles ont fait des enfants sont généralement décrit.e.s comme celles et ceux avec qui ils.elles ont trouvé le juste équilibre.

Ainsi ces couples sont dès le début confrontés à cette notion de faire face à deux, là où les couples de la population générale ne sont pas dans de telles problématiques. La dynamique est également différente de celle à l'œuvre dans les couples où la maladie de l'un des partenaires se déclare après que la relation soit bien installée. Une étude a d'ailleurs observé que les couples confrontés à la mucoviscidose utilisaient moins de stratégies de coping que les couples confrontés à un cancer ou à un événement de vie majeur stressant se déclarant après le début de la relation (Delelis et al., 2008). Les auteurs l'expliquent par la chronicité de la mucoviscidose qui a amené le partenaire malade à développer depuis longtemps des stratégies d'ajustements qui sont devenues routinières. Le couple doit donc faire face à la maladie, mais celle-ci étant là dès le départ, le couple se construit autour et le fonctionnement normal du couple intègre la maladie. Dans les autres cas, la maladie fait irruption et perturbe

un fonctionnement établi. L'étude de Delelis et al. (2008) a également observé que la très grande majorité des couples de son échantillon présentait un niveau de satisfaction maritale satisfaisant et équivalent entre les partenaires (conjoint.e.s et patient.e.s). En parallèle, nous avons trouvé deux études récentes (Lau et al., 2024; Werner et al., 2021) explorant plus en profondeur la question du coping dyadique des couples confrontés à la mucoviscidose, toutes les deux s'appuyant sur le modèle développemental contextuel du coping dyadique (Berg & Upchurch, 2007). Celle de 2021 rapporte que 64% des couples de leur étude présentent un coping coopératif (vs un coping conflictuel pour les autres couples) (Werner et al., 2021). Les difficultés liées à la maladie ne sont ni ignorées ni banalisées dans ces couples, couples qui sont par ailleurs confrontés à des moments de vulnérabilité ou de tension à cause de la maladie ou d'autres aspects de leur vie commune (notamment évolution de la famille). Ces difficultés sont donc intégrées dans le quotidien des partenaires qui perçoivent la gestion de ces difficultés comme une mission commune. Les partenaires de ces couples coopératifs se représentent de façon similaire la place que prend la maladie dans leurs vies, insistent sur l'importance d'y faire face ensemble et rapportent que leur relation conjugale est une ressource sur laquelle s'appuyer dans les processus d'ajustement. Ces couples s'appuient notamment sur une forme d'optimisme et d'espoir pour faire face aux épisodes de dégradation de santé, et se concentrent souvent sur la gestion des défis actuels (focalisation sur le présent). Ils présentent une communication ouverte et les partenaires se perçoivent comme les confidents l'un de l'autre, notamment pour parler de leur vécu de la mucoviscidose. Enfin ils font preuve d'une empathie réciproque et de reconnaissance mutuelle de leurs besoins et expériences (notamment souffrance du partenaire malade et efforts d'accompagnement de l'autre). Ce dernier point les aide à être flexibles dans leur façon de s'adapter pour faire évoluer les ajustements en fonction de l'évolution des besoins. Enfin la plupart des couples coopératifs évoquent l'idée que leur relation a gagné en maturité à force d'ajustements face à la maladie, et certains parlent même de la résilience de leur relation face aux différents défis auxquels la vie les confronte. Pour ces couples, la maladie n'est pas juste celle du/de la patient.e, mais plutôt celle du couple (concept de « we-disease »). Cette étude rapporte en revanche que certains couples présentent des dynamiques de coping plus tendues voir conflictuelles. Dans ces couples, le/la partenaire non malade a du mal à accepter ou à comprendre la maladie, ce qui génère chez le/la partenaire malade un sentiment de solitude ou de fardeau. Ces couples ont des difficultés à communiquer sur la maladie ou leurs besoins par rapport à ce qu'elle

implique pour chacun des partenaires, et rapportent des écarts entre la façon dont ils auraient souhaité faire face ensemble et la réalité. Les partenaires sont confrontés à des sentiments d'impuissance, de déception et de culpabilité.

L'étude de 2024 apporte d'autres éléments de compréhension, en utilisant les composants du modèle de Berg et Upchurch (2007) pour analyser les contenus d'entretiens menés auprès de chacun des partenaires de 16 couples (Lau et al., 2024). Leurs résultats les amènent à montrer la pertinence du modèle pour décrire le coping dyadique des couples confrontés à la mucoviscidose. Néanmoins les auteur.ice.s en proposent une version « augmentée » dans laquelle ils.elles ajoutent une cinquième catégorie de coping nommée « normalité ». Cette nouvelle catégorie renvoie à l'idée que les partenaires cherchent à maintenir une forme de normalité et à avoir une vie aussi normale que possible, notamment face aux dégradations de santé du.de la patient.e. Cette étude observe que les jeunes couples (durée de la relation) vont plus souvent utiliser des stratégies de coping dyadique contrôlant ou désengagé que les couples plus anciens. Elle précise cependant que l'utilisation de ces stratégies, décrites généralement comme mal adaptées ou négatives dans la littérature, est perçue par les participant.e.s comme bénéfique. Dans une adaptation sur le long terme, ces stratégies apparaissent fonctionnelles car elles permettent aux couples de composer au mieux avec certaines sensibilités et limites des partenaires.

Au regard de ces études, nous pouvons considérer que le discours d'une majorité des participant.e.s de Mucopar est imprégné de l'utilisation de formes de coping dyadique collaborative et/ou soutenant. De plus, la nouvelle stratégie de coping « normalité » proposée par Lau et al., (2024) fait écho aux propos de plusieurs participant.e.s dans leur volonté à tendre vers la normalité, et dans les efforts faits par le couple pour maintenir un quotidien aussi normal que possible pour les enfants, notamment lors de dégradations de l'état de santé ou d'absences du parent malade.

Ces éléments nous permettent de supposer que les couples de notre étude ont développé des styles de coping dyadiques sur lesquels ils s'appuient également dans leur parentalité. Les partenaires sont habitués à faire face ensemble, notamment en se répartissant les tâches liées à la maladie, en communiquant ouvertement et en faisant preuve d'empathie mutuelle. Ces couples sont ainsi probablement bien armés pour s'ajuster ensemble face aux défis, perturbations et autres stressors engendrés par la parentalité. Or comme nous l'avons vu, faire face ensemble est un facteur protecteur du stress parental (Mikolajczak et al., 2018).

Avoir l'habitude de s'appuyer sur un coping dyadique collaboratif et/ou soutenant pourrait ainsi permettre de moins subir la pression du stress parental. En cela, le coping dyadique peut être un facteur explicatif de l'expérience positive de la parentalité. Toutefois, si l'on se réfère au modèle de Berg et Upchurch (2007), le coping dyadique n'est pas quelque chose de figé, et on peut considérer que l'entrée dans la parentalité le fait évoluer. La parentalité et la coparentalité peuvent donc également avoir une incidence positive comme négative sur le coping dyadique.

Comme le soulignent les récentes études sur le sujet, le coping dyadique des couples confrontés à la mucoviscidose a pour l'instant été très peu exploré. Pourtant l'intérêt de l'investiguer, que ce soit chez les couples avec ou sans enfant, nous paraît évidente. Avec l'allongement de l'espérance de vie, et l'augmentation de la population adulte, les patient.e.s vont être de plus en plus nombreux.ses à être en couple, d'autant que les patient.e.s en couple rapportant une meilleure satisfaction de vie que les célibataires (Besier et al., 2009) et être en couple est déjà une donnée importante dans le fonctionnement des adultes atteint.e.s de mucoviscidose (Broekema & Weber, 2017; Werner et al., 2021). De plus, les améliorations de la qualité de vie des patient.e.s sous modulateurs CFTR (Page et al., 2022) pourrait amener des différences de style de coping dyadique entre les couples, et également faire évoluer le coping dyadique au sein même des couples déjà établis. Les couples privilégiant des copings dyadiques non coopératif et/ou non soutenant pourraient potentiellement en bénéficier grâce aux améliorations du quotidien. Certains couples avec un coping dyadique fonctionnel, établi depuis longtemps sur la base de la présence de la maladie, pourraient paradoxalement voir leur équilibre perturbé par cette amélioration de la qualité de vie. Werner et al. (2021), soulignent l'importance de mener des études longitudinales pour étudier l'évolution du coping dyadique des couples confrontés à la mucoviscidose, pour observer comment ils s'adaptent aux événements de vie (parentalité notamment) et pour comparer les styles de coping dyadiques des couples ayant des enfants, de ceux n'en ayant pas. Ces études devraient apporter des éléments de réponses quant à notre supposition de l'influence positive du coping dyadique dans l'expérience de la parentalité, et documenter l'impact éventuel de la parentalité sur le coping dyadique.

### 3) Le bien-être parental comme donnée explicative ?

Si l'on se réfère au modèle du bien-être parental (BEP) présenté précédemment, (Nelson et al., 2014), certains facteurs vont favoriser le BEP quand d'autres vont le diminuer. En regardant la liste de ces facteurs, nous sommes amenées à penser que les patient.e.s de MucoPar présentent une majorité de facteurs favorables et peu de facteurs défavorables, facteurs notamment liés à la présence de la maladie. Ainsi nous proposons de les observer un à un, en regard du discours des patient.e.s de notre étude.

#### a) Facteurs défavorables

Du côté de facteurs défavorables, sont répertoriés les émotions négatives, la fatigue et le manque de sommeil, les difficultés financières et les difficultés conjugales.

Les patient.e.s de notre étude nous ont fait part d'émotions négatives liées à leur parentalité, notamment la culpabilité liée à leur maladie et aux incapacités qu'elle entraîne. Si celle-ci est difficile à vivre, comme d'être inquiet de l'impact de la maladie sur la vie de leurs enfants, nous constatons que les émotions négatives principalement rapportées sont liées plutôt à l'impact de la maladie et non à la parentalité en elle-même (celle-ci étant positivement investie par tou.te.s les participant.e.s). La maladie semble ainsi avoir un effet modérateur important sur les émotions négatives, et probablement plus que la parentalité en elle-même. La distinction pourrait peut-être influencer cet effet modérateur sur le BEP.

Certain.e.s participant.e.s nous ont parlé de la fatigue majorée durant les premières années de vie de leur(s) enfant(s), mais peu ont parlé de perturbations de leur sommeil. On peut supposer que c'était pourtant une réalité pour beaucoup, néanmoins certain.e.s ont précisé que leur conjoint.e. gérait plus souvent les réveils nocturnes de l'enfant pour minimiser l'impact sur le patient.e. Nous pouvons émettre l'hypothèse que la présence compensatrice des conjoint.e.s atténue les problématiques de sommeil, néanmoins nous manquons d'informations sur le sujet. De plus, au vu de la fatigue générale générée par la maladie, et mentionnée par la majorité des participant.e.s, il est possible que la compensation des conjoint.e.s ne soit pas suffisante pour éviter un effet défavorable de la fatigue sur le BEP. La mucoviscidose apparaît ici avoir un rôle modérateur en amplifiant la fatigue. La fatigue étant inhérente à la maladie, ce facteur est plus durable dans le temps que chez les parents non malades pour qui il peut être limité aux premières années de vie des enfants.

En parallèle, nous n'avons formulé aucune question pour explorer la question financière, mais aucun.e patient.e ne nous a fait part de difficultés, en dehors des questions d'accès aux prêts immobiliers. Nous avons pu voir que cette question n'était pas neutre, notamment en termes de stigmatisation, cependant son impact au quotidien est probablement moindre que des difficultés de ressources. En parallèle, aucune difficulté financière liée à la parentalité ou à la santé des patient.e.s n'a été mentionnée. Notre échantillon semble même avoir été protégé de ce facteur défavorable et possiblement parfois grâce à la maladie. En effet, comme nous l'avons vu, notre échantillon contient très peu de familles monoparentales (plus à risque de difficultés financières), ce que nous avons pu mettre en lien, dans une certaine mesure avec la maladie. De plus, étant donné toutes les considérations prises en compte par les patient.e.s avant de devenir parents (Vanhollebeke & Van Steijvoort, 2025), et les difficultés d'accès à la parentalité du fait de la maladie, on peut supposer que la stabilité financière du ménage du/de la patient.e est un pré-requis en amont du projet. Néanmoins, ce point est amené à évoluer avec l'amélioration de la fertilité liée à l'utilisation du Kaftrio. Celle-ci pouvant être à l'origine de grossesses non planifiées (Jain, Kazmerski, et al., 2022), certaines pourraient survenir dans un contexte financier non stable. En parallèle, le fait que la plupart des patient.e.s. de notre échantillon travaillaient et avaient un revenu implique aussi moins de difficultés financières.

De façon relativement attendue, nous n'avons pas eu de retours sur des difficultés financières liées à la maladie elle-même. En effet, depuis 2004, la mucoviscidose fait partie des Affections longues durées (ALD) totalement prises en charge par l'assurance maladie française. Cette classification permet d'éviter la précarisation des personnes à cause de leur maladie. Des aides financières pour les personnes en incapacité y contribuent également, bien que l'AAH (Allocation Adulte Handicapé) ait ses limites et ait été longtemps réservée aux personnes célibataires.

Enfin, si des moments de tensions, de conflit et de vulnérabilité du couple sont inhérents à toute relation conjugale, nous avons pu observer que notre population d'intérêt était pour le moment et dans l'ensemble plutôt préservée de dysfonctionnements conjugaux, à l'image de la majorité des couples confrontés à la mucoviscidose présentant globalement une bonne satisfaction conjugale (Delelis et al., 2008; Lau et al., 2024; Werner et al., 2021). Ainsi, la mucoviscidose pourrait, ici aussi, avoir des aspects protecteurs vis-à-vis de ce facteur défavorable au BEP. Cependant, cet aspect doit être considéré de façon précautionneuse, car

il est probable que les personnes participant aux études sur le couple ou la parentalité soient les patient.e.s pour qui ces situations sont globalement positives.

### **b) Facteurs favorables**

Du côté des facteurs favorables, sont répertoriés le fait que la parentalité donne un sens supplémentaire à la vie ou une nouvelle raison d'être ; réponde à certains besoin humains (besoin fondamental, d'autonomie, de connexion à l'autre et sentiment de compétence) ; génère des émotions positives ; donne un nouveau rôle social.

#### **Sens à la vie et raison d'être**

MucoPar a permis d'observer toute la valeur et le sens donnés à la parentalité par les patient.e.s. Cela leur donne « une autre raison de vivre » pour reprendre les mots d'Adeline lors d'un entretien, et plus de sens à leur vie. Ainsi, cette notion est présente dans la majorité des discours des patient.e.s. De même, les émotions positives associées à la parentalité sont très largement rapportées, dans notre étude comme dans toutes les études qualitatives sur le sujet (A. Jacob et al., 2021; Schenkel et al., 2024; Stransky et al., 2023, 2024). Les parents atteint.e.s de mucoviscidose semblent ainsi bénéficier très majoritairement de ce facteur favorable. De plus, cette donnée étant largement partagée dans les études, nous pouvons émettre l'hypothèse que la mucoviscidose a un effet modérateur important sur ce facteur favorable au BEP. Cependant la parentalité est également valorisée à l'échelle nationale selon un rapport d'enquête qui précise que la vie de famille est une dimension très importante pour 77% des français.e.s (importante pour 99%) (Opinionway, 2024). Cette enquête rapporte également des pourcentages élevés de parents « tout à fait en accord » avec les affirmations suivantes : être fier d'être parent (68%), être parent est une source de bonheur (56%). Les chiffres s'élèvent à 97% et 88% lorsqu'ils incluent les parents étant « plutôt d'accord » avec les affirmations. Des comparaisons à des parents de la population générale apparaissent nécessaires et permettront d'observer un éventuel effet modérateur de la mucoviscidose sur ce facteur.

#### **Les besoins humains**

Le discours des participant.e.s ne nous éclaire pas de façon explicite sur le fait que la parentalité leur permette de répondre ou non à leur besoin d'autonomie. Pourtant nous pouvons supposer qu'être parent contribue à leur donner un sentiment de contrôle sur leurs

choix personnels. En effet, être parent pour ces personnes découle tout d'abord d'une prise de décision mûrement réfléchie (Vanhollebeke & Van Steijvoort, 2025), voire éprouvée avec les échecs de l'AMP, et la parentalité en elle-même confronte à prendre de nombreuses décisions, notamment éducatives, pour lesquelles les patient.e.s peuvent exercer leur autonomie.

Concernant le besoin de connexion à l'autre, rien d'explicite en ces termes ne nous a été également rapporté. Toutefois, les propos de certain.e.s participant.e.s sur l'importance d'être parents, sur le type de relation à leur(s) enfant(s) majoritairement qualitative, très proche voire fusionnelle, nous permettent de supposer que leur parentalité contribue à répondre à ce besoin. Le fait d'être en couple, d'autant plus si la satisfaction conjugale est bonne comme rapporté dans d'autres études (Besier et al., 2009; Delelis et al., 2008), y contribue également.

Concernant le sentiment de compétence, on peut supposer qu'avoir des stratégies d'ajustement fonctionnelles (personnelles et dyadiques) contribue à renforcer le sentiment de compétence des parents malades. On peut supposer que plusieurs parents bénéficient de ce facteur favorable, cependant sans exploration du sujet cela nous paraît plus complexe à avancer.

Nous pouvons en revanche imaginer que les parents malades bénéficiant de ce facteur, peuvent s'appuyer sur ce sentiment de compétence solide pour développer et consolider leur sentiment de compétence parentale (SCP). Cette notion de SCP n'a pas encore été étudiée dans le domaine de la mucoviscidose et nous n'avons pas trouvé de références chez des patient.e.s avec des maladies diagnostiquées depuis l'enfance, contrairement à d'autres maladies comme le cancer ou la SEP (Messmer Uccelli & Ponzio, 2018). Cette question nous paraît être un domaine d'investigation passionnant pour de futures recherches. En attendant, il nous paraît important de rappeler que le SCP se nourrit notamment de l'expérience vicariante. Les parents malades, bien souvent confrontés principalement à des parents non malades, peuvent ainsi rencontrer des difficultés à consolider leur SCP. Ne pas avoir d'exemple de ce que c'est que d'être parent avec la maladie, implique que les patient.e.s se comparent à ceux dont le modèle ne leur est pas ou pas complètement accessible. Cela permet de mettre en perspective leur besoin d'échanger avec d'autres parents atteint.e.s de mucoviscidose et de comprendre pourquoi échanger avec d'autres parents malades leur serait bénéfique. Ainsi, les

rencontres entre parents malades pourraient contribuer à renforcer leur SCP, et par conséquent leur bien-être parental.

Enfin, si l'on considère la normalisation apportée par la parentalité à nos participant.e.s, ainsi que leurs remarques sur le fait qu'elle n'allait pas de soi à cause de leur courte espérance de vie, la parentalité apparaît comme une forme de graal pour beaucoup. Ceci nous permet de penser qu'elle répond ainsi au besoin fondamental humain d'être parent, selon la perspective actualisée de la pyramide des besoins de Maslow (Kenrick et al., 2010).

Ainsi les participant.e.s de notre étude semblent être nombreux.ses à bénéficier de plusieurs éléments du facteur global des « besoins humains » du modèle de BEP. De plus, nos observations nous invitent à penser que la mucoviscidose jouerait elle-même un rôle modérateur sur certains des besoins compris dans ce facteur, ayant ainsi un effet modérateur positif sur le BEP.

### **Le rôle social**

En termes de rôle social, tout.e.s les participant.e.s décrivent être heureux.ses d'avoir pu endosser ce rôle de parent. Le fait que cela n'était pas une évidence pour ces personnes d'être parent à cause de la mucoviscidose peut également renforcer les aspects positifs liés à ce rôle social tant désiré. Ces éléments nous amènent encore une fois à penser que les patient.e.s bénéficient de ce facteur favorable au BEP, et notamment via l'effet modérateur de la mucoviscidose.

Ces considérations restent des propositions qui appellent bien entendu à des explorations scientifiques, de même que le modèle du BEP demande à être éprouvé scientifiquement. Elles nous paraissent importantes à formuler car elles permettent de penser que la mucoviscidose n'empêche pas les parents malades d'expérimenter un bien-être parental satisfaisant, notamment car ceux de notre échantillon semblent bénéficier de plus de facteurs favorables au BEP que de facteurs défavorables. De plus, ce modèle nous invite à penser la mucoviscidose comme un élément modérateur qui peut s'avérer positif. Cela nous offre une piste supplémentaire à envisager pour comprendre pourquoi malgré les importants défis et contraintes liées à leur situation, les parents atteints de mucoviscidose rapportent une expérience positive de la parentalité.

Les cliniciennes que nous sommes, considèrent également que ce modèle est particulièrement intéressant pour prendre de la hauteur sur le sujet de la maladie et des contraintes qu'elle impose aux familles. Il permet de décentrer le regard généralement porté

sur les difficultés liées à la maladie, pour observer les ressources qu'elle apporte aux patient.e.s. Cet outil permet de considérer de nouvelles pistes d'accompagnement focalisées sur l'identification de ces ressources, et de permettre une forme de valorisation de la maladie. Au-delà de l'impact positif sur le BEP des patient.e.s, ceci peut aussi avoir des vertus en termes de perception identitaire pour les patient.e.s vivant mal cette part malade d'eux.elles-mêmes.

Le concept du BEP mérite donc selon nous d'être exploré de façon générale et particulièrement dans le cadre de la parentalité avec une maladie chronique. En permettant d'observer les effets modérateurs positifs et négatifs éventuels des différentes maladies sur le BEP, il pourrait apporter de nombreuses informations utiles pour le soutien à la parentalité des patient.e.s.

### **c) Ne pas oublier que cela reste un défi**

Cette réflexion sur un vécu globalement positif ne doit pas éclipser les difficultés rencontrées par l'ensemble de ces parents malades. Certaines sont quotidiennes, d'autres plus ponctuelles, certaines sont psychologiques, d'autres plus organisationnelles et le retentissement sur le parent malade ou la cellule familiale peut varier d'une famille à l'autre et en fonction des événements de vie.

Nous tenons ainsi à rappeler le récit de certain.e.s participant.e.s greffé.e.s qui ont fait état de leur quasi-incapacité à effectuer leur rôle de parent dans la période pré-transplantation. Tellement affaibli.e.s par la maladie, ces dernier.e.s n'avaient la force de s'occuper ni d'eux-mêmes, ni de leurs enfants. Pourtant, même dans une situation de telle faiblesse et avec des capacités extrêmement limitées, un parent reste parent et continue d'avoir un rôle à exercer auprès de ses enfants, comme l'implique la question de parentalité partielle. Ce sujet ne concerne qu'un petit nombre de patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose, mais doit être pris en compte par les professionnel.le.s car il génère beaucoup de souffrance pour l'ensemble de la cellule familiale. Il y a donc un enjeu de soutien à la parentalité pour permettre à ces individus de continuer à se vivre parent, malgré leur importante dégradation. Un suivi spécial pour ces familles mériterait d'être mis en place durant la période pré-greffe, afin d'accompagner cette parentalité partielle et de préparer le temps de la séparation liée à la chirurgie et la convalescence.

Cela soulève plus globalement le soutien à la parentalité des parents qui sont amenés à vivre des dégradations importantes et des séparations parfois longues avec leurs enfants (hospitalisation ou cures de réhabilitation respiratoire<sup>43</sup>). L'expérience globalement positive de la parentalité n'enlève pas les difficultés auxquelles sont confrontés les patient.e.s et leur famille dans ces situations. Cette expérience positive n'enlève pas non plus le poids au quotidien de la maladie, et ne doit pas faire oublier que même les patient.e.s avec des organisations fonctionnelles peuvent avoir des besoins supplémentaires d'accompagnement de leur parentalité. Au niveau national, 52% des parents de la population générale souhaitent être aidés pour faire face aux difficultés liées à leur parentalité (Opinionway, 2024). Au vu des difficultés évoquées par notre échantillon et de leurs demandes, on peut supposer que la proportion est plus importante dans la population de parents malades. Pour cette population, les professionnel.le.s de santé jouent un rôle privilégié par rapport à d'autres acteurs, ce qui explique que tous les membres de la famille aient fréquemment verbalisé une demande de soutien de leur part. Le nombre de parents avec la mucoviscidose étant amené à continuer de croître, il apparaît donc urgent que ces questions soient pensées et organisées à l'échelle des CRCM.

### **III. Les enfants avec un parent atteint de mucoviscidose**

Notre étude MucoKids a fait ressortir que les enfants s'adaptaient globalement bien aux différentes contraintes imposées à la vie familiale par la maladie parentale. N'ayant pas connu autre chose, ils.elles prennent ce quotidien comme tel et expliquent s'y habituer sans réelles difficultés. Nous avons pourtant relevé un certain nombre de difficultés auxquelles ces enfants sont confrontés, qui sont principalement d'ordre émotionnel. Nous les avons en partie regroupées dans les quatre catégories suivantes :

- Conflits entre les contraintes de la maladie et leurs besoins
- Inquiétudes, angoisse ou peur pour le parent,
- Événements traumatiques
- La question du fardeau et de l'aidance

---

<sup>43</sup> Cures de trois semaines proposant du réentraînement à l'effort, de l'ETP, un suivi nutritionnel et d'autres soins.

## 1) Les besoins de l'enfant

Les enfants ont des besoins particuliers en fonction de leur âge et de leurs caractéristiques personnelles. La maladie vient parfois à l'encontre de ceux-ci, notamment lorsque le parent n'est pas en mesure de s'occuper de son enfant ou de faire certaines activités à cause de la maladie et des traitements. Ainsi certains enfants ont rapporté leur frustration ou leur tristesse lorsque leur parent malade ne pouvait pas jouer dehors avec eux, ou lorsque ce parent était hospitalisé. Les parents sont d'ailleurs nombreux à exprimer des difficultés à trouver le bon équilibre entre leurs besoins et ceux de l'enfant. La théorie de l'attachement précédemment développée, explique comment le système de caregiving de la figure parentale vient répondre à l'activation du système d'attachement de l'enfant (Cassidy, 2008). Parce que s'occuper d'un enfant, particulièrement lorsqu'il est petit, est chronophage et fatigant, les parents atteint.e.s de mucoviscidose ne sont pas en mesure de répondre à tous les besoins de leurs enfants, donc d'activer leur système de caregiving de façon optimale. La répartition des tâches et le relai avec les conjoint.e.s, permet de compenser ces difficultés et de proposer un équilibre qui peut être tout à fait satisfaisant pour l'enfant. Cependant, la maladie peut amener le couple et/ou le parent malade à manquer de régularité dans la façon d'organiser ses réponses face aux besoins de l'enfant. Ainsi, ce ne sont pas tant les incapacités provoquées par la maladie qui peuvent impacter l'enfant, (notamment la mise en place de ses MIO et de son style d'attachement), que l'inconstance qu'elle peut amener dans les réponses du couple ou du parent malade. En cela, la maladie peut être très déstabilisante et mettre à mal les efforts des parents les mieux intentionnés.

Ce n'est pas quelque chose que notre recherche nous permettait d'observer directement. Cependant ce point nous paraît important à relever car la question des besoins est centrale dans le discours des parents, et nous avons relevé quelques récits de souffrance des enfants à cause de besoins n'ayant pas reçu de réponse adaptée. Dans certains cas, la souffrance de l'enfant apparaissait plus liée à une immaturité émotionnelle l'empêchant de gérer sa frustration, ce que les enfants ayant grandi depuis, pouvaient rapporter eux-mêmes. Dans d'autres cas cela paraissait plus complexe.

En grandissant, les enfants sont en mesure de tolérer plus facilement des variations dans les réponses qui sont faites à leurs besoins, si celles-ci sont accompagnées d'explications. Il semblerait que ce soit le vécu de plusieurs participant.e.s, âgé.e.s d'au moins 10 ans, qui

expliquent mieux comprendre la maladie et ainsi être moins frustré.e.s par certains de ses aspects.

En lien avec la difficulté des parents à trouver le juste équilibre entre leurs besoins et ceux de l'enfant, cette question mériterait selon nous de faire l'objet d'une sensibilisation des futurs parents. Des ateliers de psychoéducation permettraient par exemple de leur expliquer en quoi la constance est ce qu'il y a de plus sécurisant pour les enfants et ce, même si le parent malade ne peut répondre qu'à une partie des besoins de l'enfant de façon constante. En abordant la théorie des styles parentaux (Baumrind, 1971, 1978), elle permettrait également d'expliquer aux parents comment ils peuvent accompagner les enfants exprimant un besoin auxquels une réponse ne peut être donnée, que ce soit à cause de la maladie ou pour toute autre raison (sécurité, éducation). Cette sensibilisation pourrait ainsi faire du lien avec les injonctions qui leur sont faites de rester adhérent.e.s à leurs traitements à l'arrivée de l'enfant, période où plusieurs études ont montré que certain.e.s parents pouvaient avoir tendance à s'oublier au profit de leur enfant (A. Jacob et al., 2021).

Comme nous l'avons étudié dans la partie sur la parentalité, d'autres éléments indépendants de la maladie peuvent également influencer le fait que l'enfant perçoive une adéquation entre ses besoins et les réponses proposées : le style parental (Baumrind, 1971, 1978), le niveau de conscience parentale (Newberger, 1980; Newberger & Cook, 1983), les déterminants parentaux (Belsky 1984), les attributions causales (Himelstein et al., 1991), le SCP (Coleman & Karraker, 1998, 2000) et tout ce qui relève de l'interaction et de la transaction relationnelle avec l'enfant (Fiese & Sameroff, 1989; Sameroff, 1975; Sameroff & Chandler, 1975). L'exploration des attributions causales peut être un élément intéressant à investiguer, lorsqu'il semble y avoir des inadéquations entre besoins de l'enfant et réponses parentales, pour voir comment est pensée la maladie à ce niveau. Prend-elle toute la place, ou les parents ont-ils la possibilité de questionner leur propre fonctionnement ? L'exploration de ces concepts relève d'une prise en charge thérapeutique en psychologie, qui peut être proposée pour amener les parents à mieux répondre aux besoins de leurs enfants, tout en étant à l'écouter des leurs.

Enfin, il est important que les parents gardent en tête que, même avec un fonctionnement optimal à plusieurs niveaux, les besoins de l'enfant ne pourront pas toujours être pris en compte de façon adaptée du fait de la maladie. L'impact négatif peut alors être minimisé par la mise en mots et en sens pour les enfants. C'est notamment pour cela que les

enfants ont un aussi grand besoin d'informations sur la maladie, sur ce qui se passe pour le parent malade ou sur ce que celui-ci peut vivre. Tous ces éléments aident les enfants à mettre en sens leur vécu, particulièrement lorsque ils.elles sont confronté.e.s à une situation qui les sort de leur norme et vient générer de la souffrance. Contrairement aux croyances de nombreux adultes, les participant.e.s de MucoKids nous ont rappelé à quel point savoir pouvait les rassurer, et/ou les aider à se sentir mieux.

## **2) Inquiétudes, stress et angoisses pour la santé du parent**

Être rassuré, se sentir mieux est un enjeu de taille pour ces enfants, car au-delà de la question des besoins, voir son parent souffrir, ou avoir des problèmes de santé importants est une source d'inquiétude pour n'importe quel enfant. De par sa nature, la mucoviscidose expose les enfants des patient.e.s à vivre des moments plus ou moins fréquents de dégradation de la santé du parent malade. Ces épisodes génèrent légitimement du stress et de l'inquiétude, en lien parfois avec le contexte de crise auquel les enfants sont confrontés et avec l'impact immédiat et à long terme que peut avoir l'événement sur le parent. Observer que le parent arrive rarement à revenir à son niveau de santé antérieur, comme nous l'ont rapporté certaines adultes de MucoKids, rajoute une inquiétude supplémentaire, qui peut amener l'enfant à redouter la prochaine dégradation et ses conséquences possibles. Il est impossible d'empêcher les enfants d'éprouver ces sentiments, en revanche il est très important de les accompagner pour qu'ils.elles ne se laissent pas submerger par ces émotions.

Avec l'avènement des modulateurs de CFTR, on peut supposer et espérer que de nombreux enfants ne seront plus confrontés à de telles situations. En revanche, la dégradation des parents non éligibles aux modulateurs reste à l'heure actuelle inévitable. Certains enfants peuvent donc continuer à être confrontés à une forme de stress latent qui peut avoir un coût émotionnel important pour ces jeunes.

## **3) Événements traumatogènes**

Peu de participant.e.s nous ont rapporté avoir été confronté.e.s à des événements traumatogènes en lien avec la maladie du parent, mais certains récits nous ont interpellés et ont convoqué cette notion. Nous pensons par exemple aux trois sœurs jeunes adultes qui, rencontrées individuellement, nous ont toutes les trois raconté certains épisodes

spectaculaires de crise d'hypoglycémie de leur père, utilisant des mots très forts pour décrire leur vécu : « effroyable, « terrorisant », « très violent ». Ces récits, et quelques autres, nous permettent de penser que la mucoviscidose d'un parent, peut amener les enfants à être plus à risque d'être exposés à des événements traumatogènes, notamment lors de crises ou de dégradations brutales de l'état de santé. La sévérité de la maladie peut potentiellement constituer un facteur de risque supplémentaire de confronter ces enfants à des épisodes potentiellement traumatiques (exposition aux hémoptysies par exemple). La fratrie précédemment mentionnée montre que même une forme moins sévère de la maladie peut également être la cause d'événements choquants voire traumatisants.

Il est aujourd'hui admis que les enfants, même les nourrissons, peuvent vivre des Episodes de Stress Post-traumatique (ESPT)<sup>44</sup> (Ratcliff, 2019). L'exposition peut être unique, continue ou répétée, intentionnelle ou non. L'exposition à des événements violents intentionnels et répétés est plus susceptible de créer des ESPT chez les enfants. L'ESPT chez les enfants est encore mal reconnu et sous-diagnostiqué, particulièrement chez les enfants de moins de 4 ans, notamment à cause de leur vocabulaire limité. Les critères diagnostiques doivent alors s'inscrire dans une optique développementale, c'est-à-dire observer ce qui est inhabituel par rapport au niveau de développement de l'enfant (Ratcliff, 2019). Ainsi chez les tous petits le diagnostic s'appuie sur les observations du comportement de l'enfant (trouble de la relation avec les figures parentales, troubles du développement psychomoteur, régressions, apathie, agitation, difficultés de séparation, troubles du sommeil et de l'alimentation). Chez les enfants un peu plus grands (niveau préscolaire), d'autres signes peuvent être observés : comportements répétitifs ou compulsifs de jeu ou dessins mettant en scène des aspects de l'événement traumatique, cauchemars, moins de jeux symboliques, peurs intenses, évitement de lieux ou situations, ou au contraire préoccupations incessantes sur un sujet en lien avec l'événement, agitation, désorganisation, retrait social et mutisme. A partir de 6-7 ans, les troubles émotionnels peuvent se manifester par un émoussement affectif, un désintérêt scolaire ou social, des régressions (énurésie secondaire par exemple). L'hypervigilance se retrouve dans les troubles du sommeil (refus d'aller se coucher, difficultés

---

<sup>44</sup> ESPT : trouble psychique consécutif à un événement traumatique ayant menacé l'intégrité physique ou psychique de l'individu. Les personnes présentent différents symptômes, notamment reviviscence de l'événement traumatique, évitement de tout ce qui rappelle le traumatisme, hyper activation-neurovégétative (hypervigilance : état d'alerte permanent), troubles dissociatifs (amnésie, déréalisation, dépersonnalisation) et troubles des émotions et de cognitions.

d'endormissement, terreurs nocturnes et réveils fréquents), des difficultés de concentration, des crises de colères et des sursauts exagérés. A ce tableau clinique peuvent s'ajouter : fortes angoisses de séparation, nouvelles peurs, affects dépressifs, faible estime de soi, comportements sociaux inadaptés, somatisation.

En général, le temps favorise une diminution des symptômes des enfants exposés à des événements non intentionnels (Ratcliff, 2019), comme les événements survenant dans le cadre de la mucoviscidose d'un parent. Néanmoins, ces événements sont générateurs d'une souffrance qu'il est important de prendre en charge, d'autant qu'elle peut laisser des traces psychiques, surtout si les événements se répètent. La non prise en charge des symptômes de ces événements peut contribuer à majorer des sentiments d'anxiété et d'inquiétude. Les professionnel.le.s doivent donc y être vigilant.e.s, afin de proposer des espaces d'accompagnement pour les enfants en cas de survenue d'un événement brutal de santé pour le parent malade. Des espaces pour pouvoir « débriefier<sup>45</sup> » l'événement potentiellement traumatogène doivent ainsi pouvoir être proposés soit aux enfants en âge d'élaborer, soit aux familles d'enfants plus jeunes, par exemple lorsqu'un parent est hospitalisé de façon non programmée suite à une dégradation. Ces espaces de parole pourront permettre de prévenir l'installation d'ESPT, ou de dépister les symptômes et permettre une orientation thérapeutique adaptée.

#### **4) Aidance et fardeau**

La question du fardeau est très peu ressortie dans le discours des participant.e.s de MucoKids, à l'exception des récits de certaines adultes, qui percevaient le poids de la maladie de leur parent sur leur construction personnelle et/ou sur leur vie sociale (notamment dans le cadre des précautions d'hygiène imposées par la pandémie du COVID-19). Plus que le fardeau, nous avons relevé plusieurs fois la notion d'un manque d'insouciance et parfois des difficultés à profiter du moment présent avec le parent malade, notamment parce qu'il apparaît toujours dans un état plus dégradé qu'avant.

---

<sup>45</sup> Dans la clinique du trauma, le débriefing permet aux victimes d'un événement traumatique de narrer leur expérience en détail, et de décrire toutes les émotions associées. Il a lieu idéalement dans les jours qui suivent l'événement et a pour but d'éviter ou limiter le développement de symptômes post-traumatiques.

La question de l'aidance est revenue plus fréquemment dans le récit d'enfants de différents âges. Les jeunes aidant.e.s sont définis comme « des enfants et des adolescents qui apportent des soins, de l'assistance ou du soutien non rémunéré à un proche, qui est en situation de handicap ou qui est atteint d'une maladie chronique, d'un problème de santé mentale ou de tout autre problème de santé nécessitant un besoin de soins, de soutien ou de supervision. Entre 18 et 25 ans, on parle de « jeunes adultes aidants » (Untas & Dorard, 2024, p. 5). Cette population est encore mal reconnue en France. Un vaste programme d'études sur cette population a été lancé en 2017 qui a récemment fait l'objet d'un rapport répertoriant les principaux résultats (Untas & Dorard, 2024). Ce programme a permis d'identifier qu'entre 30,7 et 63,2% des collégien.ne.s, lycéen.ne.s et étudiant.e.s sont confronté.e.s à la maladie d'un proche. Être confronté à la maladie d'un proche ne veut pas nécessairement dire être aidant.e, comme ont pu le rapporter certaines participantes adultes de MucoKids qui ont dit ne jamais avoir été dans une posture d'aidance. Ainsi, les études ont identifié entre 12,3 et 15,9% d'individus (majoritairement de sexe féminin) effectivement jeunes aidant.e.s auprès d'un parent, d'un frère, d'une sœur ou d'un grand-parent. Les activités d'aide les plus souvent rapportées sont les tâches domestiques, la gestion du domicile et le soutien émotionnel. Le rapport précise que les jeunes n'ont pas toujours conscience d'aider, et leur demander n'est pas suffisant pour vérifier s'ils sont bien jeunes aidant.e.s ou non. Leur identification est pourtant primordiale, car l'aidance peut avoir un impact négatif sur leur vie. Ainsi les jeunes aidant.e.s présentent une moins bonne qualité de vie, plus de problèmes de santé et plus de difficultés scolaires que leurs pairs. Chez les jeunes confronté.e.s à la maladie d'un proche certains facteurs ont été identifiés comme à risque de les amener à être jeunes aidant.e.s (notamment être une fille, être plus âgé dans la fratrie, avoir un proche avec une maladie somatique grave et/ou chronique, que le proche malade ne travaille pas, vivre avec le proche). Ainsi les filles, aînées ou enfants uniques de parents atteints de mucoviscidose peuvent être plus à risque. Les équipes doivent avoir en tête ces facteurs et être sensibilisées à la question de l'aidance, afin de dépister, proposer des accompagnements, et diminuer les répercussions sur la qualité de vie et la santé mentale des jeunes concerné.e.s. De larges campagnes de sensibilisation émergent un peu partout en France pour aider les jeunes aidant.e.s à se reconnaître comme tel.le.s et à pouvoir bénéficier d'aides ou d'aménagements, notamment dans leur scolarité (Untas & Dorard, 2024).

Dans notre échantillon, plusieurs enfants ont parlé de certaines tâches qu'ils.elles pouvaient effectuer pour aider leur parent malade (porter les courses, aider pendant les traitements, faire les lessives pendant une hospitalisation etc.). Quelques adultes ont pu rapporter que les rôles parent-enfant pouvaient parfois s'inverser et que ce n'était pas simple à vivre. Au regard des discours des participant.e.s de MucoPar on sait que c'est un sujet auquel plusieurs parents étaient attentifs, mais que l'aide des enfants est réelle. Nous pensons particulièrement aux deux mères greffées qui nous ont rapporté l'important soutien apporté par leurs filles avant et après la chirurgie, et le coût important que cela avait représenté sur le plan émotionnel pour l'une de ces enfants, pourtant déjà adulte au moment de la greffe.

L'étude CAMPUS-CARE du programme JAID a, de plus, relevé que 53,2% des étudiant.e.s confronté.e.s à la maladie ou handicap d'un proche, souhaitaient exercer un métier dans la santé ou le soin, et que cette orientation était généralement déterminée par le fait que ces jeunes avaient intégré leur rôle d'aidant comme faisant partie de leur identité (Chevrier et al., 2023). Dans notre échantillon d'adultes, plusieurs participantes faisaient des études ou travaillaient dans le médico-social, ce qui peut nous amener à interroger leur niveau d'aidance. Il est ainsi possible que nos participant.e.s aient été/soient plus souvent en position d'aidance qu'ils.elles ne semblent le percevoir et le dire.

Cet aspect pourrait faire l'objet d'une évaluation chiffrée. Cependant il nous semble important de sensibiliser dès à présent parents et professionnel.le.s à cette question de l'aidance encore mal connue en France, même dans les milieux de santé (Untas et al., 2023). Une campagne de sensibilisation des professionnel.le.s de santé et des outils sont en cours de développement au niveau national (Untas & Dorard, 2024) et devraient pouvoir contribuer à améliorer le dépistage et l'accompagnement des jeunes aidant.e.s.

## 5) Autres

D'autres éléments mériteraient d'être investigués plus en profondeur comme les questionnements des enfants sur la mort prématurée possible du parent malade. Ce sujet peut souvent amener des discours de réassurance, ou des réactions d'évitement de la part des adultes, alors que ce sont des questionnements légitimes que les enfants ont également besoin de pouvoir penser.

La question de la comparaison aux autres (les autres enfants, les autres parents) mérite aussi une attention particulière. En grandissant, les enfants observent de plus en plus les différences entre leur famille et celle des autres. La comparaison peut ne pas être à l'avantage de leur famille, comme elle peut permettre de constater les gains grâce à la maladie et pour certain.e.s, d'observer les efforts fournis par le parent. Ainsi, ces éléments de comparaison peuvent être à la fois soutenant et déstabilisant.

Nous n'avons pas non plus exploré la question du soutien social en dehors de la famille ni de la relation avec les pairs. Ces questions semblent pourtant faire régulièrement souffrance, soit par le manque d'empathie de certains jeunes, soit par le manque de compréhension des ami.e.s qui peuvent difficilement se représenter le quotidien de l'enfant avec un parent malade.

## **6) Perspectives cliniques**

Les résultats préliminaires de l'étude Mucokids, permettent de mieux comprendre que le véritable enjeu pour ces enfants de parents atteints de mucoviscidose n'est pas d'avoir un quotidien différent, mais de s'adapter sur le plan psychologique et émotionnel à certaines difficultés générées par la maladie. En effet, les capacités d'ajustement des patient.e.s et de leurs conjoint.e.s permettent généralement de mettre en place une organisation quotidienne fonctionnelle, permettant de concilier autant que possible la maladie et ses traitements avec le reste des contraintes familiales. En revanche les conséquences psychosociales que nous avons évoquées sont aujourd'hui partiellement prises en compte par les parents mais ne le sont quasiment pas au sein des CRCM. Les parents sont donc relativement seuls face à ces difficultés et y font face comme ils peuvent. Plusieurs ont mis en place des suivis psychologiques pour leurs enfants, décrits pour certains comme aidants, et pour d'autres limités notamment parce les psychologues libéraux ne connaissent pas la mucoviscidose ou que les enfants ne veulent pas parler à un psychologue.

Il nous apparaît ainsi fondamental d'initier le développement d'une politique d'inclusion de la famille, et particulièrement des enfants, au sein des CRCM adultes. Deux axes nous paraissent importants à prendre en considération. Le premier est l'axe de la formation des équipes de santé. Celles-ci doivent être sensibilisées à toutes les difficultés que peuvent rencontrer les enfants, et au dépistage de la jeune aidance, afin d'accompagner et orienter aux

mieux les familles à ce sujet. Le deuxième axe concerne la prise en charge directe des enfants. Les consultations des psychologues des CRCM doivent pouvoir recevoir des enfants de patient.e.s de tous âges, soit pour des suivis individualisés, soit pour des entretiens ponctuels. Des temps de rencontre parents-enfants peuvent également être envisagés, avec l'aménagement par exemple dans les CRCM d'un temps dans la semaine dédié aux familles. Ces temps peuvent par exemple s'inspirer des Lieux d'Accueil Parents-Enfants (LAEP)<sup>46</sup> (dans la mesure où la sécurité des patient.e.s peut être assurée en termes de contamination aux germes), ou proposer des créneaux par famille. Cet espace offrirait ainsi un temps de rencontre en famille, d'échanges sur les besoins et difficultés familiales et permettrait aux professionnel.le.s de faire de la prévention primaire. Différentes interventions peuvent également être pensées en s'appuyant sur les interventions proposées auprès des enfants ou des familles dans le cadre d'autres maladies (Chi et al., 2019; Horner, 2013; Malinowski et al., 2025 ; Oja et al., 2020 ; Han et al., 2019).

En parallèle, il nous paraît essentiel de considérer le besoin des enfants d'échanger avec d'autres enfants de parents malades. Pour les participant.e.s concerné.e.s, ce besoin était exprimé très clairement et l'avait été depuis parfois plusieurs années. Les parents rencontrant déjà des difficultés à échanger avec d'autres parents malades n'ont, pour la plupart, pas la possibilité de répondre à cette demande de leur enfant. Pour les plus jeunes, des ateliers psycho-éducatifs sur la mucoviscidose gagneraient à être organisés régulièrement au sein des CRCM et/ou lors des rencontres annuelles de Vaincre la Mucoviscidose. Animés par deux ou trois professionnel.le.s du CRCM, ces ateliers permettraient de transmettre de l'information sur la maladie et les traitements dans un contexte ludique et où les enfants seraient libres de poser toutes les questions qui les traversent. Ce genre de dispositif permettrait de prendre en compte plusieurs besoins : le soutien des parents pour communiquer sur la maladie, le besoin d'information et de compréhension des enfants, leur besoin d'échanger avec des pairs, et le dépistage d'éventuelles difficultés chez les enfants. Différents ateliers peuvent être pensés, par sujet et surtout par tranche d'âge, pour adapter la quantité et le niveau de détails des informations aux capacités psycho-cognitives des enfants. Les outils déjà existants pour

---

<sup>46</sup> Ces espaces permettent aux parents de rencontrer des professionnel.le.s de la petite enfance dans un cadre adapté à l'évolution en activité libre des enfants. Ces espaces sont généralement ouverts de façon hebdomadaire, les parents viennent sans inscription et peuvent rester anonymes. Les LAEP s'inscrivent dans les dispositifs actuels de soutien à la parentalité en France (1000premiersjours.fr, 2023).

expliquer la maladie aux enfants atteints de mucoviscidose pourraient être réutilisés dans ce contexte.

Pour les pré-adolescent.e.s, adolescent.e.s et adultes, des groupes de paroles (par tranche d'âge) animés par des psychologues pourraient également être mis en place soit dans les CRCM, soit au niveau national via des rencontres en visio. Les groupes pourraient proposer à la fois des temps d'échange libre et à la fois des temps de psychoéducation concernant la maladie, les questions de l'aidance ou de la génétique, notamment des tests que les jeunes peuvent demander à faire à leur majorité. Les jeunes aidant.e.s identifié.e.s comme tel.le.s pourraient également être redirigé.e.s vers les groupes de paroles et programmes de répit qui leur sont destinés (Untas & Dorard, 2024).

Toutes ces propositions peuvent faire l'objet d'évaluations pour mesurer la pertinence de l'intervention et l'adapter aux besoins qui n'auraient pas été ou pas correctement adressés.

Des échanges informels sur notre recherche lors de différentes rencontres dans le monde de la mucoviscidose, nous ont amené à énoncer ce type de proposition. Elles se heurtent pour l'instant à beaucoup de frilosité liée, il nous semble, aux représentations que les individus se font des capacités émotionnelles des enfants. Une des grandes craintes est notamment que le récit d'un enfant avec un parent très dégradé angoisse voire traumatise les autres enfants. Certaines précautions sont bien évidemment à prendre en compte, mais ce genre de dispositifs engendrent généralement bien plus de bénéfices pour les participant.e.s que de difficultés (Chi et al., 2019; Geertz et al., 2023). Il y a donc un travail éducatif à effectuer auprès de la communauté soignante et associative pour expliquer les intérêts à monter de tels dispositifs pour ce public.

# Conclusion générale

Ce travail de thèse a permis de rendre compte de l'expérience des différents membres des familles avec un parent atteint de mucoviscidose, et particulièrement de celle des parents malades et des enfants. Il nous a permis de confirmer et de compléter les résultats des précédentes études qualitatives, notamment en donnant la parole à des patient.e.s greffé.e.s pulmonaires et en apportant des éléments propres au contexte français. Il en ressort que la parentalité est une expérience globalement positive pour les parents malades, malgré les défis et les contraintes imposées par la maladie. Grâce à des stratégies d'ajustement organisationnel éprouvées avant d'être parent, un coping dyadique fonctionnel, et un recours au soutien social, les patient.e.s et leurs conjoint.e.s arrivent tout à fait à organiser un quotidien conciliant contraintes familiales et médicales, quotidien auquel les enfants semblent s'ajuster globalement facilement.

Les résultats de l'étude MucoPar, nous ont amenées à questionner les facteurs explicatifs des difficultés rencontrées par de nombreux.ses participants dans leur accès à la parentalité et sur les facteurs contribuant à un vécu globalement positif malgré tous les défis relevés. Ces éléments invitent à de nombreuses nouvelles recherches et permettent de penser les facteurs favorables et défavorables au bien-être parental des patient.e.s. Identifier ces facteurs nous paraît un enjeu de taille pour permettre de répondre au besoin des patient.e.s d'être mieux accompagné.e.s dans leur parentalité.

Les résultats préliminaires de l'étude MucoKids nous amènent à penser qu'il y a une urgence à prendre en compte les besoins psycho-sociaux des enfants avec un parent malade. Ces enfants font état de plusieurs difficultés émotionnelles, et de difficultés à s'y ajuster. Certaines théories de la psychologie développementale permettent de mettre en perspective le fait que certaines difficultés des participant.e.s soient rapportées comme ayant des répercussions à long terme sur leur santé mentale, leur construction identitaire et leur choix de carrière. Ces considérations nous ont amenées à faire de nombreuses propositions cliniques à destination des enfants ou des familles afin d'adresser ces difficultés. La mise en place d'une politique d'inclusion des enfants dans les CRCM adultes nous paraît la priorité

interventionnelle pour mieux accompagner la question de la parentalité des personnes atteint.e.s de mucoviscidose.

Les récentes études sur les jeunes aidant.e.s apportent également une aide précieuse pour comprendre que cette notion est probablement banalisée par certain.e.s participant.e.s de nos échantillons, par manque de connaissance sur le sujet. Elle doit faire l'objet de sensibilisation des professionnel.le.s des CRCM et des parents afin de mieux dépister et accompagner les jeunes identifié.e.s comme aidant.e.s Cette question nous apparaît également à prendre en compte d'urgence pour cette population d'enfants de parents malades.

Nous regrettons que l'étude MucoPar ne nous ait pas amenées à rencontrer plus de conjoint.e.s. Leur parole est précieuse et mérite d'être explorée, ainsi que tout ce qui concerne le couple et les ajustements dyadiques.

Lors des analyses de nos études, nous nous sommes focalisées sur les expériences individuelles de chacun des membres de la famille. Cette approche était la plus sensée par rapport à la façon dont avait été pensés et organisés nos protocoles et nous a permis d'obtenir des données très riches et variées. Cependant cela ne nous a pas permis d'observer les mécanismes à l'œuvre au sein même la famille. Or dans ces contextes familiaux, la mucoviscidose n'est plus uniquement la maladie du.de la patient.e, mais devient « la maladie de la famille ». Les prochaines études s'intéressant aux parents atteints de mucoviscidose mériteraient donc d'explorer la question dans une approche systémique, afin d'explorer les processus transactionnels à l'œuvre.

## Références

- 1000premiersjours.fr, (2023). *Les lieux d'accueil parent-enfant*. Consulté 7 avril 2025, à l'adresse <https://www.1000-premiers-jours.fr/fr/les-lieux-daccueil-parent-enfant>
- Aassve, A., Goisis, A., & Sironi, M. (2012). Happiness and Childbearing Across Europe. *Social Indicators Research*, 108(1), 65-86. <https://doi.org/10.1007/s11205-011-9866-x>
- Abbott, J., Dodd, M., Gee, L., & Webb, K. (2001). Ways of coping with cystic fibrosis: Implications for treatment adherence. *Disability and Rehabilitation*, 23(8), 315-324. <https://doi.org/10.1080/09638280010004171>
- Abbott, J., Hart, A., Morton, A., Gee, L., & Conway, S. (2008). Health-related quality of life in adults with cystic fibrosis: The role of coping. *Journal of Psychosomatic Research*, 64(2), 149-157. <https://doi.org/10.1016/j.jpsychores.2007.08.017>
- Abbott, J., Hurley, M. A., Chadwick, H., & Peckham, D. (2023). Ways of coping and survival in Cystic Fibrosis : A 20-year longitudinal study. *Journal of Cystic Fibrosis*, 22(1), 112-118. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2022.04.011>
- Abrams, D. (2004). The development of social identity: What develops? In *The development of the social self* (p. 291-312). Psychology Press. [https://doi.org/10.4324/9780203391099\\_chapter\\_11](https://doi.org/10.4324/9780203391099_chapter_11)
- Adamoli, A., Gambazza, S., Orenti, A., & Zolin, A. (2024). *ECFS Patient Registry Annual Report 2022*. Consulté 10 janvier 2025, à l'adresse [https://www.ecfs.eu/sites/default/files/Annual%20Report 2022 vs1.0 ECFSR 20250130.pdf](https://www.ecfs.eu/sites/default/files/Annual%20Report%202022_vs1.0_ECFSR_20250130.pdf)
- Adamsons, K. (2013). Predictors of relationship quality during the transition to parenthood. *Journal of Reproductive and Infant Psychology*, 31(2), 160-171. <https://doi.org/10.1080/02646838.2013.791919>

- Ahern, S., Pourghaderi, A., Ruseckaite, R., & et al. (2024). *Australia ACFDR 2023 Annual Report*.
- Ahlborg, T., Misvaer, N., & Möller, A. (2009). Perception of Marital Quality by Parents with Small Children : A Follow-up Study When the Firstborn Is 4 Years Old. *Journal of Family Nursing*, 15(2), 237-263. <https://doi.org/10.1177/1074840709334925>
- Ahmad, S. I., Rudd, K. L., LeWinn, K. Z., Mason, W. A., Graff, J. C., Roubinov, D. S., & Bush, N. R. (2024). A longitudinal path model examining the transactional nature of parenting and child externalizing behaviors in a large, sociodemographically diverse sample. *Development and Psychopathology*, 1-15. <https://doi.org/10.1017/S0954579424001147>
- Ainsworth, M. D. S., Blehar, M. C., Waters, E., & Wall, S. (1978). *Patterns of attachment: A psychological study of the strange situation*. (Hillsdale, N.J., Erlbaum, Vol. 1).
- Alexander, C. J., Hwang, K., & Sipski, M. L. (2002). Mothers with spinal cord injuries: Impact on marital, family, and children's adjustment. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation*, 83(1), 24-30. <https://doi.org/10.1053/apmr.2002.27381>
- Algava, E., Bloch, K., & Robert-Bobée, I. (2021, septembre 13). *Les familles en 2020 : 25 % de familles monoparentales, 21 % de familles nombreuses—Insee Focus—249*. [www.insee.fr](http://www.insee.fr). Consulté 07 février 2025, à l'adresse <https://www.insee.fr/fr/statistiques/5422681#consulter>
- Altschuler, J., & Dale, B. (1999). On Being an Ill Parent. *Clinical Child Psychology and Psychiatry*, 4(1), 23-37. <https://doi.org/10.1177/1359104599004001003>
- Ameli.fr. (2023a). *La psychose puerpérale*. Consulté 14 février 2025, à l'adresse <https://www.ameli.fr/medecin/sante-prevention/sante-mentale-soins-primaires/sante-mentale-maternite-perinatalite/psychose-puerperale-sante-mentale>
- Ameli.fr. (2023b). *Prise en charge de l'assistance médicale à la procréation (AMP)*. Consulté 21 février 2025, à l'adresse

<https://www.ameli.fr/assure/remboursements/rembourse/assistance-medicale-la-procreation-amp/prise-en-charge-de-l-assistance-medicale-la-procreation-amp>

Ameli.fr. (2024). *Le diagnostic et l'évolution de la mucoviscidose*. Consulté 9 janvier 2025, à l'adresse <https://www.ameli.fr/assure/sante/themes/mucoviscidose/diagnostic-evolution>

Ameli.fr. (2025a). *Dépression post-partum*. Consulté 27 février 2025, à l'adresse <https://www.ameli.fr/medecin/sante-prevention/sante-mentale-soins-primaires/sante-mentale-maternite-perinatalite/depression-post-partum-prise-en-charge>

Ameli.fr. (2025b). *Épisode dépressif caractérisé (EDC) de l'adulte*. Consulté 27 février 2025, à l'adresse <https://www.ameli.fr/medecin/sante-prevention/pathologies/episode-depressif-caracterise-adulte>

Ameli.fr. (2025c). *Les techniques d'assistance médicale à la procréation (AMP)*. Consulté 5 février 2025, à l'adresse <https://www.ameli.fr/assure/sante/devenir-parent/concevoir-un-enfant/procreation-medicalement-assistee-pma-amp/techniques-procreation-medicalement-assistee-pma>

American Psychiatric Association. (2013). *DSM-5: Diagnostic and statistical manual of mental disorders* (5th edition). American Psychiatric Publishing.

Anthony, E. J., & Benedek, T. (1970). *Parenthood: Its psychology and psychopathology*. Little Brwon.

APGL. (s. d.). *Les chiffres de l'adoption en France*. Consulté 31 janvier 2025, à l'adresse <https://www.apgl.fr/fr/homoparentalites/adoption/chiffres-adoption-france>

Asselmann, E., & Specht, J. (2021). Testing the social investment principle around childbirth: Little evidence for personality maturation before and after becoming a parent. *European Journal of Personality*, 35(1), 85-102. <https://doi.org/10.1002/per.2269>

- Association Muco. (s. d.). *Mucoviscidose et désir d'enfant*. Consulté 22 février 2025, à l'adresse <https://www.muco.be/wp-content/uploads/2021/06/Muco-et-desir-denfant-2020.pdf>
- Association Muco. (2025, janvier 16). *Reproduction*. Association Muco. Consulté 22 février 2025, à l'adresse <https://www.muco.be/fr/cest-quoi-la-muco/impact-sur-le-corps/reproduction/>
- Augoustinos, M., Walker, I., & Donaghue, N. (2006). *Social cognition: An integrated introduction*, 2nd ed (p. vii, 364). Sage Publications Ltd.
- Bailey, J. A., Hill, K. G., Oesterle, S., & Hawkins, J. D. (2009). Parenting practices and problem behavior across three generations: Monitoring, harsh discipline, and drug use in the intergenerational transmission of externalizing behavior. *Developmental Psychology*, 45(5), 1214-1226. <https://doi.org/10.1037/a0016129>
- Bandura, A. (1977). Self-efficacy: Toward a unifying theory of behavioral change. *Psychological Review*, 84(2), 191-215. <https://doi.org/10.1037/0033-295X.84.2.191>
- Baranowska, A., & Matysiak, A. (2011). Does parenthood increase happiness? Evidence for Poland. *Vienna Yearbook of Population Research*, 9, 307-325. <https://doi.org/10.2307/41342815>
- Barimani, M., Vikström, A., Rosander, M., Forslund Frykedal, K., & Berlin, A. (2017). Facilitating and inhibiting factors in transition to parenthood – ways in which health professionals can support parents. *Scandinavian Journal of Caring Sciences*, 31(3), 537-546. <https://doi.org/10.1111/scs.12367>
- Baumrind, D. (1971). Current patterns of parental authority. *Developmental Psychology*, 4(1, Pt.2), 1-103. <https://doi.org/10.1037/h0030372>
- Baumrind, D. (1978). Parental Disciplinary Patterns and Social Competence in Children. *Youth & Society*, 9(3), 231-338. <https://doi.org/10.1177/0044118X7800900302>

Baumrind, D. (1991). The Influence of Parenting Style on Adolescent Competence and Substance Use. *The Journal of Early Adolescence*, 11(1), 56-95.

<https://doi.org/10.1177/0272431691111004>

Baumrind, D., Larzelere, R. E., & Owens, E. B. (2010). Effects of preschool parents' power assertive patterns and practices on adolescent development. *Parenting: Science and Practice*, 10(3), 157-201. <https://doi.org/10.1080/15295190903290790>

Bédard, R. (2009). Crise et transition chez l'adulte dans les recherches de Daniel Levinson et de Bernice Neugarten. *Revue des sciences de l'éducation*, 9(1), 107-126.

<https://doi.org/10.7202/900401ar>

Bell, A. F., Carter, C. S., Davis, J. M., Golding, J., Adejumo, O., Pyra, M., Connelly, J. J., & Rubin, L. H. (2016). Childbirth and symptoms of postpartum depression and anxiety: A prospective birth cohort study. *Archives of women's mental health*, 19(2), 219-227.

<https://doi.org/10.1007/s00737-015-0555-7>

Belsky, J. (1984). The Determinants of Parenting: A Process Model. *Child Development*, 55(1), 83-96. <https://doi.org/10.2307/1129836>

Ben Soussan, P. (2007). *La parentalité exposée*. Erès ; Cairn.info.

<https://doi.org/10.3917/eres.benso.2007.01.0007>

Benedek, T. (1959). Parenthood As A Developmental Phase: A Contribution to the Libido Theory. *Journal of the American Psychoanalytic Association*, 7(3), 389-417.

<https://doi.org/10.1177/000306515900700301>

Benson, P. R. (2018). The impact of child and family stressors on the self-rated health of mothers of children with autism spectrum disorder: Associations with depressed mood over a 12-year period. *Autism: The International Journal of Research and Practice*, 22(4), 489-501.

<https://doi.org/10.1177/1362361317697656>

- Berg, C. A., & Upchurch, R. (2007). A developmental-contextual model of couples coping with chronic illness across the adult life span. *Psychological Bulletin*, 133(6), 920-954.  
<https://doi.org/10.1037/0033-2909.133.6.920>
- Berry, E., Davies, M., & Dempster, M. (2017). Exploring the effectiveness of couples interventions for adults living with a chronic physical illness: A systematic review. *Patient Education and Counseling*, 100(7), 1287-1303. <https://doi.org/10.1016/j.pec.2017.02.015>
- Besier, T., Schmitz, T. G., & Goldbeck, L. (2009). Life satisfaction of adolescents and adults with cystic fibrosis: Impact of partnership and gender. *Journal of Cystic Fibrosis*, 8(2), 104-109.  
<https://doi.org/10.1016/j.jcf.2008.10.001>
- Bessaguet, F., & Desmoulière, A. (2023). Physiologie de la grossesse. *Actualités Pharmaceutiques*, 62(628), 18-21. <https://doi.org/10.1016/j.actpha.2023.06.005>
- Besse, M. (2011). La parentalité : Une mise au neutre des parents ? *VST - Vie sociale et traitements*, 110(2), 30-35. <https://doi.org/10.3917/vst.110.0030>
- Blaisonneau, E., Le Daré, B., Mercerolle, M., Bacle, A., Triquet, L., Osmont, M.-N., Belleguic, C., & Polard, E. (2024). Effets indésirables de l'association tezacaftor/ivacaftor/elexacaftor pouvant mener à un arrêt de traitement : À propos d'une série de 10 cas. *Thérapies*, S0040595724000738. <https://doi.org/10.1016/j.therap.2024.06.005>
- Bodier, M., Buisson, G., Lapinte, A., & Robert-Bobée, I. (2015). *Couples et familles : Entre permanences et ruptures – Couples et familles | Insee*. Consulté 14 février 2025, à l'adresse <https://www.insee.fr/fr/statistiques/2017502?sommaire=2017528>
- Bosca, D. M., & Cojocaru, D. (2023). The Influence of Parenting Styles on Adolescent Development. *Revista de Cercetare Si Interventie Sociala*, 82, 65-77.  
<https://doi.org/10.33788/rcis.82.5>

- Boyatzis, R.E. (1998). *Transforming qualitative information thematic analysis and code development*. Sage Publications, Inc.
- Bowlby, J. (1969). *Attachment and loss. Volume I. Attachment*. The Hogarth press and the Institute of psycho-analysis.
- Britton, J. R. (2011). Infant temperament and maternal anxiety and depressed mood in the early postpartum period. *Women & Health*, 51(1), 55-71.  
<https://doi.org/10.1080/03630242.2011.540741>
- Broekema, K., & Weber, K. M. (2017). Disclosures of Cystic Fibrosis–Related Information to Romantic Partners. *Qualitative Health Research*, 27(10), 1575-1585.  
<https://doi.org/10.1177/1049732317697675>
- Bruchon-Schweitzer Marilou. (2002). *Psychologie de la santé : Modèles, concepts et méthodes*. Paris : Dunod.
- Burgel, P.-R., Burnet, E., Regard, L., & Martin, C. (2023). *The Changing Epidemiology of Cystic Fibrosis: The Implications for Adult Care*. 163(1), 88-89.  
<https://doi.org/10.1016/j.chest.2022.07.004>
- Burke, J. D., Pardini, D. A., & Loeber, R. (2008). Reciprocal Relationships Between Parenting Behavior and Disruptive Psychopathology from Childhood Through Adolescence. *Journal of Abnormal Child Psychology*, 36(5), 679-692. <https://doi.org/10.1007/s10802-008-9219-7>
- Burke, P. J. (1991). Identity Processes and Social Stress. *American Sociological Review*, 56(6), 836-849. <https://doi.org/10.2307/2096259>
- Busseri, M. A., & Sadava, S. W. (2011). A Review of the Tripartite Structure of Subjective Well-Being: Implications for Conceptualization, Operationalization, Analysis, and Synthesis. *Personality and Social Psychology Review*, 15(3), 290-314.  
<https://doi.org/10.1177/1088868310391271>

- Cadiz, D. O., & Passone, S.-M. (2015). Chapitre 4. De la difficulté à se séparer... Les articulations interpsychiques entre parent et enfant. In *Stress et défis de la parentalité* (p. 87-107). De Boeck Supérieur. <https://doi.org/10.3917/dbu.rokam.2015.01.0087>
- Candilis-Huisman, D., Dommergues, M., Becerra, L., & Viaux-Savelon, S. (2017). Handicap moteur, maladies rares et maternité : Une revue de la littérature. *Devenir*, 29(4), 307-325. <https://doi.org/10.3917/dev.174.0307>
- Canzi, E., Ranieri, S., Barni, D., & Rosnati, R. (2019). Predictors of Parenting Stress During Early Adoptive Parenthood. *Current Psychology*, 38(3), 811-820. <https://doi.org/10.1007/s12144-017-9657-x>
- Carlson, D. L. (2022). Reconceptualizing the Gendered Division of Housework: Number of Shared Tasks and Partners' Relationship Quality. *Sex Roles*, 86(9), 528-543. <https://doi.org/10.1007/s11199-022-01282-5>
- Carver, C. S. (1997). You want to measure coping but your protocol' too long: Consider the brief cope. *International Journal of Behavioral Medicine*, 4(1), 92-100. [https://doi.org/10.1207/s15327558ijbm0401\\_6](https://doi.org/10.1207/s15327558ijbm0401_6)
- Cassidy, J. (2008). The nature of the child's ties. In *Handbook of attachment: Theory, research, and clinical applications*, 2nd ed (p. 3-22). The Guilford Press.
- Cast, A. D. (2004). Well-Being and the Transition to Parenthood: An Identity Theory Approach. *Sociological Perspectives*, 47(1), 55-78. <https://doi.org/10.1525/sop.2004.47.1.55>
- Chen, C. Y.-C. (2016). Educational functioning of children of parents with chronic physical illness: A systematic review. *School Psychology International*, 37(6), 606-626. <https://doi.org/10.1177/0143034316672705>

Chen, C. Y.-C. (2017). Effects of parental chronic illness on children's psychosocial and educational functioning: A literature review. *Contemporary School Psychology, 21*(2), 166-176.

<https://doi.org/10.1007/s40688-016-0109-7>

Chevrier, B., Untas, A. & Dorard, G. (2023). Young adult caregivers in higher education: A study of prevalence in France. *Journal of Further and Higher Education, 47*(5), 699-710.

<https://doi.org/10.1080/0309877X.2023.2190878>

Chhabra, J., McDermott, B., & Li, W. (2020). Risk factors for paternal perinatal depression and anxiety: A systematic review and meta-analysis. *Psychology of Men & Masculinities, 21*(4), 593-611. <https://doi.org/10.1037/men0000259>

Chi, P., Zhao, S., Zhang, C., Li, X., Guo, Y., Lin, X., & Du, H. (2019). Effects of psychosocial interventions on children affected by parental HIV/AIDS: A meta-analysis on depression and anxiety. *BMC Public Health, 19*(1), 1572. <https://doi.org/10.1186/s12889-019-7806-x>

Coilly, A. (2023). *Transplantation hépatique : Quand y penser ?* FMC-HGE. Consulté 18 février 2025, à l'adresse <https://www.fmcgastro.org/texte-postu/postu-2023/transplantation-hepatique-quand-y-penser/>

Coldstream, F., & le May, A. (2008). A literature review of the potential effects of having a parent with chronic renal failure. *Journal of Clinical Nursing, 17*(5A), 98-105.

<https://doi.org/10.1111/j.1365-2702.2007.02154.x>

Coleman, P. K., & Karraker, K. H. (1998). Self-efficacy and parenting quality: Findings and future applications. *Developmental Review, 18*(1), 47-85. <https://doi.org/10.1006/drev.1997.0448>

Coleman, P. K., & Karraker, K. H. (2000). Parenting self-efficacy among mothers of school-age children: Conceptualization, measurement, and correlates. *Family Relations: An Interdisciplinary Journal of Applied Family Studies, 49*(1), 13-24.

<https://doi.org/10.1111/j.1741-3729.2000.00013.x>

- Collins, N. L. (2003). Cognitive Representations of Attachment: The Content and Function of Working Models. In *Blackwell Handbook of Social Psychology: Interpersonal Processes* (p. 60-85). John Wiley & Sons, Ltd. <https://doi.org/10.1002/9780470998557.ch3>
- Collins, N. L., & Read, S. J. (1994). Cognitive representations of attachment: The structure and function of working models. In *Attachment processes in adulthood* (p. 53-90). Jessica Kingsley Publishers.
- Combs-Ronto, L. A., Olson, S. L., Lunkenheimer, E. S., & Sameroff, A. J. (2009). Interactions Between Maternal Parenting and Children's Early Disruptive Behaviour: Bidirectional Associations across the Transition from Preschool to School Entry. *Journal of Abnormal Child Psychology*, 37(8), 1151-1163. <https://doi.org/10.1007/s10802-009-9332-2>
- Comité National de Soutien à la Parentalité. (2011). *Avis relatif à la définition de la parentalité et du soutien à la parentalité*. Consulté 7 février 2025, à l'adresse [https://sante.gouv.fr/IMG/pdf/avisdefinition\\_CNSP\\_10\\_11\\_2011.pdf](https://sante.gouv.fr/IMG/pdf/avisdefinition_CNSP_10_11_2011.pdf)
- Connolly, M. P., Hoorens, S., Chambers, G. M., & on behalf of the ESHRE Reproduction and Society Task Force. (2010). The costs and consequences of assisted reproductive technology: An economic perspective. *Human Reproduction Update*, 16(6), 603-613. <https://doi.org/10.1093/humupd/dmq013>
- Convention sur la protection des enfants et la coopération en matière d'adoption internationale (1993). Consulté 23 février 2025, à l'adresse <https://www.hcch.net/fr/instruments/conventions/full-text/?cid=69>
- Costa, I.-S., Barbosa-Ducharne, M., Palacios, J., & Soares, J. (2020). Predictors of parenting stress in portuguese adolescents' adoptive parents. *Child & Family Social Work*, 25(S1), 178-187. <https://doi.org/10.1111/cfs.12756>

Cowan, C. P., Cowan, P. A., Heming, G., Garrett, E., Coysh, W. S., Curtis-boles, H., & Boles, A. J.

(1985). Transitions to Parenthood: His, Hers, and Theirs. *Journal of Family Issues*, 6(4),

451-481. <https://doi.org/10.1177/019251385006004004>

Cowan, P. A., Cohn, D. A., Cowan, C. P., & Pearson, J. L. (1996). Parents' attachment histories and

children's externalizing and internalizing behaviors: Exploring family systems models of

linkage. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 64(1), 53-63.

<https://doi.org/10.1037/0022-006X.64.1.53>

Cystic Fibrosis Foundation. (2024). *2023 Patient Registry Annual Data Report*. Consulté 8 janvier

2025, à l'adresse <https://www.cff.org/medical-professionals/patient-registry>

Cystic Fibrosis Trust. (2016). *Starting a Family pack*. Consulté 21 février 2025, à l'adresse

[https://www.cysticfibrosis.org.uk/sites/default/files/2020-](https://www.cysticfibrosis.org.uk/sites/default/files/2020-11/Starting%20a%20family%20pack%202016.pdf)

[11/Starting%20a%20family%20pack%202016.pdf](https://www.cysticfibrosis.org.uk/sites/default/files/2020-11/Starting%20a%20family%20pack%202016.pdf)

Da Costa, D., Larouche, J., Dritsa, M., & Brender, W. (1999). Variations in stress levels over the

course of pregnancy: Factors associated with elevated hassles, state anxiety and pregnancy-

specific stress. *Journal of Psychosomatic Research*, 47(6), 609-621.

[https://doi.org/10.1016/S0022-3999\(99\)00064-1](https://doi.org/10.1016/S0022-3999(99)00064-1)

Dayan, J. (2007). Parentalité et vulnérabilité. In *La parentalité exposée* (p. 25-42). érès.

<https://doi.org/10.3917/eres.benso.2007.01.0025>

Dayan, J., Andro, G., Dugnat, M., Thessier, N., Milijkovitch, R., & Rosenblum, O. (2014). 2 -

Parentalisation : Du désir d'enfant à l'attachement. In *Psychopathologie de la périnatalité et*

*de la parentalité* (Second Edition, p. 37-81). [https://doi.org/10.1016/B978-2-294-71024-](https://doi.org/10.1016/B978-2-294-71024-7.00002-5)

[7.00002-5](https://doi.org/10.1016/B978-2-294-71024-7.00002-5)

Debest, C., & Hertzog, I.-L. (2017). "Désir d'enfant—Devoir d'enfant". *Recherches sociologiques et*

*anthropologiques*, 48-2, Article 48-2. <https://doi.org/10.4000/ras.1907>

- Delaney, M. E. (2017). The Relationship Between Counseling, Social Support, and Depression in Mothers of Fragile Families. *Journal of Mental Health Counseling*, 39(4), 320-334.  
<https://doi.org/10.17744/mehc.39.4.04>
- Delelis, G., Christophe, V., Leroy, S., Vanneste, J., & Wallaert, B. (2008). The effects of cystic fibrosis on couples: Marital satisfaction, emotions, and coping strategies. *Scandinavian Journal of Psychology*, 49(6), 583-589. <https://doi.org/10.1111/j.1467-9450.2008.00683.x>
- Delicate, A., Ayers, S., & McMullen, S. (2018). A systematic review and meta-synthesis of the impact of becoming parents on the couple relationship. *Midwifery*, 61, 88-96.  
<https://doi.org/10.1016/j.midw.2018.02.022>
- Delmore-Ko, P., Pancer, S. M., Hunsberger, B., & Pratt, M. (2000). Becoming a parent: The relation between prenatal expectations and postnatal experience. *Journal of Family Psychology*, 14(4), 625-640. <https://doi.org/10.1037/0893-3200.14.4.625>
- Demichel-Basnier, S., & Corbin, S. (2021). Être ou devenir parent ? Modèle normatif et représentations en action éducative en milieu ouvert. In *Parentalité(s) et après ?* (p. 199-213). érès. <https://doi.org/10.3917/eres.meyer.2021.01.0199>
- Demick, J. (2002). Stages of parental development. In *Handbook of parenting: Being and becoming a parent, Vol. 3, 2nd ed* (p. 389-413). Lawrence Erlbaum Associates Publishers.
- Dennis, C.-L., Brennenstuhl, S., Wanigaratne, S., Brown, H. K., Grigoriadis, S., Marini, F. C., & Vigod, S. N. (2018). Unique trajectories of anxiety among Chinese-Canadian women across the first postpartum year: A longitudinal cohort study. *Journal of Affective Disorders*, 230, 71-76. <https://doi.org/10.1016/j.jad.2018.01.005>
- Dennis, C.-L., Falah-Hassani, K., & Shiri, R. (2017). Prevalence of antenatal and postnatal anxiety: Systematic review and meta-analysis. *The British Journal of Psychiatry: The Journal of Mental Science*, 210(5), 315-323. <https://doi.org/10.1192/bjp.bp.116.187179>

Dole, N., Savitz, D. A., Hertz-Picciotto, I., Siega-Riz, A. M., McMahon, M. J., & Buekens, P. (2003).

Maternal Stress and Preterm Birth. *American Journal of Epidemiology*, 157(1), 14-24.

<https://doi.org/10.1093/aje/kwf176>

Doncarli, A., Tebeka, S., Demiguel, V., Lebreton, E., Deneux-Tharaux, C., Boudet-Berquier, J.,

Apter, G., Crenn-Hebert, C., Vacheron, M.-N., Le Ray, C., & Regnault, N. (2023). *Prévalence de la dépression, de l'anxiété et des idées suicidaires à deux mois post-partum : Données de l'Enquête nationale périnatale 2021 en France hexagonale.*

Dormont, B. (2024). *Crise de l'hôpital : La régulation des dépenses de soins en cause.* Dauphine-

PSL Paris. <https://dauphine.psl.eu/eclairages/article/crise-de-lhopital-comment-reguler-les-depenses-de-soins-en-ville>

Doss, B. D., & Rhoades, G. K. (2017). The transition to parenthood: Impact on couples' romantic relationships. *Current Opinion in Psychology*, 13, 25-28.

<https://doi.org/10.1016/j.copsyc.2016.04.003>

Doss, B. D., Rhoades, G. K., Stanley, S. M., & Markman, H. J. (2009). The effect of the transition to parenthood on relationship quality: An 8-year prospective study. *Journal of Personality and Social Psychology*, 96(3), 601-619. <https://doi.org/10.1037/a0013969>

Duguépéroux, I., Hubert, D., Dominique, S., Bellis, G., De Braekeleer, M., & Durieu, I. (2006).

Paternity in men with cystic fibrosis: A retrospective survey in France. *Journal of Cystic Fibrosis*, 5(4), 215-221. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2006.03.004>

Dunkel Schetter, C., & Lobel, M. (2012). Pregnancy and birth outcomes: A multilevel analysis of prenatal maternal stress and birth weight. In *Handbook of health psychology*, 2nd ed (p. 431-463). Psychology Press. <https://doi.org/10.4324/9781410600073>

Efua, S. S. (2024). Mental health issues in women diagnosed with infertility or multiple failed IVF attempts. *World Journal of Advanced Research and Reviews*, 24(2), 769-773.

<https://doi.org/10.30574/wjarr.2024.24.2.3393>

Ehrenberg, S., Stransky, O. M., Wright, C. E., Jain, R., & Kazmerski, T. M. (2022). Partner perspectives on women's sexual and reproductive healthcare in cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis*. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2022.08.003>

Encyclopédie du droit. (2023). La réforme du droit de la garde des enfants. *L'encyclopédie du droit*. Consulté 17 février à l'adresse <https://encyclopedia-droit.fr/article-droit/la-reforme-du-droit-de-la-garde-des-enfants/>

Eriksson, M., & Svedlund, M. (2006). "The intruder": Spouses » narratives about life with a chronically ill partner. *Journal of Clinical Nursing*, 15(3), 324-333.

<https://doi.org/10.1111/j.1365-2702.2006.01290.x>

Evans, S., & de Souza, L. (2008). Dealing with chronic pain: Giving voice to the experiences of mothers with chronic pain and their children. *Qualitative Health Research*, 18(4), 489-500.

<https://doi.org/10.1177/1049732308315433>

Evans, S., Shipton, E. A., & Keenan, T. (2006). The Relationship Between Maternal Chronic Pain and Child Adjustment: The Role of Parenting as a Mediator. *The Journal of Pain*, 7(4), 236-243. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2005.10.010>

Faccio, F., Ferrari, F., & Pravettoni, G. (2018). When a parent has cancer: How does it impact on children's psychosocial functioning? A systematic review. *European Journal of Cancer Care*, 27(6), e12895. <https://doi.org/10.1111/ecc.12895>

Fairbrother, N., Janssen, P., Antony, M. M., Tucker, E., & Young, A. H. (2016). Perinatal anxiety disorder prevalence and incidence. *Journal of Affective Disorders*, 200, 148-155.

<https://doi.org/10.1016/j.jad.2015.12.082>

- Falconier, M. K., Jackson, J. B., Hilpert, P., & Bodenmann, G. (2015). Dyadic coping and relationship satisfaction: A meta-analysis. *Clinical Psychology Review*, 42, 28-46.  
<https://doi.org/10.1016/j.cpr.2015.07.002>
- Favez, N. (2017). *Psychologie de la coparentalité. Concepts, modèles et outils d'évaluation*.  
<https://doi.org/10.3917/dunod.favez.2017.01>
- Favez, N., & Frascarolo-Moutinot, F. (2013). Le coparentage : Composants, implications et thérapie. *Devenir*, 25(2), 73-92. <https://doi.org/10.3917/dev.132.0073>
- Fédération EFA. (2024). *Les COCA – Enfance & Familles d'Adoption*. Consulté 18 mars 2025 à l'adresse <https://www.adoptioneafa.org/ladoption/la-sante-des-enfants-adoptes/les-coca/>
- Fiese, B. H., & Sameroff, A. J. (1989). Family Context in Pediatric Psychology: A Transactional Perspective. *Journal of Pediatric Psychology*, 14(2), 293-314.  
<https://doi.org/10.1093/jpepsy/14.2.293>
- Fijean, A.-L., Chamagne, M., Billon, Y., Morel, O., & Dahlhoff, S. (2020). Mucoviscidose et grossesse : Impact, facteurs pronostiques et prise en charge obstétricale. *Gynécologie Obstétrique Fertilité & Sénologie*, 48(5), 428-435. <https://doi.org/10.1016/j.gofs.2020.02.014>
- Finger, B., Hans, S. L., Bernstein, V. J., & Cox, S. M. (2009). Parent relationship quality and infant–mother attachment. *Attachment & Human Development*, 11(3), 285-306.  
<https://doi.org/10.1080/14616730902814960>
- Fiv.fr. (2013). *La FIV ICSI*. Fiv.fr. Consulté 21 février à l'adresse <https://www.fiv.fr/fiv-icsi/>
- Flouri, E., Tzavidis, N., & Kallis, C. (2010). Adverse life events, area socioeconomic disadvantage, and psychopathology and resilience in young children: The importance of risk factors' accumulation and protective factors' specificity. *European Child & Adolescent Psychiatry*, 19(6), 535-546. <https://doi.org/10.1007/s00787-009-0068-x>

- Folkman, S. (2008). The case for positive emotions in the stress process. *Anxiety, Stress, & Coping*, 21(1), 3-14. <https://doi.org/10.1080/10615800701740457>
- France Diplomatie. (2025). *Les chiffres de l'adoption internationale*. France Diplomatie - Ministère de l'Europe et des Affaires étrangères. Consulté 31 janvier 2025, à l'adresse <https://www.diplomatie.gouv.fr/fr/adopter-a-l-etranger/la-mission-de-l-adoption-internationale/les-chiffres-de-l-adoption-internationale/>
- Franco Pérez, A. F., De Pablo, J. L., Salvador, Z., & Tusseau, M. (2021, juin 17). *Diagnostic préimplantatoire : Quelles maladies sont détectées ?* inviTRA. Consulté 19 février à l'adresse <https://www.invitra.fr/maladies-genetiques-et-dpi/>
- Gagnon-Oosterwaal, N., Cossette, L., Smolla, N., Pomerleau, A., Malcuit, G., Chicoine, J.-F., Jéliu, G., Belhumeur, C., & Berthiaume, C. (2012). Pre-Adoption Adversity and Self-Reported Behavior Problems in 7 Year-Old International Adoptees. *Child Psychiatry & Human Development*, 43(4), 648-660. <https://doi.org/10.1007/s10578-011-0279-5>
- Gaille, M. (2011). *Le désir d'enfant. Histoire intime, enjeu politique*. Presses Universitaires de France. <https://doi.org/10.3917/puf.gail.2011.01>
- Galdiolo, S., & Roskam, I. (2012). The transition to parenthood and development of parents' personality and emotional competencies. *International Review of Sociology*, 22(1), 53-70. <https://doi.org/10.1080/03906701.2012.657530>
- Galdiolo, S., & Roskam, I. (2014). Development of personality traits in response to childbirth: A longitudinal dyadic perspective. *Personality and Individual Differences*, 69, 223-230. <https://doi.org/10.1016/j.paid.2014.06.002>
- Galdiolo, S., & Roskam, I. (2015). Chapitre 3. La naissance d'un enfant : Un événement de vie qui transforme les parents ? In *Stress et défis de la parentalité* (p. 61-86). De Boeck Supérieur. <https://doi.org/10.3917/dbu.rokam.2015.01.0061>

- Galdiolo, S., & Roskam, I. (2017). Development of attachment orientations in response to childbirth: A longitudinal dyadic perspective. *Personality and Individual Differences*, 108, 136-143. <https://doi.org/10.1016/j.paid.2016.12.016>
- Galinsky, E. (1987). *The Six Stages Of Parenthood* (Addison-Wesley). Da Capo Lifelong Books.
- Gauffin, H., Flensner, G., & Landtblom, A.-M. (2015). Being parents with epilepsy: Thoughts on its consequences and difficulties affecting their children. *Neuropsychiatric Disease and Treatment*, 11, 1291-1298. <https://doi.org/10.2147/NDT.S74222>
- Gawlik, S., Müller, M., Hoffmann, L., Dienes, A., Wallwiener, M., Sohn, C., Schlehe, B., & Reck, C. (2014). Prevalence of paternal perinatal depressiveness and its link to partnership satisfaction and birth concerns. *Archives of Women's Mental Health*, 17(1), 49-56. <https://doi.org/10.1007/s00737-013-0377-4>
- Geertz, W., Frerichs, W., Inhestern, L., & Bergelt, C. (2023). Supportive and psychosocial peer-group interventions for children and adolescents of parents with cancer: A systematic review. *Patient Education and Counseling*, 114, 107844. <https://doi.org/10.1016/j.pec.2023.107844>
- George, C., & Solomon, J. (1996). Representational models of relationships: Links between caregiving and attachment. *Infant Mental Health Journal: Infancy and Early Childhood*, 17(3), 198-216. [https://doi.org/10.1002/\(SICI\)1097-0355\(199623\)17:3<198::AID-IMHJ2>3.0.CO;2-L](https://doi.org/10.1002/(SICI)1097-0355(199623)17:3<198::AID-IMHJ2>3.0.CO;2-L)
- George, C., & Solomon, J. (2008). The caregiving system: A behavioral systems approach to parenting. In *Handbook of attachment: Theory, research, and clinical applications*, 2nd ed (p. 833-856). The Guilford Press.
- GETHEM. (2024). *GETHEM - Education Thérapeutique et Mucoviscidose*. Consulté 18 février à l'adresse <https://educationtherapeutique.muco-cftr.fr/>

- Gettler, L. T., McDade, T. W., Agustin, S. S., & Kuzawa, C. W. (2011). Short-term changes in fathers' hormones during father-child play: Impacts of paternal attitudes and experience. *Hormones and Behavior*, 60(5), 599-606. <https://doi.org/10.1016/j.yhbeh.2011.08.009>
- Girault, A., Blanc, J., Gayet, V., Goffinet, F., & Hubert, D. (2016). Maternal and perinatal outcomes of pregnancies in women with cystic fibrosis – A single centre case-control study. *Respiratory Medicine*, 113, 22-27. <https://doi.org/10.1016/j.rmed.2016.02.010>
- Godelier, M. (2014). Systèmes de parenté et formes de famille. *Recherches de Science Religieuse*, 102(3), 357-372. <https://doi.org/10.3917/rsr.143.0357>
- Goetz, D. M., & Savant, A. P. (2021). Review of CFTR modulators 2020. *Pediatric Pulmonology*, 56(12), 3595-3606. <https://doi.org/10.1002/ppul.25627>
- Goldberg, R. E., & Short, S. E. (2016). What do we know about children living with HIV-infected or AIDS-ill adults in Sub-Saharan Africa? A systematic review of the literature. *AIDS Care*, 28 Suppl 2(sup2), 130-141. <https://doi.org/10.1080/09540121.2016.1176684>
- Goodman, A. (2018). Chapitre 7. Devenir parent : De l'idéalisation au burn-out parental. In *Le burn-out parental* (p. 121-139). De Boeck Supérieur. <https://doi.org/10.3917/dbu.roska.2017.01.0121>
- Grasemann, H., & Ratjen, F. (2023). Cystic Fibrosis. *New England Journal of Medicine*, 389(18), 1693-1707. <https://doi.org/10.1056/NEJMra2216474>
- Gravillon, I. (2016). Le désir d'enfant dans tous ses états. *L'école des parents*, 618(1), 27-33. <https://doi.org/10.3917/epar.618.0027>
- Grebe, N. M., Sarafin, R. E., Strenth, C. R., & Zilioli, S. (2019). Pair-bonding, fatherhood, and the role of testosterone: A meta-analytic review. *Neuroscience and Biobehavioral Reviews*, 98, 221-233. <https://doi.org/10.1016/j.neubiorev.2019.01.010>

Green, J., & Goldwyn, R. (2002). Annotation: Attachment disorganisation and psychopathology: new findings in attachment research and their potential implications for developmental psychopathology in childhood. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 43(7), 835-846.

<https://doi.org/10.1111/1469-7610.00102>

Gross, M. (2018). *Idées reçues sur l'homoparentalité*. Le Cavalier Bleu.

<https://doi.org/10.3917/lcb.gross.2018.01>

Haines, A. J., & Middleton, P. G. (2022). Pulmonary disorders in pregnancy: Bronchiectasis, cystic fibrosis, sarcoidosis and interstitial diseases. *Best Practice & Research Clinical Obstetrics & Gynaecology*, 85, 114-126. <https://doi.org/10.1016/j.bpobgyn.2022.09.001>

Haker, M., Peper, J., Haagen, M., Heesen, C., & Rahn, A. C. (2023). The Psychosocial Impact of Parental Multiple Sclerosis on Children and Adolescents: A Systematic Review. *International Journal of MS Care*, 25(2), 63-70. <https://doi.org/10.7224/1537-2073.2021-075>

Han, H.-R., Floyd, O., Kim, K., Cudjoe, J., Warren, N., Seal, S., & Sharps, P. (2019).

Intergenerational Interventions for People Living with HIV and Their Families: A Systematic Review. *AIDS and Behavior*, 23(1), 21-36. <https://doi.org/10.1007/s10461-018-2223-1>

Handberg, C., Myrup, P., & Højberg, A.-L. (2022). “I was worried about not being good enough”. Experiences and perspectives on pregnancy, childbirth and parenthood when living with a neuromuscular disorder – an exploration of everyday life challenges. *Disability and Rehabilitation*, 44(10), 1821-1829. <https://doi.org/10.1080/09638288.2020.1804628>

Harris-Waller, J., Granger, C., & Hussain, M. (2018). Psychological interventions for adoptive parents: A systematic review. *Adoption & Fostering*, 42(1), 6-21.

<https://doi.org/10.1177/0308575918754481>

- Hasdenteufel, M., & Quintard, B. (2022). Dyadic Experiences and Psychosocial Management of Couples Facing Advanced Cancer: A Systematic Review of the Literature. *Frontiers in Psychology*, 13. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2022.827947>
- Hatchuel, F. (2019). Parentalité (parenting and parenthood – crianza parental). In *Dictionnaire de sociologie clinique* (p. 455-458). érès. <https://doi.org/10.3917/eres.vande.2019.01.0455>
- Himelstein, S., Graham, S., & Weiner, B. (1991). An Attributional Analysis of Maternal Beliefs about the Importance of Child-Rearing Practices. *Child Development*, 62(2), 301. <https://doi.org/10.2307/1131004>
- Higgins, K. S., Birnie, K. A., Chambers, C. T., Wilson, A. C., Caes, L., Clark, A. J., Lynch, M., Stinson, J., & Campbell-Yeo, M. (2015). Offspring of Parents with Chronic Pain: A Systematic Review and Meta-Analysis of Pain, Health, Psychological, and Family Outcomes. *Pain*, 156(11), 2256-2266. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000000293>
- Hofer, M., Hirt, A., Kurowski, T., & Boehler, A. (2012). 317 Resilience, physical and psychical well-being and health related quality of life in adult CF patients. *Journal of Cystic Fibrosis*, 11, S138. [https://doi.org/10.1016/S1569-1993\(12\)60485-8](https://doi.org/10.1016/S1569-1993(12)60485-8)
- Hoghughi, M., & Long, N. (2004). Handbook of Parenting: Theory and Research for Practice. In *Handbook of Parenting: Theory and Research for Practice* (SAGE Publications Ltd, p. 461). <https://doi.org/10.4135/9781848608160>
- Holstad, Y., Westergren, A., Lindqvist, M., & Bay, A. (2025). Parenthood against the clock: Experiences of being a parent with congenital heart disease - A qualitative study. *Progress in Pediatric Cardiology*, 76, 101779. <https://doi.org/10.1016/j.ppedcard.2024.101779>
- Horner, R. (2013). Interventions for children coping with parental multiple sclerosis: A systematic review. *Journal of the American Association of Nurse Practitioners*, 25(6), 309-313. <https://doi.org/10.1111/j.1745-7599.2012.00795.x>

- Houzel, D. (2002). IV – Les enjeux de la parentalité. In *La parentalité. Défi pour le troisième millénaire. Un hommage international à Serge Lebovici* (L. Solis-Ponton, p. 61-70). Presses Universitaires de France <https://doi.org/10.3917/puf.soli.2002.01.0061>
- Houzel, D. (avec Dayan, J., Bécue-Amoris, R., Bouregba, A., & France Direction de l'action sociale). (1999). *Les enjeux de la parentalité*. Éditions Érès.
- Howell, E. A., Mora, P., & Leventhal, H. (2006). Correlates of early postpartum depressive symptoms. *Maternal and Child Health Journal*, 10(2), 149-157.  
<https://doi.org/10.1007/s10995-005-0048-9>
- Hubert, D. (2017). Mucoviscidose. *CrossRef Listing of Deleted DOIs*.  
[https://doi.org/10.1016/s1634-6939\(17\)72003-0](https://doi.org/10.1016/s1634-6939(17)72003-0)
- Huizinga, G. A., Visser, A., Van der Graaf, W. T. A., Hoekstra, H. J., Stewart, R. E., & Hoekstra-Weebers, J. E. H. M. (2011). Family-oriented multilevel study on the psychological functioning of adolescent children having a mother with cancer. *Psycho-Oncology*, 20(7), 730-737. <https://doi.org/10.1002/pon.1779>
- Human Fertilisation & Embryology Authority. (s. d.). *Costs and funding* / HFEA. Consulté 22 février 2025, à l'adresse <https://www.hfea.gov.uk/treatments/explore-all-treatments/costs-and-funding/>
- Imbert, G. (2010). L'entretien semi-directif : à la frontière de la santé publique et de l'anthropologie. *Recherche en soins infirmiers*, 102(3), 23-34.  
<https://doi.org/10.3917/rsi.102.0023>
- Irwin, L. G., & Johnson, J. (2005). Interviewing Young Children: Explicating Our Practices and Dilemmas. *Qualitative Health Research*, 15(6), 821-831.  
<https://doi.org/10.1177/1049732304273862>

Jacob, A., Hubert, D., Brain, C., Grenet, D., & Flahault, C. (2025). Exploring the lived experiences of parents living with cystic fibrosis: A qualitative study. *Journal of Health Psychology*.

<https://doi.org/10.1177/13591053241307874>

Jacob Alby, V., & Vivès, J.-M. (2015). Parentalité et paternité : Les nouvelles modalités contemporaines du « faire famille ». *Dialogue*, n° 207(1), 19-30. Cairn.info.

<https://doi.org/10.3917/dia.207.0019>

Jacob, M. L., & Storch, E. A. (2013). Postpartum anxiety disorders. *Asian Pacific Journal of Reproduction*, 2(1), 63-68. [https://doi.org/10.1016/S2305-0500\(13\)60119-0](https://doi.org/10.1016/S2305-0500(13)60119-0)

Jain, R., Kazmerski, T. M., Zuckerwise, L. C., West, N. E., Montemayor, K., Aitken, M. L., Cheng, E., Roe, A. H., Wilson, A., Mann, C., Ladores, S., Sjoberg, J., Poranski, M., & Taylor-Cousar, J. L. (2022). Pregnancy in cystic fibrosis: Review of the literature and expert recommendations. *Journal of Cystic Fibrosis*, 21(3), 387-395. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2021.07.019>

Jain, R., Magaret, A., Vu, P. T., VanDalfsen, J. M., Keller, A., Wilson, A., Putman, M. S., Mayer-Hamblett, N., Esther, C. R., & Taylor-Cousar, J. L. (2022). Prospectively evaluating maternal and fetal outcomes in the era of CFTR modulators: The MAYFLOWERS observational clinical trial study design. *BMJ Open Respiratory Research*, 9(1). <https://doi.org/10.1136/bmjresp-2022-001289>

Jamieson, N., Fitzgerald, D., Singh-Grewal, D., Hanson, C. S., Craig, J. C., & Tong, A. (2014). Children's Experiences of Cystic Fibrosis: A Systematic Review of Qualitative Studies. *Pediatrics*, 133(6), e1683-e1697. <https://doi.org/10.1542/peds.2014-0009>

Johansson, M., Adolfsson, A., Berg, M., Francis, J., Hogström, L., Janson, P. O., Sogn, J., & Hellström, A.-L. (2010). Gender perspective on quality of life, comparisons between groups 4–5.5 years after unsuccessful or successful IVF treatment. *Acta Obstetrica et Gynecologica Scandinavica*, 89(5), 683-691. <https://doi.org/10.3109/00016341003657892>

- Johansson, M., Hellström, A.-L., & Berg, M. (2011). Severe male infertility after failed ICSI treatment-a phenomenological study of men's experiences. *Reproductive Health*, 8(1), Article 1. <https://doi.org/10.1186/1742-4755-8-4>
- Juffer, F., Palacios, J., Le Mare, L., Sonuga-Barke, E. J. S., Tieman, W., Bakermans-Kranenburg, M. J., Vorria, P., van IJzendoorn, M. H., & Verhulst, F. C. (2011). II. Development of Adopted Children with Histories of Early Adversity. *Monographs of the Society for Research in Child Development*, 76(4), 31-61. <https://doi.org/10.1111/j.1540-5834.2011.00627.x>
- Kahn, J. R., Goldscheider, F., & García-Manglano, J. (2013). Growing Parental Economic Power in Parent–Adult Child Households: Coresidence and Financial Dependency in the United States, 1960–2010. *Demography*, 50(4), 1449-1475. <https://doi.org/10.1007/s13524-013-0196-2>
- Kalucza, S., Hammarström, A., & Nilsson, K. (2015). Mental health and parenthood – A longitudinal study of the relationship between self-reported mental health and parenthood. *Health Sociology Review*, 24(3), 283-296. <https://doi.org/10.1080/14461242.2015.1051079>
- Kazmerski, T. M., Jain, R., Lee, M., & Taylor-Cousar, J. L. (2022). Parenthood impacts short-term health outcomes in people with cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis*, 21(4), 662-668. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2022.02.006>
- Kazmerski, T. M., Sawicki, G. S., Miller, E., Jones, K. A., Abebe, K. Z., Tuchman, L. K., Ladores, S., Rubenstein, R. C., Sagel, S. D., Weiner, D. J., Pilewski, J. M., Orenstein, D. M., & Borrero, S. (2018). Sexual and reproductive health behaviors and experiences reported by young women with cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis*, 17(1), 57-63. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2017.07.017>
- Kazmerski, T. M., Stransky, O. M., Wright, C. E., Albanowski, M., Pilewski, J. M., Talabi, M. B., Callegari, L. S., Chang, J. C., Abebe, K. Z., Miller, E., Deal, A., O'Leary, R., & Borrero, S. (2024).

Feasibility Testing of a Web-Based Reproductive Decision Support Tool for Cystic Fibrosis.

*Journal of Cystic Fibrosis*, 23(3), 404-411. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2023.10.003>

Kazmerski, T. M., West, N. E., Jain, R., Uluer, A., Georgiopoulos, A. M., Aitken, M. L., & Taylor-Cousar, J. L. (2021). Family-building and parenting considerations for people with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, 57(S1), S75-S88. <https://doi.org/10.1002/ppul.25620>

Kenrick, D. T., Griskevicius, V., Neuberg, S. L., & Schaller, M. (2010). Renovating the Pyramid of Needs: Contemporary Extensions Built Upon Ancient Foundations. *Perspectives on psychological science: a journal of the Association for Psychological Science*, 5(3), 292-314. <https://doi.org/10.1177/1745691610369469>

Khan, H. S., & Tran, P. (2025). Use of CFTR modulators in pregnancy: New information for neonatal, paediatrics and midwifery teams. *Archives of Disease in Childhood - Fetal and Neonatal Edition*, 110(2), 118-121. <https://doi.org/10.1136/archdischild-2024-327678>

Kim, G. E., Choi, H.-Y., & Kim, E.-J. (2018). Impact of economic problems on depression in single mothers: A comparative study with married women. *PLoS ONE*, 13(8), e0203004. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0203004>

Kitzmann, K. M. (2000). Effects of marital conflict on subsequent triadic family interactions and parenting. *Developmental Psychology*, 36(1), 3-13. <https://doi.org/10.1037//0012-1649.36.1.3>

König, A., & and Reinsch, S. (2024). “I am happy to be alive, but I prefer to have children without my chronic disease”: Chronically ill persons’ views on reproduction and genetic testing for their own condition. *New Genetics and Society*, 43(1), e2332299. <https://doi.org/10.1080/14636778.2024.2332299>

Kramer, M. S., Lydon, J., Séguin, L., Goulet, L., Kahn, S. R., McNamara, H., Genest, J., Dassa, C., Chen, M. F., Sharma, S., Meaney, M. J., Thomson, S., Van Uum, S., Koren, G., Dahhou, M.,

- Lamoureux, J., & Platt, R. W. (2009). Stress Pathways to Spontaneous Preterm Birth: The Role of Stressors, Psychological Distress, and Stress Hormones. *American Journal of Epidemiology*, 169(11), 1319-1326. <https://doi.org/10.1093/aje/kwp061>
- Kuo, P. X., Braungart-Rieker, J. M., Burke Lefever, J. E., Sarma, M. S., O'Neill, M., & Gettler, L. T. (2018). Fathers' cortisol and testosterone in the days around infants' births predict later paternal involvement. *Hormones and Behavior*, 106, 28-34. <https://doi.org/10.1016/j.yhbeh.2018.08.011>
- Kuzawa, C. W., Gettler, L. T., Huang, Y., & McDade, T. W. (2010). Mothers have lower testosterone than non-mothers: Evidence from the Philippines. *Hormones and Behavior*, 57(4), 441-447. <https://doi.org/10.1016/j.yhbeh.2010.01.014>
- Kyei, J. M., Manu, A., Kotoh, A. M., Meherali, S., & Ankomah, A. (2020). Challenges experienced by clients undergoing assisted reproductive technology in Ghana: An exploratory descriptive study. *International Journal of Gynecology & Obstetrics*, 149(3), 326-332. <https://doi.org/10.1002/ijgo.13132>
- Lachance-Grzela, M., & Bouchard, G. (2010). Why Do Women Do the Lion's Share of Housework? A Decade of Research. *Sex Roles*, 63(11), 767-780. <https://doi.org/10.1007/s11199-010-9797-z>
- Larsson, H., Viding, E., Rijdsdijk, F. V., & Plomin, R. (2008). Relationships Between Parental Negativity and Childhood Antisocial Behavior over Time: A Bidirectional Effects Model in a Longitudinal Genetically Informative Design. *Journal of Abnormal Child Psychology*, 36(5), 633-645. <https://doi.org/10.1007/s10802-007-9151-2>
- Latuillière, M. (2015). Qui dit parentalité ? *Spirale - La grande aventure de bébé*, 75(3), 15-22. <https://doi.org/10.3917/spi.075.0015>

Lau, N., Ramos, K. J., Aitken, M. L., Goss, C. H., Barton, K. S., Kross, E. K., & Engelberg, R. A. (2024).

“We’ll deal with it as it comes”: A qualitative analysis of romantic partners’ dyadic coping in cystic fibrosis. *Journal of Social and Personal Relationships*, 41(4), 689-705.

<https://doi.org/10.1177/02654075231190617>

Lazarus, R. S., & Folkman, S. (1984). *Stress, appraisal, and coping*. Springer publishing company.

Leach, L. S., Poyser, C., Cooklin, A. R., & Giallo, R. (2016). Prevalence and course of anxiety disorders (and symptom levels) in men across the perinatal period: A systematic review. *Journal of Affective Disorders*, 190, 675-686. <https://doi.org/10.1016/j.jad.2015.09.063>

Lebecque, O., Leal, T., & Lebecque, P. (2019). Mucoviscidose : Le tournant des modulateurs. *Louvain Médical*, 138(2), 126-136.

Legifrance.fr. (2010). *Code de l’action sociale et des familles. Chapitre Ier ter : Comité national de soutien à la parentalité (Articles D141-9 à D141-12)*. Legifrance.gouv.fr. Consulté 17 février, à l’adresse <https://www.legifrance.gouv.fr/codes/id/LEGISCTA000022997842/2010-11-04>

Leikas, S., Lahti-Pulkkinen, M., & Räikkönen, K. (2023). Facet-level changes in mothers’ neuroticism and extraversion from early pregnancy to 6 months post-partum. *European Journal of Personality*, 37(4), 435-452. Scopus. <https://doi.org/10.1177/08902070221098908>

Lennartz, C., Arundel, R., & Ronald, R. (2016). Younger Adults and Homeownership in Europe Through the Global Financial Crisis. *Population, Space and Place*, 22(8), 823-835. <https://doi.org/10.1002/psp.1961>

Li, J.-L., Ye, Q., & Liu, N. (2024). Cancer parents’ experiences of parenting concerns about minor children: A meta-synthesis of qualitative studies. *International Journal of Nursing Studies Advances*, 6, 100210. <https://doi.org/10.1016/j.ijnsa.2024.100210>

Liang, L. A., Berger, U., & Brand, C. (2019). Psychosocial factors associated with symptoms of depression, anxiety and stress among single mothers with young children: A population-

based study. *Journal of Affective Disorders*, 242, 255-264.

<https://doi.org/10.1016/j.jad.2018.08.013>

Lionetti, F., Pastore, Massimiliano, & Barone, L. (2015). Parenting Stress: The Roles of Attachment States of Mind and Parenting Alliance in the Context of Adoption. *Parenting*, 15(2), 75-91.

<https://doi.org/10.1080/15295192.2015.1020142>

Lloyd, E. C., & Barth, R. P. (2011). Developmental outcomes after five years for foster children returned home, remaining in care, or adopted. *Children and Youth Services Review*, 33(8), 1383-1391. <https://doi.org/10.1016/j.childyouth.2011.04.008>

Lobel, M., Cannella, D. L., Graham, J. E., DeVincent, C., Schneider, J., & Meyer, B. A. (2008). Pregnancy-specific stress, prenatal health behaviors, and birth outcomes. *Health Psychology*, 27(5), 604-615. <https://doi.org/10.1037/a0013242>

LOI n° 2002-305 du 4 mars 2002 relative à l'autorité parentale (1), 2002-305 (2002).

Lorenzino, L., & Mikolajczak, M. (2015). Chapitre 2. Maman stressée, grossesse perturbée ? Influences du stress prénatal sur la grossesse et l'enfant. In *Stress et défis de la parentalité* (p. 41-60). De Boeck Supérieur. <https://doi.org/10.3917/dbu.rokam.2015.01.0041>

Luberti, F. R., & Carré, J. M. (2024). Testosterone's role in modulating human behaviors relevant to mating and parenting. *Frontiers in Neuroendocrinology*, 72, 101112.

<https://doi.org/10.1016/j.yfrne.2023.101112>

Luhmann, M., Hofmann, W., Eid, M., & Lucas, R. E. (2012). Subjective well-being and adaptation to life events: A meta-analysis. *Journal of Personality and Social Psychology*, 102(3), 592-615.

<https://doi.org/10.1037/a0025948>

Maccoby, E. E., & Martin, J. (1983). Socialization in The Context of The Family—Parent-Child Interaction. In *Handbook of child Psychology: Vol. 4. Socialization, Personality, and Social Development* (P. H. Mussen & E.M. Hetherington (Eds), p. 1-101). Wiley.

<https://www.scribd.com/document/657418328/Socialization-in-the-context-of-the-family-parent-child-interaction-3>

Madigan, S., Moran, G., Schuengel, C., Pederson, D. R., & Otten, R. (2007). Unresolved maternal attachment representations, disrupted maternal behavior and disorganized attachment in infancy : Links to toddler behavior problems. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 48(10), 1042-1050. <https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2007.01805.x>

Main, M., Kaplan, N., & Cassidy, J. (1985). Security in Infancy, Childhood, and Adulthood: A Move to the Level of Representation. *Monographs of the Society for Research in Child Development*, 50(1/2), 66-104. <https://doi.org/10.2307/3333827>

Main, M., & Solomon, J. (1986). Discovery of an insecure-disorganized/disoriented attachment pattern. In *Affective development in infancy* (p. 95-124). Ablex Publishing.

Malinowski, P. K., Pozo-Kaderman, C., Muriel, A. C., Hanania, J., Pirl, W. F., Dorste, A., Rotman, C., Jankauskaite, G., Joyce, E. K., & Morris, S. E. (2025). Interventions for Children of Parents With Cancer From the Time of Cancer Diagnosis Through Bereavement: Two Systematic Reviews. *Psycho-Oncology*, 34(3), e70105. <https://doi.org/10.1002/pon.70105>

Martin, C. (2003). La parentalité en questions—Perspectives sociologiques. *Rapport pour le Haut Conseil de la Population et de la Famille*. <https://www.vie-publique.fr/files/rapport/pdf/034000552.pdf>

Masquelier-Savatier, C. (2013). À l'occasion du désir d'enfant. *Gestalt*, 43(1), 43-55. <https://doi.org/10.3917/gest.043.0043>

Matuszczak-Świgoń, J., & Bakiera, L. (2021). Experiences of adults as parents with cancer: A systematic review and thematic synthesis of qualitative studies. *Journal of Psychosocial Oncology*, 39(6), 765-788. <https://doi.org/10.1080/07347332.2020.1859662>

- Maurin, L. (2021, avril 8). La part de couples sans enfant va-t-elle augmenter ? *Centre d'observation de la société*. Consulté 18 mars 2025, à l'adresse <https://www.observationsociete.fr/structures-familiales/couples-sans-enfant/>
- Mazet, S., & Desmoulière, A. (2024). Mieux connaître la mucoviscidose. *Actualités Pharmaceutiques*, 63(638), 17-21. <https://doi.org/10.1016/j.actpha.2024.06.005>
- McGrath, J. M., Records, K., & Rice, M. (2008). Maternal Depression and Infant Temperament Characteristics. *Infant behavior & development*, 31(1), 71-80. <https://doi.org/10.1016/j.infbeh.2007.07.001>
- Mellier, D., & Gratton, E. (2015). Éditorial. La parentalité, un état des lieux. *Dialogue*, 207(1), 7-18. <https://doi.org/10.3917/dia.207.0007>
- Messmer Uccelli, M., & Ponzio, M. (2018). A case-control study assessing parenting sense of competence in people with multiple sclerosis. *Rehabilitation Psychology*, 63(3), 431-437. <https://doi.org/10.1037/rep0000211>
- Meunier, J. C., Roskam, I., & Browne, D. T. (2011). Relations between parenting and child behavior : Exploring the child's personality and parental self-efficacy as third variables. *International Journal of Behavioral Development*, 35(3), 246-259. <https://doi.org/10.1177/0165025410382950>
- Mickelson, K. D., & Marcussen, K. (2023). *Gender and the Transition to Parenthood: Understanding the A, B, C's*. Springer International Publishing. <https://doi.org/10.1007/978-3-031-24155-0>
- Middleton, P. G., Gade, E. J., Aguilera, C., MacKillop, L., Button, B. M., Coleman, C., Johnson, B., Albrechtsen, C., Edenborough, F., Rigau, D., Gibson, P. G., & Backer, V. (2020). ERS/TSANZ Task Force Statement on the management of reproduction and pregnancy in women with

airways diseases. *European Respiratory Journal*, 55(2).

<https://doi.org/10.1183/13993003.01208-2019>

Mikolajczak, M. (2015). Chapitre 1. Du stress d'être parent.... In *Stress et défis de la parentalité* (p. 13-39). De Boeck Supérieur. <https://doi.org/10.3917/dbu.roskam.2015.01.0013>

Mikolajczak, M., Gross, J. J., & Roskam, I. (2019). Parental Burnout: What Is It, and Why Does It Matter? *Clinical Psychological Science*, 7(6), 1319-1329.

<https://doi.org/10.1177/2167702619858430>

Mikolajczak, M., Luminet, O., & Menil, C. (2006). Predicting resistance to stress: Incremental validity of trait emotional intelligence over alexithymia and optimism. *Psicothema*, 18 Suppl, 79-88. <https://doi.org/10.1016/j.irp.2023.104382>

Mikolajczak, M., Raes, M.-E., Avalosse, H., & Roskam, I. (2018). Exhausted Parents: Sociodemographic, Child-Related, Parent-Related, Parenting and Family-Functioning Correlates of Parental Burnout. *Journal of Child and Family Studies*, 27(2), 602-614.

<https://doi.org/10.1007/s10826-017-0892-4>

Mikolajczak, M., & Roskam, I. (2018). Chapitre 2. Du stress parental ordinaire au burn-out parental. In *Le burn-out parental* (p. 35-48). De Boeck Supérieur.

<https://doi.org/10.3917/dbu.roska.2017.01.0035>

Mikolajczak, M., Roy, E., Luminet, O., Fillée, C., & de Timary, P. (2007). The moderating impact of emotional intelligence on free cortisol responses to stress. *Psychoneuroendocrinology*, 32(8), 1000-1012. <https://doi.org/10.1016/j.psyneuen.2007.07.009>

Milgrom, J., Gemmill, A. W., Bilszta, J. L., Hayes, B., Barnett, B., Brooks, J., Ericksen, J., Ellwood, D., & Buist, A. (2008). Antenatal risk factors for postnatal depression: A large prospective study. *Journal of Affective Disorders*, 108(1-2), 147-157. <https://doi.org/10.1016/j.jad.2007.10.014>

Milo, F., & Tabarini, P. (2022). Pregnancy experience in the setting of cystic fibrosis: A systematic review and thematic synthesis. *Journal of Advanced Nursing*, 78(10), 3159-3173.

<https://doi.org/10.1111/jan.15358>

Ministère de la justice. (2009, décembre 21). *Quand le divorce était interdit (1816—1884)*.

Consulté 17 février 2025, à l'adresse

<https://www.justice.gouv.fr/actualites/actualite/quand-divorce-etait-interdit-1816-1884>

Matheson, L., Harcourt, D., & Hewlett, S. (2010). « Your whole life, your whole world, it changes': Partners » experiences of living with rheumatoid arthritis. *Musculoskeletal Care*, 8(1), 46-54.

<https://doi.org/10.1002/msc.165>

Mc Hugh, R., Mc Feeters, D., Boyda, D., & O'Neill, S. (2016). Coping styles in adults with cystic fibrosis: Implications for emotional and social quality of life. *Psychology, Health & Medicine*, 21(1), 102-112. <https://doi.org/10.1080/13548506.2015.1020317>

Miles, M., & Huberman, A. M. (2003). *Analyse des données qualitatives*. Bruxelles : De Boeck – Wesmael Ed.

Missonnier, S. (2022). Lumières et ombres de la notion de parentalité aujourd'hui. *Journal de la psychanalyse de l'enfant*, Vol. 12(2), 305-328. Cairn.info.

<https://doi.org/10.3917/jpe.024.0305>

Mitmansgruber, H., Smrekar, U., Eder, J., & Ellemunter, H. (2019). P452 Predicting psychological well-being and symptoms in adults living with cystic fibrosis: The role of self-compassion and psychological resilience. *Journal of Cystic Fibrosis*, 18, S185. [https://doi.org/10.1016/S1569-1993\(19\)30744-1](https://doi.org/10.1016/S1569-1993(19)30744-1)

[https://doi.org/10.1016/S1569-1993\(19\)30744-1](https://doi.org/10.1016/S1569-1993(19)30744-1)

Mitmansgruber, H., Smrekar, U., Rabanser, B., Beck, T., Eder, J., & Ellemunter, H. (2016).

Psychological resilience and intolerance of uncertainty in coping with cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis*, 15(5), 689-695. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2015.11.011>

- Mittinty, M. M., Mittinty, M. N., Buchbinder, R., Lassere, M., Chand, V., Whittle, S., March, L., & Hill, C. (2024). Interpersonal Process of Dyadic Coping in Rheumatoid Arthritis: A Perspective From the Australian Rheumatology Association Database. *The Journal of Rheumatology*, 51(9), 862-869. <https://doi.org/10.3899/jrheum.2023-0664>
- Mu, X., Cui, C., Xu, W., & Cui, J. (2022). Generational variations in the timing of entry into homeownership in Shanghai: The role of family formation and family of origin. *Urban Studies*, 59(13), 2695-2718. <https://doi.org/10.1177/00420980211040947>
- Mulder, C. H. (2006). Home-ownership and family formation. *Journal of Housing and the Built Environment*, 21(3), 281-298. <https://doi.org/10.1007/s10901-006-9050-9>
- Myrskylä, M., & Margolis, R. (2014). Happiness: Before and After the Kids. *Demography*, 51(5), 1843-1866. <https://doi.org/10.1007/s13524-014-0321-x>
- Nelson, S. K., Kushlev, K., English, T., Dunn, E. W., & Lyubomirsky, S. (2013). In Defense of Parenthood: Children Are Associated With More Joy Than Misery. *Psychological Science*, 24(1), 3-10. <https://doi.org/10.1177/0956797612447798>
- Nelson, S. K., Kushlev, K., & Lyubomirsky, S. (2014). The pains and pleasures of parenting: When, why, and how is parenthood associated with more or less well-being? *Psychological Bulletin*, 140(3), 846-895. <https://doi.org/10.1037/a0035444>
- Newberger, C. M. (1980). The cognitive structure of parenthood: Designing a descriptive measure. *New Directions for Child and Adolescent Development*, 1980(7), 45-67. <https://doi.org/10.1002/cd.23219800705>
- Newberger, C. M., & Cook, S. J. (1983). Parental awareness and child abuse: A cognitive-developmental analysis of urban and rural samples. *American Journal of Orthopsychiatry*, 53(3), 512-524. <https://doi.org/10.1111/j.1939-0025.1983.tb03395.x>
- Neyrand, G. (2011). *Soutenir et contrôler les parents : Le dispositif de parentalité*. Érès.

- Neyrand, G. (2015). Dis Gérard, c'est quoi, la parentalité ? *Spirale - La grande aventure de bébé*, 73(1), 145-154. <https://doi.org/10.3917/spi.073.0145>
- Neyrand, G. (2016). Le dispositif de parentalité, soutien et contrôle en famille d'accueil. In N. Chapon (Éd.), *Parentalité d'accueil et mémoire* (p. 29-34). Presses universitaires de Provence. <https://doi.org/10.4000/books.pup.49280>
- Nomaguchi, K., & Milkie, M. A. (2020). Parenthood and Well-Being: A Decade in Review. *Journal of marriage and the family*, 82(1), 198-223. <https://doi.org/10.1111/jomf.12646>
- Notaires.fr. (2022). *Les conditions d'adoption en France*. <https://www.notaires.fr/fr/couple-famille/adoption/les-conditions-dadoption-en-france>
- Observatoire national de la protection de l'enfance. (2023). *Principaux chiffres sur la situation des pupilles de l'état au 31 décembre 2022*. [https://onpe.france-enfance-protegee.fr/wp-content/uploads/2024/09/fs-principaux\\_chiffres\\_situation\\_pupille\\_31dec2022.pdf](https://onpe.france-enfance-protegee.fr/wp-content/uploads/2024/09/fs-principaux_chiffres_situation_pupille_31dec2022.pdf)
- O'Connor, K. E., Goodwin, D. L., NeSmith, A., Garcia, B., Mingora, C., Ladores, S. L., Rowe, S. M., Krick, S., & Solomon, G. M. (2021). Elexacafator/tezacaftor/ivacaftor resolves subfertility in females with CF: A two center case series. *Journal of Cystic Fibrosis*, 20(3), 399-401. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2020.12.011>
- O'hara, M. W., & Swain, A. M. (1996). Rates and risk of postpartum depression—A meta-analysis. *International Review of Psychiatry*, 8(1), 37-54. <https://doi.org/10.3109/09540269609037816>
- Opinionway. (2024). *Être parent aujourd'hui Sens, forces, inspirations et besoins*. Observatoire des Familles Unaf-Udaf-Uraf. Consulté 9 avril 2025, à l'adresse <https://www.udaf29.fr/app/uploads/sites/58/2025/02/ppt-udaf29-observatoire-des-familles-2024-du-finistere.pdf>

Oppenheim-Gluckman, H., Marioni, G., Chambry, J., Aechbacher, M.-T., & Graindorge, C. (2007).

Revue de la littérature des conséquences des maladies somatiques des parents sur leurs enfants. *L'information psychiatrique*, 83(5), 413-418.

<https://doi.org/10.3917/inpsy.8305.0413>

Organisation Mondiale de la Santé. (2019). *Classification Internationale des Maladies, 11ème édition (CIM-11)*. <https://icd.who.int/fr>

Page, A., Goldenberg, A., & Matthews, A. L. (2022). Lived experiences of individuals with cystic fibrosis on CFTR-modulators. *BMC Pulmonary Medicine*, 22(1), Article 1.

<https://doi.org/10.1186/s12890-022-01825-2>

Palacios, J., & Sánchez-Sandoval, Y. (2006). Stress in parents of adopted children. *International Journal of Behavioral Development*, 30(6), 481-487.

<https://doi.org/10.1177/0165025406071492>

Parchomiuk, M. (2014). Social Context of Disabled Parenting. *Sexuality and Disability*, 32(2), 231-242. <https://doi.org/10.1007/s11195-014-9349-5>

Partridge, S. E. (1988). The parental self-concept: A theoretical exploration and practical application. *American Journal of Orthopsychiatry*, 58(2), 281-287.

<https://doi.org/10.1111/j.1939-0025.1988.tb01589.x>

Paulson, J. F., & Bazemore, S. D. (2010). Prenatal and Postpartum Depression in Fathers and Its Association With Maternal Depression: A Meta-analysis. *JAMA*, 303(19), 1961-1969.

<https://doi.org/10.1001/jama.2010.605>

Pearlin, L. I. (1989). The Sociological Study of Stress. *Journal of Health and Social Behavior*, 30(3), 241-256. <https://doi.org/10.2307/2136956>

- Pearlin, L. I. (1999). The Stress Process Revisited. In C. S. Aneshensel & J. C. Phelan (Éds.), *Handbook of the Sociology of Mental Health* (p. 395-415). Springer US.  
[https://doi.org/10.1007/0-387-36223-1\\_19](https://doi.org/10.1007/0-387-36223-1_19)
- Perren, S., von Wyl, A., Bürgin, D., Simoni, H., & von Klitzing, K. (2005). Depressive symptoms and psychosocial stress across the transition to parenthood: Associations with parental psychopathology and child difficulty. *Journal of Psychosomatic Obstetrics & Gynecology*, 26(3), 173-183. <https://doi.org/10.1080/01674820400028407>
- Piaget, J. (1935). *La naissance de l'intelligence chez l'enfant*. Delachaux & Niestlé.
- Prinz, P., Stams, G. J. J. M., Deković, M., Reijntjes, A. H. A., & Belsky, J. (2009). The relations between parents' Big Five personality factors and parenting: A meta-analytic review. *Journal of Personality and Social Psychology*, 97(2), 351-362. <https://doi.org/10.1037/a0015823>
- Pulman, B. (2002). Malinowski et l'ignorance de la paternité. *Revue française de sociologie*, 43(4), 739-763. <https://doi.org/10.2307/3322882>
- Purc-Stephenson, R., & Lyseng, A. (2016). How are the kids holding up? A systematic review and meta-analysis on the psychosocial impact of maternal breast cancer on children. *Cancer Treatment Reviews*, 49, 45-56. <https://doi.org/10.1016/j.ctrv.2016.07.005>
- Quittner, A. L., Abbott, J., Georgiopoulos, A. M., Goldbeck, L., Smith, B., Hempstead, S. E., Marshall, B., Sabadosa, K. A., & Elborn, S. (2016). International Committee on Mental Health in Cystic Fibrosis: Cystic Fibrosis Foundation and European Cystic Fibrosis Society consensus statements for screening and treating depression and anxiety. *Thorax*, 71(1), 26-34.  
<https://doi.org/10.1136/thoraxjnl-2015-207488>
- Quittner, A. L., Abbott, J., Hussain, S., Ong, T., Uluer, A., Hempstead, S., Lomas, P., & Smith, B. (2020). Integration of mental health screening and treatment into cystic fibrosis clinics:

Evaluation of initial implementation in 84 programs across the United States. *Pediatric Pulmonology*, 55(11), 2995-3004. <https://doi.org/10.1002/ppul.24949>

Quittner, A. L., Goldbeck, L., Abbott, J., Duff, A., Lambrecht, P., Solé, A., Tibosch, M. M., Brucefors, A. B., Yüksel, H., Catastini, P., Blackwell, L., & Barker, D. (2014). Prevalence of depression and anxiety in patients with cystic fibrosis and parent caregivers: Results of The International Depression Epidemiological Study across nine countries. *Thorax*, 69(12), 1090-1097.

<https://doi.org/10.1136/thoraxjnl-2014-205983>

Rabanser, B., Mitmansgruber, H., Smrekar, U., Beck, T., Niedermayr, K., Eder, J., & Ellemunter, H. (2015). WS09.4 The role of resilience in quality of life of adult patients with cystic fibrosis (CF). *Journal of Cystic Fibrosis*, 14, S17. [https://doi.org/10.1016/S1569-1993\(15\)30055-2](https://doi.org/10.1016/S1569-1993(15)30055-2)

Raby, K. L., & Dozier, M. (2019). Attachment across the Lifespan: Insights from Adoptive Families. *Current opinion in psychology*, 25, 81-85. <https://doi.org/10.1016/j.copsyc.2018.03.011>

Ratcliff, B. G. (2019). Fiche 2. L'état de stress post-traumatique chez l'enfant : Critères diagnostiques et facteurs de risque. In *Le traumatisme psychique chez l'enfant* (p. 31-44). In Press. <https://doi.org/10.3917/pres.laroc.2019.01.0032>

Razaz, N., Nourian, R., Marrie, R. A., Boyce, W. T., & Tremlett, H. (2014). Children and adolescents adjustment to parental multiple sclerosis: A systematic review. *BMC Neurology*, 14, 107. <https://doi.org/10.1186/1471-2377-14-107>

Robert-Bobée, I. (2006). *Ne pas avoir eu d'enfant : Plus fréquent pour les femmes les plus diplômées et les hommes les moins diplômés* (France, portrait social). Insee. Consulté 18 mars 2025, à l'adresse <https://www.insee.fr/fr/statistiques/1373140?sommaire=1373141>

Robertson, E., Grace, S., Wallington, T., & Stewart, D. E. (2004). Antenatal risk factors for postpartum depression: A synthesis of recent literature. *General Hospital Psychiatry*, 26(4), 289-295. <https://doi.org/10.1016/j.genhosppsych.2004.02.006>

Roskam, I. (2015). Introduction. In *Stress et défis de la parentalité* (p. 7-12). De Boeck Supérieur.

<https://doi.org/10.3917/dbu.rokam.2015.01.0007>

Roskam, I., Brianda, M.-E., & Mikolajczak, M. (2018). A Step Forward in the Conceptualization and Measurement of Parental Burnout: The Parental Burnout Assessment (PBA). *Frontiers in Psychology*, 9. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2018.00758>

Roskam, I., Galdiolo, S., & Meunier, J.-C. (2015). *Psychologie de la parentalité : Modèles théoriques et concepts fondamentaux*. De Boeck Supérieur.

Roskam, I., Meunier, J.-C., & Stievenart, M. (2011). Parent attachment, childrearing behavior, and child attachment: Mediated effects predicting preschoolers' externalizing behavior. *Journal of Applied Developmental Psychology*, 32(4), 170-179.

<https://doi.org/10.1016/j.appdev.2011.03.003>

Roskam, I., & Mikolajczak, M. (2015). *Stress et défis de la parentalité. Thématiques contemporaines*. De Boeck Supérieur ; Cairn.info.

<https://doi.org/10.3917/dbu.rokam.2015.01>

Roskam, I., & Mikolajczak, M. (2021). The slippery slope of parental exhaustion: A process model of parental burnout. *Journal of Applied Developmental Psychology*, 77, 101354.

<https://doi.org/10.1016/j.appdev.2021.101354>

Roskam, I., Philippot, P., Gallée, L., Verhofstadt, L., Soenens, B., Goodman, A., & Mikolajczak, M. (2022). I am not the parent I should be: Cross-sectional and prospective associations between parental self-discrepancies and parental burnout. *Self and Identity*, 21(4), 430-455.

<https://doi.org/10.1080/15298868.2021.1939773>

Sameroff, A. J. (1975). Transactional Models in Early Social Relations. *Human Development*, 18(1/2), 65-79.

- Sameroff, A. J., & Chandler, M. J. (1975). Reproductive risk and the continuum of caretaking casualty. In *Review of child development research* (F. D. Horowitz, M. Hetherington, S. Scarr-Salapatek, G. Sigel (Eds.), Vol. 4, p. 187-244).
- Sánchez-Sandoval, Y., & Palacios, J. (2012). Stress in adoptive parents of adolescents. *Children and Youth Services Review*, 34(7), 1283-1289. <https://doi.org/10.1016/j.childyouth.2012.03.002>
- Santos-Nunes, M., Narciso, I., Vieira-Santos, S., & Roberto, M. S. (2018). Adoptive parents' evaluation of expectations and children's behavior problems: The mediational role of parenting stress and parental satisfaction. *Children and Youth Services Review*, 88, 11-17. <https://doi.org/10.1016/j.childyouth.2018.02.044>
- Schenkel, J. L. S., Donelli, T. M. S., & Gonçalves, T. (2024). Enfrentamento e Maternidade no contexto da Fibrose Cística : Estudos de caso // Coping and Maternity in the context of Cystic Fibrosis: case studies. *Revista de Psicologia*, 15, e024017-e024017. <https://doi.org/10.36517/revpsiufc.15.2024.e024017>
- Schwarzer, R. (2001). Stress, resources, and proactive coping. *Applied Psychology*, 50(3), 400-407.
- Sellenet, C. (2016). L'accueil familial et ses paradoxes. In N. Chapon (Éd.), *Parentalité d'accueil et mémoire* (p. 53-62). Presses universitaires de Provence. <https://doi.org/10.4000/books.pup.49320>
- Service des études juridiques - Sénat. (2009). *Le statut du beau-parent. Etude de législation comparée n°196- avril 2009*. Sénat. Consulté 17 février 2025, à l'adresse <https://www.senat.fr/lc/lc196/lc196.html>
- Service-public.fr. (2022). *Assurance d'un crédit immobilier : À quoi sert la convention Aeras ?* Consulté 6 avril 2025, à l'adresse <https://www.service-public.fr/particuliers/vosdroits/F20520>

Service-public.fr. (2024a). *Adoption*. Consulté 19 février 2025, à l'adresse <https://www.service-public.fr/particuliers/vosdroits/N133>

Service-public.fr. (2024b, mai). *Exercice de l'autorité parentale*. Consulté 17 février 2025, à l'adresse <https://www.service-public.fr/particuliers/vosdroits/F3132>

Service-public.fr. (2024c, juillet). *Délégation de l'autorité parentale*. Consulté 17 février 2025, à l'adresse <https://www.service-public.fr/particuliers/vosdroits/F3134>

Shrout, M. R., Weigel, D. J., & Laurenceau, J.-P. (2024). Couples and concealable chronic illness: Investigating couples' communication, coping, and relational well-being over time. *Journal of Family Psychology*, 38(1), 136-148. <https://doi.org/10.1037/fam0001136>

Site officiel de la convention Aeras. (2023). *La grille de référence Aeras*. Consulté 6 avril 2025, à l'adresse <https://www.aeras-infos.fr/sites/aeras/accueil/la-convention-aeras/documents-de-reference/la-grille-de-reference-aeras.html>

Sitruk, P. (2023). Politiques de soutien à la parentalité en France. *Perspectives Psy*, 62(4), 356-361. <https://doi.org/10.1051/ppsy/2023624356>

Skvirsky, V., Taubman – Ben-Ari, O., Ben Shlomo, S., Azuri, J., & Horowitz, E. (2019). Contributors to Women's Perceived Stress at the Start of Assisted Reproductive Technology. *The Journal of Psychology*, 153(1), 23-36. <https://doi.org/10.1080/00223980.2018.1471037>

Smith, J. A. (1996). Beyond the divide between cognition and discourse: Using interpretative phenomenological analysis in health psychology. *Psychology & Health*, 11: 261-271. <https://doi.org/10.1080/08870449608400256>

Smith, J. A. (2004). Reflecting on the development of interpretative phenomenological analysis and its contribution to qualitative research in psychology. *Qualitative Research in Psychology*, 1: 39-54. <https://doi.org/10.1191/1478088704qp004oa>

Smith, J.A. (2015). *Qualitative psychology: A practical guide to research methods*. Sage: Londres.

- Smith, J. A., Flowers, P. & Larkin, M. (2009). *Interpretative phenomenological analysis: Theory, method, research*. London: Sage.
- Smith, J. A., & Osborn, M. (2007). Pain as an assault on the self: An interpretative phenomenological analysis of the psychological impact of chronic benign low back pain. *Psychology & Health*, 22: 517-534. <https://doi.org/10.1080/14768320600941756>
- Solidarites.gouv.fr. (2022a, mai 20). *Mise à jour de la charte nationale de soutien à la parentalité*. Consulté 14 février 2025, à l'adresse <https://solidarites.gouv.fr/mise-jour-de-la-charte-nationale-de-soutien-la-parentalite>
- Solidarites.gouv.fr. (2022b, décembre 6). *Accompagner les familles monoparentales*. Consulté 17 février 2025, à l'adresse <https://solidarites.gouv.fr/accompagner-les-familles-monoparentales>
- Solis-Ponton, L. (2002). *La parentalité. Défi pour le troisième millénaire. Un hommage international à Serge Lebovici*. Presses Universitaires de France ; Cairn.info. <https://doi.org/10.3917/puf.soli.2002.01>
- Somanadhan, S., O'Donnell, R., Bracken, S., McNulty, S., Sweeney, A., O'Toole, D., Rogers, Y., Flynn, C., Awan, A., Baker, M., O'Neill, A., McAneney, H., Gibbs, L., Larkin, P., & Kroll, T. (2023). Children and young people's experiences of living with rare diseases: An integrative review. *Journal of Pediatric Nursing*, 68, e16-e26. <https://doi.org/10.1016/j.pedn.2022.10.014>
- Song, D., Jiang, W., Hu, S., Zhu, R., Pu, C., Wang, Y., Shan, C., & Zhao, C. (2024). Identification of Psychological Symptom Clusters and Their Influencing Factors in Women Undergoing Assisted Reproductive Technology in China: A Cross-Sectional Study. *International Journal of Women's Health*, 16, 1493-1504. <https://doi.org/10.2147/IJWH.S468644>

- Song, L., Rini, C., Ellis, K. R., & Northouse, L. L. (2016). *Appraisals, perceived dyadic communication, and quality of life over time among couples coping with prostate cancer*. 24(9), 3757-3765. <https://doi.org/10.1007/s00520-016-3188-0>
- Sroufe, L. A. (2005). Attachment and development: A prospective, longitudinal study from birth to adulthood. *Attachment & Human Development*, 7(4), 349-367.  
<https://doi.org/10.1080/14616730500365928>
- Stewart, D. W., & Shamdasani, P. (2014), *Focus Groups: Theory and Practice*. 3rd ed., Thousand Oaks, CA: Sage.
- Stransky, O. M., Benipal, S., Pam, M., Taylor-Cousar, J. L., Documet, P., & Kazmerski, T. M. (2023). “Find ways to work parenting into cystic fibrosis”: A PhotoVoice exploration of being a parent and having CF. *Pediatric Pulmonology*, 58(5), 1527-1534.  
<https://doi.org/10.1002/ppul.26355>
- Stransky, O. M., Pam, M., Bernard, M., Taylor-Cousar, J., & Kazmerski, T. (2024). A qualitative exploration of parenthood experiences and needs among people with cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis*, 23(3), 424-428. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2023.08.005>
- Tableaux de l'économie française, Insee. (2020). *Mariages – Pacs – Divorces –*. Consulté 14 février 2025, à l'adresse  
<https://www.insee.fr/fr/statistiques/4277624?sommaire=4318291&q=divorce+et+divortialit%C3%A9#titre-bloc-3>
- Theux-Heymans, M. N. de. (2011). Intervenir auprès de parents en post adoption : Quelles sont les orientations suggérées par la théorie de l'attachement ? *Devenir*, 23(2), 161-192.  
<https://doi.org/10.3917/dev.112.0161>

- Tissot, H., Favez, N., & Despland, J.-N. (2019). Dépression parentale dans la période du post-partum : Six arguments en faveur d'une approche familiale. *Psychothérapies*, 39(4), 217-223. <https://doi.org/10.3917/psys.194.0217>
- Tocchioni, V., Berrington, A., Vignoli, D., & Vitali, A. (2021). The Changing Association Between Homeownership and the Transition to Parenthood. *Demography*, 58(5), 1843-1865. <https://doi.org/10.1215/00703370-9420322>
- Toftager, M., Sylvest, R., Schmidt, L., Bogstad, J., Løssl, K., Prætorius, L., Zedeler, A., Bryndorf, T., & Pinborg, A. (2018). Quality of life and psychosocial and physical well-being among 1,023 women during their first assisted reproductive technology treatment: Secondary outcome to a randomized controlled trial comparing gonadotropin-releasing hormone (GnRH) antagonist and GnRH agonist protocols. *Fertility and Sterility*, 109(1), 154-164. <https://doi.org/10.1016/j.fertnstert.2017.09.020>
- Tong, A., Sainsbury, P., & Craig, J. (2007). Consolidated criteria for reporting qualitative research (COREQ): A 32-item checklist for interviews and focus groups. *International Journal for Quality in Health Care*, 19(6), 349-357. <https://doi.org/10.1093/intqhc/mzm042>
- Tuffin, S., Scheffler, F., Bosquet, D., Debailleul, P. A., Cozette, C., Camo, M., Lefranc, E., Maerten, I., Benkhalifa, M., De Broca, A., Manaouil, C., & Cabry-Goubet, R. (2021). Égalité et équité dans le cadre de la nouvelle loi de bioéthique, visions croisées du juriste et du médecin de la reproduction. *Éthique & Santé*, 18(4), 236-244. <https://doi.org/10.1016/j.etique.2021.10.001>
- Turck, D. (2013, mars 27). *La mucoviscidose*. FMC-HGE. Consulté 12 janvier 2025, à l'adresse <https://www.fmcgastro.org/postu-main/postu-2013-paris/textes-postu-2013-paris/la-mucoviscidose/>
- Uccelli, M. M., Traversa, S., Trojano, M., Viterbo, R. G., Ghezzi, A., & Signori, A. (2013). Lack of information about multiple sclerosis in children can impact parents' sense of competency

and satisfaction within the couple. *Journal of the Neurological Sciences*, 324(1-2), 100-105.

<https://doi.org/10.1016/j.jns.2012.10.010>

Untas, A., & Dorard, G. (2024). *Bilan 2017-2024 du programme JAID*. Consulté 6 avril 2025, à

l'adresse <https://cloud.u-paris.fr/s/SzTKd9nNtYdCKDo>

Untas, A., Koleck, M., Rascle, N., & Bruchon-Schweitzer, M. (2012). Du modèle transactionnel à une approche dyadique en psychologie de la santé. *Psychologie Française*, 57(2), 97-110.

<https://doi.org/10.1016/j.psfr.2012.03.004>

Untas, A., Pilato, J., Justin, P., & Dorard, G. (2023). Jeunes aidants : Quelles sont les

connaissances, les représentations et les pratiques des professionnels de santé ? In A. Untas, É. Boujut, & K. Lamore (Éds.), *Le patient et son entourage* (p. 165-184). Editions des archives contemporaines. <https://doi.org/10.17184/eac.7244>

Vaincre la Mucoviscidose. (s. d.). *Un demi-siècle de progrès*. Vaincre la Mucoviscidose. Consulté

15 janvier 2025, à l'adresse <https://www.vaincrelamuco.org/decouvrir-lassociation/qui-sommes-nous/dates-et-chiffres-cles>

Vaincre la Mucoviscidose. (2015a). *Antibiotiques*. Vaincre la Mucoviscidose. Consulté 14 janvier

2025, à l'adresse <https://www.vaincrelamuco.org/vivre-avec/la-mucoviscidose/symptomes-respiratoires/antibiotiques>

Vaincre la Mucoviscidose. (2015b). *Diabète*. Vaincre la Mucoviscidose. Consulté 14 février 2025, à

l'adresse <https://www.vaincrelamuco.org/vivre-avec/la-mucoviscidose/autres-symptomes/diabete>

Vaincre la Mucoviscidose. (2015c). *Douleur*. Vaincre la Mucoviscidose. Consulté 18 février 2025, à

l'adresse <https://www.vaincrelamuco.org/vivre-avec/la-mucoviscidose/autres-symptomes/douleur>

Vaincre la Mucoviscidose. (2019). *Registre français de la mucoviscidose 2018*. Consulté 10 janvier 2025, à l'adresse

[https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre\\_francais\\_de\\_la\\_mucoviscidose\\_bilan\\_2018.pdf](https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre_francais_de_la_mucoviscidose_bilan_2018.pdf)

Vaincre la Mucoviscidose. (2020). *Registre français de la mucoviscidose 2019*. Consulté 10 janvier 2025, à l'adresse

[https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre\\_francais\\_de\\_la\\_mucoviscidose\\_bilan\\_2019.pdf](https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre_francais_de_la_mucoviscidose_bilan_2019.pdf)

Vaincre la Mucoviscidose. (2021). *Registre français de la mucoviscidose 2020*. Consulté 10 janvier 2025, à l'adresse

[https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre\\_francais\\_de\\_la\\_mucoviscidose\\_bilan\\_2020.pdf](https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre_francais_de_la_mucoviscidose_bilan_2020.pdf)

Vaincre la Mucoviscidose. (2022). *Registre français de la mucoviscidose 2021*. Consulté 10 janvier 2025, à l'adresse

[https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre\\_francais\\_de\\_la\\_mucoviscidose\\_bilan\\_2021\\_0.pdf](https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre_francais_de_la_mucoviscidose_bilan_2021_0.pdf)

Vaincre la Mucoviscidose. (2023a). *Accès aux modulateurs de CFTR en France en date du 11/09/2023*. Consulté 18 février 2025, à l'adresse

[https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/tableaurecapaccsmodulateur\\_france\\_1\\_1.09.23\\_vf\\_0.pdf](https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/tableaurecapaccsmodulateur_france_1_1.09.23_vf_0.pdf)

Vaincre la Mucoviscidose. (2023b). *Kinésithérapie*. Vaincre la Mucoviscidose. Consulté 14 janvier 2025, à l'adresse <https://www.vaincrelamuco.org/vivre-avec/la-mucoviscidose/symptomes-respiratoires/kinesitherapie>

Vaincre la Mucoviscidose. (2023c). *Nutrition*. Vaincre la Mucoviscidose. Consulté 18 février 2025, à l'adresse <https://www.vaincrelamuco.org/vivre-avec/la-mucoviscidose/symptomes-digestifs/nutrition>

Vaincre la Mucoviscidose. (2023d). *Registre français de la mucoviscidose 2022*. Consulté 10 janvier 2025, à l'adresse [https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre\\_francais\\_mucoviscidose\\_bilan2022.pdf](https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre_francais_mucoviscidose_bilan2022.pdf)

Vaincre la Mucoviscidose. (2024a). *Registre français de la mucoviscidose 2023*. Consulté 8 janvier 2025, à l'adresse [https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre\\_2023\\_-\\_bilan.pdf](https://www.vaincrelamuco.org/sites/default/files/registre_2023_-_bilan.pdf)

Vaincre la Mucoviscidose. (2024b, octobre 11). *Ouverture des inscriptions à la Journée des patients parents !* Vaincre la Mucoviscidose. Consulté 6 avril 2025, à l'adresse <https://www.vaincrelamuco.org/2024/10/11/ouverture-des-inscriptions-la-journee-des-patients-parents-3796>

Vallido, T., Wilkes, L., Carter, B., & Jackson, D. (2010). Mothering disrupted by illness: A narrative synthesis of qualitative research. *Journal of Advanced Nursing*, 66(7), 1435-1445. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2648.2010.05350.x>

Vanhollebeke, J., & Van Steijvoort, E. (2025). Reproductive decision-making of people living with cystic fibrosis and their partners: A systematic review of psychosocial and ethical considerations. *Patient Education and Counseling*, 130, 108449. <https://doi.org/10.1016/j.pec.2024.108449>

Vasilca, A. I., & David, L. T. (2018). From Depression to Life Satisfaction in Mothers of Children with Autism Spectrum Disorders. *Bulletin of the Transilvania University of Braşov, Series VII: Social Sciences and Law*, 11(1), 57-62.

- Vaske, I., Thöne, M. F., Kühl, K., Keil, D. C., Schürmann, W., Rief, W., & Stenzel, N. M. (2015). *For better or for worse: A longitudinal study on dyadic coping and quality of life among couples with a partner suffering from COPD*. 38(6), 851-862. <https://doi.org/10.1007/s10865-015-9657-y>
- Verhaak, C. M., Smeenk, J. M. J., Evers, A. W. M., Kremer, J. A. M., Kraaijmaat, F. W., & Braat, D. D. M. (2007). Women's emotional adjustment to IVF: A systematic review of 25 years of research. *Human Reproduction Update*, 13(1), 27-36. <https://doi.org/10.1093/humupd/dml040>
- Verkerk, G. J. M., Denollet, J., Van Heck, G. L., Van Son, M. J. M., & Pop, V. J. M. (2005). Personality Factors as Determinants of Depression in Postpartum Women: A Prospective 1-Year Follow-up Study. *Biopsychosocial Science and Medicine*, 67(4), 632. <https://doi.org/10.1097/01.psy.0000170832.14718.98>
- Vie publique. (2021, juin 14). *L'accompagnement des nouvelles parentalités*. Consulté 14 février 2025, à l'adresse <https://www.vie-publique.fr/eclairage/20154-laccompagnement-des-nouvelles-parentalites>
- Vie publique. (2024, novembre 14). *Gestation pour autrui (GPA) : Quelles sont les évolutions du droit ?* Consulté 19 février 2025, à l'adresse <https://www.vie-publique.fr/eclairage/18636-gestation-pour-autrui-gpa-quelles-sont-les-evolutions-du-droit>
- Wadd, K. M., Bennett, P. N., & Grant, J. (2014). Mothers Requiring Dialysis: Parenting and End-Stage Kidney Disease. *Journal of Renal Care*, 40(2), 140-146. <https://doi.org/10.1111/jorc.12066>
- Weisman, O., Granat, A., Gilboa-Schechtman, E., Singer, M., Gordon, I., Azulay, H., Kuint, J., & Feldman, R. (2010). The experience of labor, maternal perception of the infant, and the

- mother's postpartum mood in a low-risk community cohort. *Archives of Women's Mental Health*, 13(6), 505-513. <https://doi.org/10.1007/s00737-010-0169-z>
- Weldon, P., Cove, J., & Maguire, J. (2019). WS14-6 Psychological resilience in adults with cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis*, 18, S27-S28. [https://doi.org/10.1016/S1569-1993\(19\)30204-8](https://doi.org/10.1016/S1569-1993(19)30204-8)
- Werner, S., Hochman, Y., Rosenne, H., & Kurtz, S. (2021). Cooperation or Tension? Dyadic Coping in Cystic Fibrosis. *Family Process*, 60(1), 285-298. <https://doi.org/10.1111/famp.12538>
- White, C. P., Mendoza, J., White, M. B., & Bond, C. (2009). Chronically ill mothers experiencing pain: Relational coping strategies used while parenting young children. *Chronic Illness*, 5(1), 33-45. <https://doi.org/10.1177/1742395309102820>
- Wong, M. S., Mangelsdorf, S. C., Brown, G. L., Neff, C., & Schoppe-Sullivan, S. J. (2009). Parental beliefs, infant temperament, and marital quality: Associations with infant–mother and infant–father attachment. *Journal of Family Psychology*, 23(6), 828-838. <https://doi.org/10.1037/a0016491>
- Woody, C. A., Ferrari, A. J., Siskind, D. J., Whiteford, H. A., & Harris, M. G. (2017). A systematic review and meta-regression of the prevalence and incidence of perinatal depression. *Journal of Affective Disorders*, 219, 86-92. <https://doi.org/10.1016/j.jad.2017.05.003>
- Wright, C. E., Savidge, K., Armitage, H., & Barr, E. A. (2024). Factors Related to Postpartum Depression in People Living With HIV: A Systematic Review. *Journal of Psychosocial Nursing and Mental Health Services*, 62(11), 19-26. <https://doi.org/10.3928/02793695-20240612-03>
- Wu, A. K., Elliott, P., Katz, P. P., & Smith, J. F. (2013). Time costs of fertility care: The hidden hardship of building a family. *Fertility and Sterility*, 99(7), 2025-2030. <https://doi.org/10.1016/j.fertnstert.2013.01.145>

Yu, Q., Zhang, J., Zhang, L., Zhang, Q., Guo, Y., Jin, S., & Chen, J. (2019). Who Gains More? The Relationship Between Parenthood and Well-Being. *Evolutionary Psychology*, 17(3), 1474704919860467. <https://doi.org/10.1177/1474704919860467>

Zadeh, Z. Y., Jenkins, J., & Pepler, D. (2010). A transactional analysis of maternal negativity and child externalizing behavior. *International Journal of Behavioral Development*, 34(3), 218-228. <https://doi.org/10.1177/0165025409350953>

# Portefolio de la candidate

## I. Formation et Parcours

### 1) Formations

- 2009 Diplôme d'Etat de Psychomotricité, Institut de Formation de la Pitié-Salpêtrière, Université Pierre et Marie Curie, Paris, France, Mention Assez Bien.
- 2011 Master 2 RIM (Rééducation et Ingénierie Médicale), option recherche clinique, Université Pierre et Marie Curie, Paris, France, Mention Bien.
- 2016 Licence de psychologie, Université Paris Descartes, Boulogne-Billancourt, France, Mention Bien.
- 2015 Semestre d'échange à Bishop's University, Sherbrooke, Canada.
- 2018 Master de psychologie de la santé, Université Paris Descartes, Boulogne-Billancourt, France  
Mention Bien.
- 2019 Inscription en doctorat, Laboratoire de Psychopathologie et Processus de Santé, Université Paris Cité, Boulogne-Billancourt, France.
- 2020 Diplôme Universitaire Psychologie et Psychopathologie de la Parentalité, Université Paris Cité, Boulogne-Billancourt, France. Mention Très Bien.

### 2) Parcours professionnel

Après avoir travaillé quelques années en tant psychomotricienne dans le champ de la petite enfance (crèche, ateliers de motricité libre, bébés nageurs) et de la pédiatrie (oncopédiatrie, service de soin de suite, et pédopsychiatrie), j'ai fait le constat frustrant que travailler avec des enfants pouvait être très compliqué lorsque les parents n'investissaient pas la prise en charge de leur enfant. En parallèle, mes expériences en pédopsychiatrie, m'ont également donnée envie de changer de posture, notamment suite au dépôt de certains récits de maltraitance pendant mes séances. Ces différents aspects m'ont amenée à reprendre des études de psychologie avec pour objectif de devenir clinicienne. Entre la psychologie du développement et la psychologie de la santé m'ont cœur a balancé, mais c'est ma première vocation qui l'a emportée. En effet, celle-ci était apparue suite à un stage en deuxième année

de psychomotricité qui m'avait conduite à participer activement à la prise en charge d'une femme atteinte d'un cancer et en fin de vie. Mon stage en psycho-oncologie lors de mon master RIM et mes différentes expériences professionnelles ont confirmé m'ont intérêt pour la psychologie de la santé.

Le master RIM et le master de psychologie ont également confirmé mon gout pour la recherche. J'ai très vite exprimé le souhait de continuer à travailler en recherche et éventuellement faire une thèse. Toutefois ma reconversion professionnelle était motivée par un ardent désir de poursuivre la clinique. Postuler à une bourse doctorale n'était ainsi pas dans mes projets.

Lors de mon master, Cécile Flahault m'a proposé le projet de recherche qui fait l'objet de cette thèse. Je me suis engagée dedans avec entrain en tant que chargée de recherche, puis j'ai décidé d'en faire un sujet de thèse. J'ai eu la chance d'obtenir deux financements pour travailler à mi-temps sur cette recherche. En parallèle je travaille depuis 2020 comme psychologue en libéral à Nantes.

## **II. Activités de recherche**

### **1) Recherche sur la mucoviscidose et la parentalité**

**Depuis octobre 2018** : Chargée de recherche puis doctorante (2019) à l'Institut de Psychologie, Université Paris Cité, Laboratoire de Psychopathologie et Processus de Santé.

Sujet : L'expérience des patient.e.s atteint.e.s de mucoviscidose devenu.e.s parents, de leurs conjoint.e.s et de leurs enfants.

Directeur de recherche et de thèse : Cécile FLAHAULT (MCF-HDR, Université Paris Cité, LPPS)

Investigateurs principaux : Dominique HUBERT (Dr, Hôpital Cochin– Paris) & Dominique GRENET (Dr, Hôpital Foch – Suresnes)

Financements :

- CDD d'un an à 60% entre octobre 2018 et octobre 2019
- CDD de 3 ans à 40% entre fin 2020 et mi 2024.

Les deux financements ont été gérés par l'Institut Necker, dépositaire de la bourse de recherche obtenue de la part de l'Association Grégory Lemarchal.

## 2) Collaboration en dehors du travail de thèse

**2022 – Aujourd’hui** : Collaboration au travail de recherche sur l’éco-anxiété d’Hélène JALIN, doctorante au Laboratoire des Pays de la Loire, sous la direction d’Anne CONGARD et Abdel Hakim BOUDOUKHA.

**2019-2020** : participation à une revue systématique de littérature sur l’expérience des patient.e.s adultes jeunes avec des troubles cardiaques, menée par Jonathan JOURNIAC, doctorant au Laboratoire de Psychopathologie et Processus de Santé, sous la direction d’Aurélie UNTAS.

**2011** : participation à deux études à l’Institut Curie de Paris (Validation de la traduction française d’un questionnaire sur les besoins en soins de support des femmes atteintes d’un cancer du sein – Validation de la traduction française d’un questionnaire évaluant la qualité de vie des personnes âgées en oncologie), sous la direction d’Anne BREDART et Sylvie DOLBAULT.

## 3) Diffusion scientifique nationale et internationale

### a) Articles et communications en lien avec le sujet de la thèse

#### Articles publiés dans des revues à comité de lecture (N=2)

**Jacob, A.**, Hubert, D., Brain, C., Grenet, G., & Flahault, C. (2025) Exploring the lived experiences of parents living with cystic fibrosis: A qualitative study. *Journal of Health Psychology*. 10.1177/13591053241307874

**Jacob, A.**, Journiac, J., Fischer, L., Astrologo, L., & Flahault, C. (2021). How do cystic fibrosis patients experience parenthood? A systematic review. *Journal of Health Psychology*, 26(1), 60-81. 10.1177/1359105320916539

#### Abstracts publiés (N=1)

**Jacob, A.**, Hubert, D., Grenet, D., Abdoul, H., Flahault, C. (2020). P358. How do cystic fibrosis patients experience parenthood? An explorative study. *Journal of Cystic Fibrosis*, 19, S156–S156

## **Communications orales (N=9+2 à venir)**

### **A venir :**

**Jacob, A.,** Brain, C., Flahault, C., Grenet, G. & Hubert, D. (2025, 4-7 juin). Experience and needs of children who have a parent with cystic fibrosis. [Communication orale] 48<sup>ème</sup> Conférence de l'European Cystic Fibrosis Society (ECFS), Milan, Italie.

**Jacob, A.,** Touma, N., Hubert, D., Brain, C., Grenet G. & Flahault, C. (2025, 9-11 juillet) Etre parent avec la mucoviscidose – Etude exploratoire. [Communication orale] 13<sup>ème</sup> Congrès de l'Association Francophone de Psychologie de la Santé, Toulouse, France.

### **Passées :**

**Jacob, A.,** Hubert, D., Brain, C., Touma, N., Grenet G. & Flahault, C. (2024, 30 novembre) Mucoviscidose et parentalité : être parent avec la muco, vivre avec un parent muco. [Communication orale] Journées pour les parents. Vaincre la mucoviscidose. Paris, France.

**Jacob, A.** (2024, 30 novembre) Comment parler de la mucoviscidose à mon enfant ? [Communication orale] Journées pour les parents. Vaincre la mucoviscidose. Paris, France.

**A. Jacob,** C. Brain, D. Hubert, D. Grenet, C. Flahault. (2023, 5-8juillet) Etude qualitative du vécu des enfants ayant un parent avec une mucoviscidose. Dans Untas, A. [et al.] (2023, 5-8juillet). Symposium : Les enfants face à la maladie d'un proche. [Communication orale] 12<sup>ème</sup> Congrès de l'Association Francophone de Psychologie de la Santé, Montpellier, France.

**Jacob, A.,** Hubert, D., Grenet D., Brain, C., Flahault, C. (2023, 26 juin). Présentation des résultats disponibles des études MucoPar et MucoKids. [Communication orale] Journée « Les sciences humaines et sociales & la mucoviscidose » Association Grégory Lemarchal et Association Vaincre la mucoviscidose, Paris, France, en ligne.

**Jacob, A.,** Hubert, D., Grenet, D., Brain, C., Flahault, C. (2022, 19-21 mai). Symposium : Santé sexuelle et Parentalité - La parentalité : parcours et retour d'expérience des patients. [Communication orale] Journées francophones de la mucoviscidose, Tours, France.

**Jacob, A.,** Hubert, D., Grenet D., Brain, C., Flahault, C., (2021, 23-27 août). Exploring understandings of cystic fibrosis patients and their spouses' parenthood experiences

through focus groups. [Communication orale] 35<sup>ème</sup> Congrès International de l'European Health Psychology Society (EHPS), en ligne.

**Jacob, A.,** Hubert, D., Grenet D., Brain, C., Flahault, C., (2021, 7-9 juillet). Parentalité et Mucoviscidose : expérience des patient.e.s devenu.e.s parents et de leurs conjoint.e.s. Etude exploratoire. [Communication orale] 11<sup>ème</sup> Congrès de l'Association Francophone de Psychologie de la Santé, Boulogne-Billancourt, France.

**Jacob, A.,** Hubert, D., (2021, 12 mars). Parentalité et Mucoviscidose. Expérience des familles avec un parent atteint de mucoviscidose. Plénière du GETHEM, Vaincre la Mucoviscidose, Paris, France, en ligne.

**Jacob, A.,** Hubert, D., (2019, 26 juin). Attentes et besoins des patients atteints de mucoviscidose devenus parents - Etude exploratoire. Journée « Les sciences humaines et sociales & la mucoviscidose » Association Grégory Lemarchal et Association Vaincre la mucoviscidose, Nanterre, France

#### **b) Communications affichées (N=2)**

**Jacob, A.,** Hubert, D., Grenet D., Brain, C., Flahault, C., (2021, 9-12 juin). Parenthood experience of cystic fibrosis patients and their spouses. An explorative study. [Communication affichée] 44<sup>ème</sup> conférence de l'European Cystic Fibrosis Society (ECFS), en ligne.

**Jacob, A.,** Hubert, D., Grenet, D., Abdoul, H., Flahault, C., (2020, 3-6 juin) P358. How do cystic fibrosis patients experience parenthood? An explorative study. [Communication affichée] 43<sup>ème</sup> Conférence de l'European Cystic Fibrosis Society (ECFS), Lyon, France, annulée à cause de l'épidémie de COVID-19

#### **c) Menée d'ateliers (N=2)**

**Jacob, A.** (2024, 30 novembre) Ma vie de co-parent : on en parle ? Atelier pour les conjoint.e.s. Journées pour les parents. Vaincre la mucoviscidose. Paris, France.

**Jacob, A.,** Brain, C., Fiant, D., Martin-Pierron, F., Flahault, C., Hubert, D. (2022, 19-21 mai). Atelier Parentalité et Mucoviscidose. Journées francophones de la mucoviscidose, Tours, France.

#### d) Articles et communications hors travail de thèse (N=3)

##### Articles (N=3)

Jalin, H., Chandès, C., Boudoukha, A.H., **Jacob A.**, Poinso, R., Congard, A. (2025). Better understanding eco-anxiety: Creation and validation of EMEA scale. *European Review of Applied Psychology*, 75(1), Doi : 10.1016/j.erap.2024.101010

Journiac, J., Vioulac, C., **Jacob, A.**, Escarnot, C., & Untas, A. (2020). What do we know about young adult cardiac patients' experience? A systematic review. *Frontiers in Psychology*, 11. (SJR Q1, IF: 2.129) Doi: 10.3389/fpsyg.2020.01119

Brédart, A., Kop, J.-L., Griesser, A.-C., Zaman, K., Panes-Ruedin, B., Jeanneret, W., Delaloye, J.-F., Zimmer, S., **Jacob, A.**, Berthet, V., Fiszer, C., Dolbeault, S. (2012). Validation of the 34-item Supportive Care Needs Survey and 8-item Breast module French versions (SCNS-SF34-Fr and SCNS-BR8-Fr) in breast cancer patients. *European Journal of Cancer Care*, 21(4), 450–459. Doi: 10.1111/j.1365-2354.2012.01356.x

##### Communications orales (N=4)

**Jacob, A.** (2025, 30 janvier). Eco-anxiété et parentalité. [Communication orale]. Conférence pour les parents - Maison pour tous, La Chapelle-sur-Erdre, France.

**Jacob, A.**, Jalin H., (2024, 10 octobre). Eco-anxiété. [Communication orale et atelier]. Association ECOS, Nantes, France

**Jacob A.**, (2022, 18 octobre). L'Eco-anxiété [Communication orale]. Semaine d'information sur la santé mentale, Fougères, France.

**Jacob, A.**, Santa Marina M., Jalin H., Entremont C. (2022, 20-22 juin) De la pratique clinique à l'intervention publique : quels rôles pour les sciences psychologiques face aux nouvelles émotions du changement climatique ? - Une contribution à la clinique psychologique de l'effondrement. [Communication orale] Congrès Scientifique Archipel 2022 - Risques systémiques, trajectoires et leviers d'action transdisciplinaires, Grenoble, France.

##### Communications affichées (N=1)

Journiac, J., Vioulac, C., **Jacob, A.**, Escarnot, C. & Untas, A., (2019, 3-7 juillet). What do we know about young adult cardiac patients' experience? A systematic review. [Communication affichée] 33<sup>ème</sup> Congrès International de l'European Health Psychology Society (EHPS), Dubrovnik, Croatie.

### III. Formations scientifiques

| Date                                                | Intitulé de la formation                                                                                                       | Organisateur<br>(ED, IFD, si autre préciser...)        | Nombre de<br>jours |
|-----------------------------------------------------|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|--------------------------------------------------------|--------------------|
| 2019                                                | Ethique et recherche                                                                                                           | Ecole doctorale                                        | 1                  |
| Jan-nov 2020                                        | DU Psychologie et psychopathologie de la parentalité                                                                           | Université de Paris                                    | 3                  |
| 18-19/02/2021                                       | EEP2 - Enseigner dans un environnement numérique                                                                               | Département de formation des doctorants                | 1                  |
| 19/04/2021                                          | MEC23 - Développer sa méthodologie de la rédaction scientifique                                                                | Département de formation des doctorants                | 1                  |
| 7/04/2021<br>24/04/2021<br>02/06/2021<br>03/07/2021 | EEP1 - Analyse réflexive des situations d'enseignement : rôle, place et posture du doctorant-enseignant - Formation à distance | Département de formation des doctorants                | 2                  |
| 21-25/06/2021                                       | Module A : Communication Scientifique en Anglais – Groupe Avancé                                                               | Ecole doctorale                                        | 4                  |
| 11/06/2021                                          | Formation Utilisation du logiciel Nvivo niveau débutant                                                                        | Qalister<br><i>Financée par l'ED et le laboratoire</i> | 1                  |
| 24/01/2022                                          | EEC7 - Get prepared for an international career                                                                                | Département de formation des doctorants                | 1                  |
| 3/02/2022<br>10/02/2022<br>14/02/2022<br>17/02/2022 | MEC20 – Mieux communiquer en distanciel grâce aux techniques théâtrales                                                        | Département de formation des doctorants                | 3,5                |
| 16/03/2022                                          | SCO10 - Science ouverte : webinaire introductif                                                                                | Bibliothèques                                          | 0,42               |
| 06/04/2022                                          | SCO12 - Science ouverte : stratégies de publications                                                                           | Bibliothèques                                          | 0,5                |
| 13/04/2022                                          | SCO13 - Science ouverte : Appréhender et optimiser l'impact de ses publications                                                | Bibliothèques                                          | 0,5                |
| 16/06/2022                                          | GST58 - Déposer sa thèse à Université Paris Cité                                                                               | Bibliothèques                                          | 0,5                |
| 18/11/2022                                          | OUN10 - Zotero : prise en main complète                                                                                        | Bibliothèques                                          | 0,42               |
| Total :                                             |                                                                                                                                |                                                        | 19,84              |

## **IV. Enseignement**

### **1) Université de Nantes**

- ⇒ Février 2025 : 3h de TD (M1 PCS) : la pratique du psychologue en libéral.
- ⇒ Mars 2022, 2023, 2024 et 2025 : 2h de CM (L1 PASS psychologie) : Facteurs psychologiques de l'adhérence thérapeutique et relation soignant.e-soigné.e.
- ⇒ Février 2022, 2023, 2024, 2025 : 4h de TD (+2h de CM en 2022) : Psychologie de la santé : différences individuelles santé et bien-être - Facteurs psychologiques de l'adhérence thérapeutique et relation soignant.e-soigné.e.
  - Total : 29 heures de cours

### **2) Université de Paris**

- ⇒ Novembre 2020, Octobre 2021, 2022, 2023, Novembre 2024 : 2h de CM (M2 santé) : méthodologie de la recherche – Focus Groupes
- ⇒ Novembre 2019 : 2h de CM (M1 santé) : approfondissement à la recherche – Focus Groupes
  - Total : 12 heures de cours

## **V. Compétences techniques (logiciels, techniques)**

Formation à la conduite de focus groupes

Formation à l'Analyse Thématique

Utilisation du logiciel Nvivo

Utilisation du logiciel LimeSurvey

Utilisation du logiciel Zotéro

## **VI. Compétences transversales et complémentaires**

- Accompagnement de stagiaires sur trois recherches (sujet de thèse, changements de comportements suite à la pandémie du COVID-19, groupes de parole et éco-anxiété)
- 2020-2023 : Création et mise en place de l'association RAFUE (Réseau des professionnel.le.s de l'accompagnement face à l'urgence environnementale).
- 2020-2022 : menée de groupes de parole « SOS thésards en détresse » pour proposer un espace d'échange aux doctorant.e.s en difficulté. Accessible à tou.te.s les doctorant.e.s de l'ED 261 3CH Cognition, Comportements et Conduites Humaines.

## Annexes

L'ensemble de nos retranscriptions représentant un volume de plus de mille pages, nous avons fourni une sélection de retranscriptions représentatives (Annexes 8 à 16). Nous avons ainsi proposé les retranscriptions de trois groupes (deux de MucoPar dont un avec des participant.e.s greffé.e.s, et le groupe des adultes de MucoKids), deux entretiens adultes MucoPar (une patiente non greffée et un patient greffé), trois entretiens MucoKids d'enfants d'âge variés (entre 6 et 15 ans) et un entretien de fratrie de pré-adolescent.e.s. Les autres contenus sont consultables sur demande.

Les retranscriptions étant du contenu protégé, elles n'apparaissent pas dans la version du manuscrit accessible au public.

## Annexe 1 : MUCOPAR - Notice d'information patient.e.s



**Titre complet de recherche :**

**« ATTENTES ET BESOINS DES PATIENTS ATTEINTS DE MUCOVISCIDOSE DEVENUS PARENTS  
ETUDE EXPLORATOIRE »  
Parentalité et Mucoviscidose  
MucoPar**

**Cette recherche est promue par l'Assistance Publique - Hôpitaux de Paris  
Délégation à la Recherche Clinique et à l'Innovation  
1 avenue Claude Vellefaux  
75010 Paris**

### **NOTE D'INFORMATION**

**Madame, Monsieur,**

Le Docteur ..... (nom, prénom), exerçant à l'hôpital ....., vous propose de participer à une recherche en psychologie de la santé.

Il est important de lire attentivement cette note avant de prendre votre décision ; n'hésitez pas à lui demander des explications.

Si vous décidez de participer à cette recherche, un consentement écrit vous sera demandé.

#### **1) Quel est le but de cette recherche ?**

Cette recherche porte sur la parentalité chez les patients atteints de mucoviscidose et se déroulera sous forme de groupe de paroles (focus groupes) ou en cas d'impossibilité sous forme d'entretiens individuels avec la psychologue de l'étude.

Pour répondre à la question posée dans la recherche, il est prévu d'inclure cinquante personnes atteintes de mucoviscidose suivies dans les CRCM (Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose) de l'hôpital Cochin (27 rue du faubourg Saint Jacques – 75014 Paris) et de l'hôpital Foch (40 rue Worth – 92150 Suresnes) qui sont parents et entre vingt et quarante de leurs conjoints. La recherche aura lieu dans les 2 hôpitaux concernés.

#### **2) Quel est le calendrier de la recherche ?**

La durée prévisionnelle de la recherche est de 2 ans et votre participation sera d'une demi-journée. Si vous acceptez de participer à cette recherche, vous serez contacté(e) par la psychologue chercheuse pour vous inscrire à un des groupes prévus. Au moins deux dates vous seront proposées. Votre conjoint est invité à participer au même groupe que vous. Les groupes seront constitués en fonction de vos spécificités médicales (germes, transplantation pulmonaire). Vous serez alors conviés dans l'un des hôpitaux participants pour participer à un groupe de paroles d'une durée de 2h qui réunira entre 6 et 10 participants. Une collation vous sera proposée lors de cette réunion. Les frais de déplacements seront pris en charge dans la limite de 150 euros par couple, sur présentation de vos factures pour les patients n'habitant pas en région parisienne. Le contenu des groupes sera enregistré (en audio) afin d'être retranscrit pour être analysé.

Si pour diverses raisons vous êtes dans l'impossibilité absolue de participer à un groupe, vous pouvez cependant solliciter un entretien de recherche individuel, de manière à participer à ce projet de recherche. Un rendez-vous sera alors à convenir avec la psychologue chercheuse. Celui-ci sera également enregistré et retranscrit pour analyse.

### 3) Si vous participez, comment vont être traitées les données recueillies pour la recherche ?

Dans le cadre de la recherche à laquelle l'AP-HP vous propose de participer, un traitement de vos données personnelles va être mis en œuvre pour permettre d'en analyser les résultats.

A cette fin, les données médicales vous concernant et les données relatives à vos habitudes de vie, seront transmises au Promoteur ou aux personnes ou partenaires agissant pour son compte, en France, et conservées jusqu'à deux ans après la dernière publication des résultats de la recherche. Ces données seront identifiées par un numéro d'enregistrement. Ces données pourront également, dans des conditions assurant leur confidentialité, être transmises aux autorités de santé françaises.

Les données médicales vous concernant pouvant documenter un dossier auprès des autorités compétentes pourront être transmises à un industriel afin qu'un plus grand nombre de patients puissent bénéficier des résultats de la recherche. Cette transmission sera faite dans les conditions assurant leur confidentialité.

Vos données pourront être utilisées pour des recherches ultérieures ou des analyses complémentaires à la présente recherche en collaboration avec des partenaires privés ou publics, en France ou à l'étranger, dans des conditions assurant leur confidentialité et le même niveau de protection que la législation européenne.

Vous pouvez retirer à tout moment votre consentement à l'utilisation ultérieure de vos données auprès du médecin qui vous suit dans le cadre de cette recherche.

Le fichier informatique utilisé pour cette recherche est mis en œuvre conformément à la réglementation française (loi Informatique et Libertés modifiée) et européenne (au Règlement Général sur la Protection des Données - RGPD). Vous disposez d'un droit d'accès, de rectification, de limitation et d'opposition au traitement des données couvertes par le secret professionnel utilisées dans le cadre de cette recherche. Ces droits s'exercent auprès du médecin en charge de la recherche qui seul connaît votre identité (identifié en première page du présent document).

Si vous décidez d'arrêter de participer à la recherche, les données recueillies précédemment à cet arrêt seront utilisées conformément à la réglementation, et exclusivement pour les objectifs de cette recherche. En effet, leur effacement serait susceptible de compromettre la validité des résultats de la recherche. Dans ce cas, vos données ne seront absolument pas utilisées ultérieurement ou pour une autre recherche.

En cas de difficultés dans l'exercice de vos droits, vous pouvez saisir le Délégué à la Protection des données de l'AP-HP à l'adresse suivante : [protection.donnees.dsi@aphp.fr](mailto:protection.donnees.dsi@aphp.fr), qui pourra notamment vous expliquer les voies de recours dont vous disposez auprès de la CNIL.

### 4) Comment cette recherche est-elle encadrée ?

L'AP-HP a pris toutes les mesures pour mener cette recherche conformément aux dispositions du Code de la santé Publique applicables aux recherches n'impliquant pas la personne humaine.

La recherche a obtenu l'avis favorable du comité d'éthique CEPRO le 02/07/2019.

### 5) Quels sont vos droits ?

Votre participation à cette recherche est entièrement libre et volontaire. Votre décision n'entraînera aucun préjudice sur la qualité des soins et des traitements que vous êtes en droit d'attendre.

Vous pourrez tout au long de la recherche demander des informations concernant votre santé ainsi que des explications sur le déroulement de la recherche au médecin qui vous suit.

Vous pouvez vous retirer à tout moment de la recherche sans justification, sans conséquence sur la suite de votre traitement ni la qualité des soins qui vous seront fournis et sans conséquence sur la relation avec votre médecin. A l'issue de ce retrait, vous pourrez être suivi par la même équipe médicale. Dans ce cas, les données collectées jusqu'au retrait seront utilisées pour l'analyse des résultats de la recherche.

Votre dossier médical restera confidentiel et ne pourra être consulté que sous la responsabilité du médecin s'occupant de votre traitement ainsi que par les autorités de santé et par des personnes dûment mandatées par l'AP-HP pour la recherche et soumises au secret professionnel.

A l'issue de la recherche et après analyse des données relatives à cette recherche, vous pourrez être informé(e) des résultats globaux en le demandant au médecin qui vous suit dans le cadre de cette recherche.

Vous pouvez également accéder directement ou par l'intermédiaire d'un médecin de votre choix à l'ensemble de vos données médicales en application des dispositions de l'article L 1111-7 du Code de la Santé Publique.

Après avoir lu toutes ces informations, discuté tous les aspects avec votre médecin et après avoir bénéficié d'un temps de réflexion d'au moins une journée si vous acceptez de participer à la recherche vous devrez signer et dater le formulaire de consentement éclairé se trouvant à la fin de ce document.

Vous pouvez également accéder directement ou par l'intermédiaire d'un médecin de votre choix à l'ensemble de vos données médicales en application des dispositions de l'article L 1111-7 du Code de la Santé Publique.

#### **Cadre réservé au service**

Nom/Prénom du participant à la recherche

Opposition exprimée : ☐ oui ☐ non

Date de délivrance de l'information :

Signature de la personne proposant la participation à la recherche

Document réalisé en 2 exemplaires. Un exemplaire doit être conservé [indiquer la durée] par l'investigateur, le deuxième doit être remis à la personne participant à la recherche

## Annexe 2 : MUCOPAR - Notice d'information conjoint.e.s



### Titre complet de recherche :

**« ATTENTES ET BESOINS DES PATIENTS ATTEINTS DE MUCOVISCIDOSE DEVENUS PARENTS  
ETUDE EXPLORATOIRE »  
Parentalité et Mucoviscidose  
MucoPar**

Cette recherche est promue par l'Assistance Publique - Hôpitaux de Paris  
Délégation à la Recherche Clinique et à l'Innovation  
1 avenue Claude Vellefaux  
75010 Paris

### NOTE D'INFORMATION

Madame, Monsieur,

Le Docteur ..... (nom, prénom), exerçant à l'hôpital ....., vous propose de participer à une recherche en psychologie de la santé.

Il est important de lire attentivement cette note avant de prendre votre décision ; n'hésitez pas à lui demander des explications.

Si vous décidez de participer à cette recherche, un consentement écrit vous sera demandé.

#### 1) Quel est le but de cette recherche ?

Cette recherche porte sur la parentalité chez les patients atteints de mucoviscidose et leurs conjoints. Elle se déroulera sous forme de groupes de paroles (focus groupes).

Pour répondre à la question posée dans la recherche, il est prévu d'inclure cinquante de personnes atteintes de mucoviscidose suivies dans les CRCM (Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose) de l'hôpital Cochin (27 rue du faubourg Saint Jacques – 75014 Paris) et de l'hôpital Foch (40 rue Worth – 92150 Suresnes) qui sont parents et entre vingt et quarante de leurs conjoints. La recherche aura lieu dans les 2 hôpitaux concernés.

#### 2) Quel est le calendrier de la recherche ?

La durée prévisionnelle de la recherche est de 2 ans et votre participation sera d'une demi-journée. Vous n'avez aucune obligation de participation à cette recherche, même si votre conjoint(e) patient décide d'y prendre part.

Si vous acceptez de participer et que votre conjoint(e) atteint(e) de mucoviscidose est d'accord pour participer également, la psychologue chercheuse vous contactera pour vous inscrire tous les deux à un des groupes prévus (vous devrez participer au même groupe). Au moins deux dates vous seront proposées. Les groupes seront constitués en fonction des spécificités médicales (germes, transplantation pulmonaire) de votre conjoint(e).

Vous serez alors conviés dans l'un des deux hôpitaux participants pour participer à un groupe de paroles d'une durée de 2h qui réunira entre 6 et 10 participants. Une collation vous sera proposée lors de cette réunion. Les frais de déplacements seront pris en charge dans la limite de 150 euros par couple, sur présentation de vos factures pour les patients n'habitant pas en région parisienne. Le contenu des groupes sera enregistré (en audio) afin d'être retranscrit pour être analysé.

### 3) Si vous participez, comment vont être traitées les données recueillies pour la recherche ?

Dans le cadre de la recherche à laquelle l'AP-HP vous propose de participer, un traitement de vos données personnelles va être mis en œuvre pour permettre d'en analyser les résultats.

A cette fin, les données médicales vous concernant et les données relatives à vos habitudes de vie, seront transmises au Promoteur ou aux personnes ou partenaires agissant pour son compte, en France, et conservées jusqu'à deux ans après la dernière publication des résultats de la recherche. Ces données seront identifiées par un numéro d'enregistrement. Ces données pourront également, dans des conditions assurant leur confidentialité, être transmises aux autorités de santé françaises.

Les données médicales vous concernant pouvant documenter un dossier auprès des autorités compétentes pourront être transmises à un industriel afin qu'un plus grand nombre de patients puissent bénéficier des résultats de la recherche. Cette transmission sera faite dans les conditions assurant leur confidentialité.

Vos données pourront être utilisées pour des recherches ultérieures ou des analyses complémentaires à la présente recherche en collaboration avec des partenaires privés ou publics, en France ou à l'étranger, dans des conditions assurant leur confidentialité et le même niveau de protection que la législation européenne.

Vous pouvez retirer à tout moment votre consentement à l'utilisation ultérieure de vos données auprès du médecin qui vous suit dans le cadre de cette recherche.

Le fichier informatique utilisé pour cette recherche est mis en œuvre conformément à la réglementation française (loi Informatique et Libertés modifiée) et européenne (au Règlement Général sur la Protection des Données -RGPD). Vous disposez d'un droit d'accès, de rectification, de limitation et d'opposition au traitement des données couvertes par le secret professionnel utilisées dans le cadre de cette recherche. Ces droits s'exercent auprès du médecin en charge de la recherche qui seul connaît votre identité (identifié en première page du présent document).

Si vous décidez d'arrêter de participer à la recherche, les données recueillies précédemment à cet arrêt seront utilisées conformément à la réglementation, et exclusivement pour les objectifs de cette recherche. En effet, leur effacement serait susceptible de compromettre la validité des résultats de la recherche. Dans ce cas, vos données ne seront absolument pas utilisées ultérieurement ou pour une autre recherche.

En cas de difficultés dans l'exercice de vos droits, vous pouvez saisir le Délégué à la Protection des données de l'AP-HP à l'adresse suivante : [protection.donnees.dsi@aphp.fr](mailto:protection.donnees.dsi@aphp.fr), qui pourra notamment vous expliquer les voies de recours dont vous disposez auprès de la CNIL.

### 4) Comment cette recherche est-elle encadrée ?

L'AP-HP a pris toutes les mesures pour mener cette recherche conformément aux dispositions du Code de la santé Publique applicables aux recherches n'impliquant pas la personne humaine.

L'AP-HP a obtenu l'avis favorable du Comité d'Expertise pour les Recherches, les Etudes et les Evaluations dans le domaine de la Santé pour cette recherche ainsi que l'autorisation de la CNIL.

La recherche a obtenu l'avis favorable du comité d'éthique CEPRO le 02/07/2019.

### 5) Quels sont vos droits ?

Votre participation à cette recherche est entièrement libre et volontaire. Votre décision n'entraînera aucun préjudice sur la qualité des soins et des traitements que vous êtes en droit d'attendre.

Vous pourrez tout au long de la recherche demander des informations concernant votre santé ainsi que des explications sur le déroulement de la recherche au médecin qui vous suit.

Vous pouvez vous retirer à tout moment de la recherche sans justification, sans conséquence sur la suite de votre traitement ni la qualité des soins qui vous seront fournis et sans conséquence sur la relation avec votre médecin. A l'issue de ce retrait,

---

*mucopar\_nifc\_RIRCM\_majeur\_conjoint\_v1-0-20181121*

*Ce document est la propriété du DRCI / APHP. Toute reproduction est formellement interdite.*

version : 2.0 du 25/06/2018

Page 2 / 3

vous pourrez être suivi par la même équipe médicale. Dans ce cas, les données collectées jusqu'au retrait seront utilisées pour l'analyse des résultats de la recherche.

Votre dossier médical restera confidentiel et ne pourra être consulté que sous la responsabilité du médecin s'occupant de votre traitement ainsi que par les autorités de santé et par des personnes dûment mandatées par l'AP-HP pour la recherche et soumises au secret professionnel.

A l'issue de la recherche et après analyse des données relatives à cette recherche, vous pourrez être informé(e) des résultats globaux en le demandant au médecin qui vous suit dans le cadre de cette recherche.

Vous pouvez également accéder directement ou par l'intermédiaire d'un médecin de votre choix à l'ensemble de vos données médicales en application des dispositions de l'article L 1111-7 du Code de la Santé Publique.

Après avoir lu toutes ces informations, discuté tous les aspects avec votre médecin et après avoir bénéficié d'un temps de réflexion d'au moins une journée si vous acceptez de participer à la recherche vous devrez signer et dater le formulaire de consentement éclairé se trouvant à la fin de ce document.

**Cadre réservé au service**

Nom/Prénom du participant à la recherche

**Opposition exprimée :** ☐ oui ☐ non

**Date de délivrance de l'information :**

**Signature de la personne proposant la participation à la recherche**

Document réalisé en 2 exemplaires. Un exemplaire doit être conservé [indiquer la durée] par l'investigateur, le deuxième doit être remis à la personne participant à la recherche

## Annexe 3 : MUCOKIDS – Notice d'information aux parents



### MUCOKIDS : Expériences, attentes et besoins des enfants de parents atteints de mucoviscidose Etude exploratoire

Cette recherche est promue par l'Assistance Publique - Hôpitaux de Paris  
Représentée par la Directrice de la  
Direction de la Recherche Clinique et de l'Innovation (DRCI)  
1 avenue Claude Vellefaux  
75010 Paris

*Recherche impliquant des mineurs*

#### NOTE D'INFORMATION destinée aux titulaires de l'exercice de l'autorité parentale

Madame, Monsieur,

Le Docteur ..... (nom, prénom), exerçant à l'hôpital ....., propose à votre enfant de participer à une recherche concernant sa maladie.

Il est important de lire attentivement cette note avant de prendre votre décision ; n'hésitez pas à lui demander des explications. La participation de votre enfant à cette recherche est **entièrement libre et volontaire**. Si vous acceptez que votre enfant participe à cette recherche, il recevra aussi une information appropriée (en fonction de son âge) de votre part et de celle du médecin-investigateur ou son représentant. **Son refus éventuel sera respecté.**

#### 1) Quel est le but de cette recherche ?

En 2018, 57,4% des patients atteints de mucoviscidose étaient adultes. Grâce à l'amélioration des traitements, leur espérance de vie a énormément augmenté, ce qui amène de plus en plus d'entre eux à vouloir être parents. A ce jour, un certain nombre d'études sur la qualité de vie des patients existent, ainsi que sur leur désir d'être parent et/ou leur parentalité (comme l'étude MucoPar). Mais il n'y a, à ce jour, aucune étude qui se soit intéressée directement aux enfants, et il nous paraît fondamental de prendre également en compte l'expérience de ceux-ci, de comprendre leur vécu et leurs besoins propres dans ce contexte de maladie grave d'un parent avec une espérance de vie réduite.

Cette recherche porte sur le ressenti, l'expérience, les besoins et les attentes de personnes ayant un parent atteint de mucoviscidose. Pour répondre aux questions posées par cette recherche, il est prévu d'inclure 25 à 40 personnes, mineures de plus de 6 ans ou majeures, dont au moins un des parents souffre de mucoviscidose et est suivi dans une des deux CRCM (Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose) de l'étude.

#### 2) En quoi consiste la recherche ?

L'étude consiste en « focus groupes » ou en entretiens individuels avec une psychologue chercheuse.

MUCOKIDS\_ni\_ autorite-parentale\_v1 du 03/12/2020

*Ce document est la propriété du DRCI / APHP. Toute reproduction est formellement interdite. version 3.0 du 02/05/2019*

Page 1 / 4

Les focus groupes sont des groupes de paroles composés de 3 à 8 individus qui dureront environ deux heures. Les conversations seront enregistrées en audio et retranscrites ensuite par écrit.

Les groupes seront organisés en 2 temps : présentation de l'enfant et de sa famille, puis temps de discussion sur leur vie au quotidien avec le parent malade et les différences entre leur vie et celle des enfants n'ayant pas de parent malade.

Pour les enfants de moins de 8 ans et pour ceux ne pouvant pas participer aux groupes, un entretien individuel sera effectué. Il sera articulé autour des deux mêmes temps que les groupes, sans durée définie, enregistré (audio) et retranscrit.

### **3) Quel est le calendrier de la recherche ?**

La durée prévisionnelle de la recherche est de 18 mois mais la participation de votre enfant ne sera que d'une demi-journée, le temps du focus groupe ou de l'entretien personnel.

### **4) Quels sont les bénéfices liés à la participation de votre enfant ?**

Il n'y a pas de bénéfice personnel pour les personnes participant à l'étude. Cette dernière a pour but de contribuer à une meilleure connaissance des problématiques spécifiques rencontrées par des enfants ayant un parent malade. Les informations collectées devraient nous permettre de développer et proposer des interventions médico-psycho-sociales adaptées si besoin, en lien avec les associations de patients.

### **5) Si votre enfant participe, comment vont être traitées les données recueillies pour la recherche ?**

Dans le cadre de la recherche proposée à votre enfant, un traitement de vos données personnelles va être mis en œuvre par l'AP-HP, promoteur de la recherche, et responsable du traitement des données recueillies, pour permettre d'en analyser les résultats. Ce traitement est nécessaire à la réalisation de la recherche qui répond à la mission d'intérêt public dont est investie l'AP-HP en tant qu'établissement public de santé hospitalo-universitaire.

Aucune donnée de santé concernant votre enfant ne sera recueillie. Seules les retranscriptions des enregistrements audio-numériques des focus groupes et des entretiens individuels seront utilisées.

Ces données seront transmises au Promoteur ou aux personnes ou sociétés agissant pour son compte, en France. Elles seront anonymisées et identifiées par un numéro d'enregistrement. Ces données pourront également, dans des conditions assurant leur confidentialité, être transmises aux autorités de santé françaises.

Les données anonymisées pouvant documenter un dossier auprès des autorités compétentes, pourront être transmises à un industriel afin qu'un plus grand nombre de patients puissent bénéficier des résultats de la recherche. Cette transmission sera faite dans les conditions assurant leur confidentialité.

Les données de votre enfant pourront être utilisées pour des recherches ultérieures ou des analyses complémentaires à la présente recherche en collaboration avec des partenaires privés ou publics, en France ou à l'étranger, dans des conditions assurant leur confidentialité et le même niveau de protection que la législation européenne.

Vos données ne seront conservées que pour une durée strictement nécessaire et proportionnée à la finalité de la recherche. Elles seront conservées dans les systèmes d'information du responsable de traitement jusqu'à deux ans après la dernière publication des résultats de la recherche.

Vos données seront ensuite archivées selon la réglementation en vigueur.

Le fichier informatique utilisé pour cette recherche est mis en œuvre conformément à la réglementation française (loi « Informatique et Libertés » modifiée) et européenne (Règlement Général sur la Protection des Données - RGPD). Vous disposez d'un droit d'accès, de rectification, de limitation et d'opposition au traitement des données couvertes par le secret professionnel utilisées dans le cadre de cette recherche. Ces droits s'exercent auprès du médecin en charge de la recherche qui seul connaît votre identité (identifié en première page du présent document).

Vous pouvez vous opposer à tout moment à l'utilisation ultérieure de vos données auprès du médecin ou du psychologue qui vous suit dans le cadre de cette recherche.

Si vous décidez d'arrêter de participer à la recherche, les données recueillies précédemment à cet arrêt seront utilisées conformément à la réglementation, et exclusivement pour les objectifs de cette recherche. En effet, leur effacement serait susceptible de compromettre la validité des résultats de la recherche. Dans ce cas, vos données ne seront absolument pas utilisées ultérieurement ou pour une autre recherche.

En cas de difficultés dans l'exercice de vos droits, vous pouvez saisir le Délégué à la Protection des données de l'AP-HP à l'adresse suivante : [protection.donnees.dsi@aphp.fr](mailto:protection.donnees.dsi@aphp.fr), qui pourra notamment vous expliquer les voies de recours dont vous disposez auprès de la CNIL. Vous pouvez également exercer votre droit à réclamation directement auprès de la CNIL (pour plus d'informations à ce sujet, rendez-vous sur le site [www.cnil.fr](http://www.cnil.fr)).

## **6) Comment cette recherche est-elle encadrée ?**

L'AP-HP a pris toutes les mesures pour mener cette recherche conformément aux dispositions du Code de la santé applicable aux recherches impliquant la personne humaine.

L'AP-HP a obtenu l'avis favorable du Comité d'éthique de la SPLF pour cette recherche Le 07/01/2021 (réf : CEPRO 2020-083).

## **7) Quels sont vos droits ?**

La participation de votre enfant à cette recherche est entièrement libre et volontaire.

Vous pouvez à tout moment retirer la participation de votre enfant de la recherche sans justification, sans conséquence sur la suite. Dans ce cas, les données collectées jusqu'à son retrait seront utilisées pour l'analyse des résultats de la recherche.

A l'issue de la recherche et après analyse des données relatives à cette recherche, vous pourrez être informé(e) des résultats globaux en le demandant au médecin qui suit votre enfant dans le cadre de cette recherche. Si votre enfant atteint sa majorité au moment où ces résultats sont disponibles, il pourra demander lui-même à être informé des résultats globaux de la recherche.

Vous pouvez également accéder directement ou par l'intermédiaire d'un médecin de votre choix à l'ensemble de ses données médicales en application des dispositions de l'article L 1111-7 du Code de la Santé Publique.

*L'équipe de MUCOKIDS vous remercie pour votre participation.  
Dr Dominique HUBERT (CRCM Cochin), responsable et médecin de l'étude  
Dr Dominique GRENET (CRCM Foch), médecin de l'étude  
Anne JACOB, psychologue chercheuse de l'étude  
Cécile FLAHAUT, responsable scientifique de l'étude*

**MUCOKIDS :**  
**Expériences, attentes et besoins des enfants**  
**de parents atteints de mucoviscidose**  
Etude exploratoire

Cette recherche est promue par l'Assistance Publique - Hôpitaux de Paris  
Représentée par la Directrice de la  
Direction de la Recherche Clinique et de l'Innovation (DRCI)  
1 avenue Claude Vellefaux  
75010 Paris

*Recherche impliquant des mineurs*

**NOTE D'INFORMATION**  
**destinée aux titulaires de l'exercice de l'autorité parentale**

**Cadre réservé au service**

Nom/Prénom/Identifiant de l'enfant :

Opposition exprimée : ☐ oui ☐ non

Nom/Prénom/ des titulaires de l'autorité parentale de l'enfant participant :

Opposition exprimée : ☐ oui ☐ non

Nom/Prénom/ des titulaires de l'autorité parentale de l'enfant participant :

Opposition exprimée : ☐ oui ☐ non

Date de délivrance de l'information :

Signature du responsable de la consultation / du service :

Document réalisé en 2 exemplaires. Un exemplaire doit être conservé 15 ans par l'investigateur, le deuxième doit être remis à la personne participant à la recherche

MUCOKIDS\_ni\_autorite-parentale\_v1 du 03/12/2020

Ce document est la propriété du DRCI / APHP. Toute reproduction est formellement interdite. version 3.0 du 02/05/2019

Page 4 / 4

## Annexe 4 : MUCOKIDS – Notice d'information enfants majeurs



### **MUCOKIDS : Expériences, attentes et besoins des enfants de parents atteints de mucoviscidose Etude exploratoire**

Cette recherche est promue par l'Assistance Publique - Hôpitaux de Paris  
Représentée par la Directrice de la  
Direction de la Recherche Clinique et de l'Innovation (DRCI)  
1 avenue Claude Vellefaux  
75010 Paris

#### **NOTE D'INFORMATION, PARTICIPANT MAJEUR**

Madame, Monsieur,

Le Docteur ..... (nom, prénom), exerçant à l'hôpital .....  
vous propose de participer à une recherche concernant votre expérience d'enfant ayant un parent atteint de mucoviscidose.  
Il est important de lire attentivement cette note avant de prendre votre décision ; n'hésitez pas à lui demander des explications.

#### **1) Quel est le but de cette recherche ?**

En 2018, 57,4 % des patients atteints de mucoviscidose étaient adultes. Grâce à l'amélioration des traitements, leur espérance de vie a énormément augmenté, ce qui amène de plus en plus d'entre eux à vouloir être parents. A ce jour, un certain nombre d'études sur la qualité de vie des patients existent, ainsi que sur leur désir d'être parent et/ou leur parentalité (comme l'étude MucoPar). Mais il n'y a, à ce jour, aucune étude qui se soit intéressée directement aux enfants, et il nous paraît fondamental de prendre également en compte l'expérience de ceux-ci, de comprendre leur vécu et leurs besoins propres dans ce contexte de maladie grave d'un parent avec une espérance de vie réduite.

Cette recherche porte sur le ressenti, l'expérience, les besoins et les attentes de personnes ayant un parent atteint de mucoviscidose. Pour répondre aux questions posées par cette recherche, il est prévu d'inclure 25 à 40 personnes, mineures de plus de 6 ans ou majeures, dont au moins un des parents souffre de mucoviscidose et est suivi dans un des deux CRCM (Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose) de l'étude.

#### **2) En quoi consiste la recherche ?**

L'étude consiste en l'analyse des contenus de « focus groupes » et d'entretiens individuels menés par une psychologue chercheuse.

Les focus groupes sont des groupes de paroles permettant l'étude d'un sujet donné. Pour notre étude, ils seront composés de 3 à 8 individus, et dureront deux heures. Les conversations seront enregistrées en audio et retranscrites ensuite par écrit. Les groupes seront organisés en 2 temps : temps de présentation de chaque participant et de sa famille, puis temps de discussion sur leur vie au quotidien avec le parent malade et les différences entre leur vie et celle des enfants n'ayant pas de parent malade. Dans le contexte de la crise sanitaire de la COVID-19, ils seront principalement organisés en ligne.

Pour les participants ne pouvant pas participer aux groupes, un entretien individuel sera proposé par la psychologue chercheuse. Il sera articulé autour des deux mêmes temps que les groupes, sans durée définie, enregistré (audio) et retranscrit. Dans le contexte de la crise sanitaire de la COVID-19, ces entretiens seront principalement organisés en ligne.

### **3) Quel est le calendrier de la recherche ?**

La durée prévisionnelle de la recherche est de 18 mois mais votre participation à vous ne sera que d'une demi-journée, le temps du focus groupe ou de l'entretien personnel.

### **4) Quels sont les bénéfices liés à votre participation ?**

Il n'y a pas de bénéfice personnel pour les personnes participant à l'étude en dehors de la mise en relation avec d'autres enfants de parents atteints de mucoviscidose. Notre étude a pour but de contribuer à une meilleure connaissance des problématiques spécifiques rencontrées par des personnes ayant un parent malade. Les informations collectées devraient nous permettre de développer et proposer des interventions médico-psycho-sociales adaptées si besoin, en lien avec les associations de patients.

### **5) Si vous participez, comment vont être traitées les données recueillies pour la recherche ?**

Dans le cadre de la recherche à laquelle il vous est proposé de participer, un traitement de vos données personnelles va être mis en œuvre par l'AP-HP, promoteur de la recherche, et responsable du traitement de ces données, pour permettre d'en analyser les résultats. Ce traitement est nécessaire à la réalisation de la recherche qui répond à la mission d'intérêt public dont est investie l'AP-HP en tant qu'établissement public de santé hospitalo-universitaire.

Il vous sera demandé si vous avez des problèmes de santé, mais aucune autre donnée de santé vous concernant ne sera recueillie. Seules des données socio-démographiques vous seront demandées (âge, statuts marital et socio-professionnel, niveau d'éducation par exemple) et les retranscriptions des enregistrements audio-numériques des focus groupes et des entretiens individuels seront utilisées.

Certaines données de santé de votre parent atteint de mucoviscidose seront collectées via son dossier médical (transplantation pulmonaire ou non, niveau de l'atteinte respiratoire, et nombre de cures d'antibiotiques annuelles), ainsi que quelques données socio-démographiques sur vos deux parents (âge, statuts marital et socio-professionnel, niveau d'éducation, nombre d'enfants, participation à l'étude MucoPar).

Ces données seront transmises au Promoteur ou aux personnes ou sociétés agissant pour son compte, en France. Elles seront anonymisées et identifiées par un numéro d'enregistrement. Ces données pourront également, dans des conditions assurant leur confidentialité, être transmises aux autorités de santé françaises.

Les données anonymisées pouvant documenter un dossier auprès des autorités compétentes, pourront être transmises à un industriel afin qu'un plus grand nombre de patients puissent bénéficier des résultats de la recherche. Cette transmission sera faite dans les conditions assurant leur confidentialité.

Vos données pourront être utilisées pour des recherches ultérieures ou des analyses complémentaires à la présente recherche en collaboration avec des partenaires privés ou publics, en France ou à l'étranger, dans des conditions assurant leur confidentialité et le même niveau de protection que la législation européenne.

Vos données ne seront conservées que pour une durée strictement nécessaire et proportionnée à la finalité de la recherche. Elles seront conservées dans les systèmes d'information du responsable de traitement jusqu'à deux ans après la dernière publication des résultats de la recherche.

Vos données seront ensuite archivées selon la réglementation en vigueur.

Le fichier informatique utilisé pour cette recherche est mis en œuvre conformément à la réglementation française (loi « Informatique et Libertés » modifiée) et européenne (Règlement Général sur la Protection des Données -RGPD). Vous disposez d'un droit d'accès, de rectification, de limitation et d'opposition au traitement des données couvertes par le secret professionnel utilisées dans le cadre de cette recherche. Ces droits s'exercent auprès du médecin en charge de la recherche qui seul connaît votre identité (identifié en première page du présent document).

Vous pouvez vous opposer à tout moment à l'utilisation ultérieure de vos données auprès du médecin ou du psychologue qui vous suit dans le cadre de cette recherche.

Si vous décidez d'arrêter de participer à la recherche, les données recueillies précédemment à cet arrêt seront utilisées conformément à la réglementation, et exclusivement pour les objectifs de cette recherche. En effet, leur effacement serait susceptible de compromettre la validité des résultats de la recherche. Dans ce cas, vos données ne seront absolument pas utilisées ultérieurement ou pour une autre recherche.

En cas de difficultés dans l'exercice de vos droits, vous pouvez saisir le Délégué à la Protection des données de l'AP-HP à l'adresse suivante : [protection.donnees.dsi@aphp.fr](mailto:protection.donnees.dsi@aphp.fr), qui pourra notamment vous expliquer les voies de recours dont vous disposez auprès de la CNIL. Vous pouvez également exercer votre droit à réclamation directement auprès de la CNIL (pour plus d'informations à ce sujet, rendez-vous sur le site [www.cnil.fr](http://www.cnil.fr) ).

## **6) Comment cette recherche est-elle encadrée ?**

L'AP-HP a pris toutes les mesures pour mener cette recherche conformément aux dispositions du Code de la santé applicable aux recherches impliquant la personne humaine.

L'AP-HP a obtenu l'avis favorable du Comité d'éthique de la SPLF pour cette recherche le 07/01/2021 (réf : CEPRO 2020-083).

## **7) Quels sont vos droits ?**

Votre participation à cette recherche est entièrement libre et volontaire. Votre décision n'entraînera aucun préjudice sur la qualité des soins de votre parent. Si vous ne souhaitez pas participer à la recherche, il vous suffit de le dire aux médecins de l'étude ou à la psychologue chercheuse.

Vous pourrez, tout au long de la recherche et à l'issue, demander des informations concernant le déroulement de la recherche aux médecins de l'étude ou à la psychologue chercheuse.

Vous pouvez vous retirer à tout moment de la recherche sans justification, sans conséquence pour vous ou votre parent suivi dans les CRCM de l'étude. Dans ce cas, les données collectées jusqu'à votre retrait seront utilisées pour l'analyse des résultats de la recherche.

A l'issue de la recherche et après analyse des données relatives à cette recherche, vous pourrez être informé(e) des résultats globaux par l'intermédiaire des médecins de l'étude ou de la psychologue chercheuse.

Vous pouvez également accéder directement ou par l'intermédiaire d'un médecin de votre choix à l'ensemble de vos données médicales en application des dispositions de l'article L 1111-7 du Code de la Santé Publique.

*L'équipe de MUCOKIDS vous remercie pour votre participation.*

*Dr Dominique HUBERT (CRCM Cochin), responsable et médecin de l'étude*

*Dr Dominique GRENET (CRCM Foch), médecin de l'étude*

*Anne JACOB psychologue chercheuse de l'étude*

*Cécile FLAHAUT, responsable scientifique de l'étude*

**Expériences, attentes et besoins des enfants  
de parents atteints de mucoviscidose**  
Etude exploratoire

Cette recherche est promue par l'Assistance Publique - Hôpitaux de Paris  
Représentée par la Directrice de la  
Direction de la Recherche Clinique et de l'Innovation (DRCI)  
1 avenue Claude Vellefaux  
75010 Paris

**Cadre réservé au service**

Nom/Prénom/Identifiant du participant :

Opposition exprimée : ☐ oui ☐ non

Date de délivrance de l'information :

Signature du responsable de la consultation / du service :

Document réalisé en 2 exemplaires. Un exemplaire doit être conservé 15 ans par l'investigateur, le deuxième doit être remis à la personne participant à la recherche.

## Annexe 5 : MUCOKIDS – Notice d'information enfants mineurs de 11-18ans



### MUCOKIDS : Expériences, attentes et besoins des enfants de parents atteints de mucoviscidose Etude exploratoire

Cette recherche est promue par l'Assistance Publique - Hôpitaux de Paris  
Représentée par la Directrice de la  
Direction de la Recherche Clinique et de l'Innovation (DRCI)  
1 avenue Claude Vellefaux  
75010 Paris

#### NOTE D'INFORMATION, PARTICIPANT MINEUR (11-18ans)

Le Docteur ..... (nom, prénom), exerçant à l'hôpital .....  
te propose de participer à une recherche concernant ton expérience d'enfant ayant un parent atteint de mucoviscidose.  
Il est important de lire attentivement cette note avant de prendre ta décision ; n'hésitez pas à demander des explications au médecin, à la psychologue chercheuse ou à tes parents. Ta participation est libre et volontaire, mais ne peut se faire qu'avec l'accord de tes parents.

#### 1) Quel est le but de cette recherche ?

Grâce à l'amélioration des traitements, il y a de plus en plus d'adultes atteints de la mucoviscidose adultes qui deviennent parents. Quelques études se sont intéressées à leur vécu, mais encore aucune étude ne s'est intéressée à celui de leurs enfants. Cette étude est la première au monde sur le sujet et vise à récolter l'expérience, les attentes et les besoins des enfants qui, comme toi, ont un parent atteint de mucoviscidose.

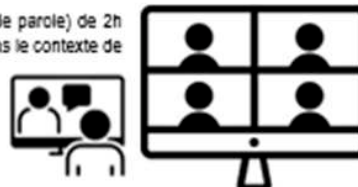


(de plus de 6 ans) ou adultes, dont au moins un des parents est suivi dans un de des centres référence de la mucoviscidose participant à la recherche

#### 2) En quoi consiste la recherche ?

Pour nous parler de ton expérience, nous t'invitons à participer à un focus groupe (groupe de parole) de 2h avec entre 3 et 8 autres adolescents ayant également un parent atteint de mucoviscidose. Dans le contexte de la COVID-19 les groupes pourront être organisés en ligne.

Pour ceux ne pouvant participer, un entretien avec la psychologue chercheuse de l'étude te sera proposé en ligne, à l'hôpital ou à domicile.



Pendant le focus groupe ou l'entretien, il te sera demandé de te présenter toi et ta famille et de nous parler de ta vie au quotidien avec ton parent « muco ».



Les groupes et les entretiens seront enregistrés pour être retranscrits par écrit et analysés par l'équipe de recherche. Notre équipe souhaite ainsi comprendre les spécificités de ton expérience, et observer les points communs entre les participants et les points personnels et propres à chacun des participants

### 3) Quel est le calendrier de la recherche ?



La durée prévisionnelle de la recherche est de 18 mois mais ta participation à toi ne sera que d'une demi-journée maximum, le temps du focus groupe ou de l'entretien personnel.

### 4) Quels sont les bénéfices liés à ta participation ?

Il n'y a pas de bénéfice personnel pour les personnes participant à l'étude, en dehors de la mise en relation avec d'autres enfants de parents atteints de mucoviscidose. Notre étude a pour but de contribuer à une meilleure connaissance des problématiques spécifiques rencontrées par les enfants ayant un parent malade. Les informations collectées devraient nous permettre de développer et proposer des interventions médico-psycho-sociales adaptées si besoin, en lien avec les associations de patients.



### 5) Si tu participes, comment vont être traitées les informations que nous allons te demander ?

En plus des enregistrements audio des échanges que tu auras en groupe ou en entretien individuel, nous allons récolter et analyser certaines données sur toi et tes parents :



- Pour toi : aucune donnée de santé, hormis la présence ou non de problèmes de santé.
- Pour toi : certaines données socio-démographiques (par exemple : ton âge, ton niveau scolaire, l'âge de tes frères et sœurs, avec quel parent vis-tu, etc.)
- Pour tes parents : certaines données socio-démographiques (par exemple : âge, statut marital, profession, nombre d'enfants, etc.)
- Pour ton parent « muco » : certaines données médicales (transplantation pulmonaire, capacité respiratoire, nombres de cures antibiotiques, participation à l'étude MucoPar)

Toutes vos données à toi et tes parents, seront anonymisées, c'est-à-dire qu'un numéro te sera attribué pour que tu ne sois pas reconnu(e) et toutes tes données personnelles resteront confidentielles. Elles seront conservées de façon protégée, puis archivées.



Cette étude répond aux réglementations de la recherche impliquant la personne humaine et son protocole a été approuvé par un comité d'éthique.

### 6) Quels sont tes droits ?



Ta participation à cette recherche est entièrement libre et volontaire. Ta décision n'entraînera aucun préjudice sur la qualité des soins et des traitements que tu es en droit d'attendre. Si tu ne souhaites pas participer à la recherche, il te suffit de le dire au médecin du CRCM de ton parent.

Tu pourras te retirer à tout moment de la recherche sans justification, sans conséquence sur la suite de ton traitement ni la qualité des soins qui te seront fournis. Dans ce cas, les données collectées jusqu'à ton retrait seront utilisées pour l'analyse des résultats de la recherche. Tu peux refuser à tout moment l'utilisation de tes données en le demandant au médecin du CRCM de ton parent ou à la psychologue chercheuse.

À l'issue de la recherche et après analyse des données relatives à cette recherche, tu pourras être informé des résultats globaux par l'intermédiaire du médecin qui te suit dans le cadre de cette recherche.

Tu peux également accéder directement ou par l'intermédiaire d'un médecin de ton choix à l'ensemble de tes données médicales en application des dispositions de l'article L 1111-7 du Code de la Santé Publique.

L'équipe de MUCOKIDS te remercie pour ta participation.

Dr Dominique HUBERT (CRCM Cochin), responsable et médecin de l'étude

Dr Dominique GRENET (CRCM Foch), médecin de l'étude

Anne JACOB psychologue chercheuse de l'étude

Cécile FLAHAUT, responsable scientifique de l'étude

## Annexe 6 : MUCOKIDS – Notice d'information enfants mineurs de 6-10ans



### **MUCOKIDS : Expériences, attentes et besoins des enfants de parents atteints de mucoviscidose Etude exploratoire**

Cette recherche est promue par l'Assistance Publique - Hôpitaux de Paris  
Représentée par la Directrice de la  
Direction de la Recherche Clinique et de l'Innovation (DRCI)  
1 avenue Claude Vellefaux  
75010 Paris

#### **NOTE D'INFORMATION, PARTICIPANT MINEUR (6-10ans)**



Avec le Docteur..... qui soigne ta maman  
ou ton papa à l'hôpital ..... pour la  
mucoviscidose, nous te proposons de participer à une  
étude pour la recherche.



Tes deux parents sont d'accord pour que tu participes,  
mais c'est à toi de décider si tu veux le faire ou non.



**Il est important de bien lire ces informations jusqu'au bout avant de prendre ta  
décision.**



Si tu ne comprends pas quelque chose, tu peux poser  
toutes tes questions à tes parents, au médecin ou à la  
psychologue que tu vas rencontrer pour l'étude.



MUCOKIDS\_ni\_\_mineur\_6-10ans\_v1 du 03/12/2020

Ce document est la propriété du DRCI / APHP. Toute reproduction est formellement interdite. version 3.0 du  
03/05/2019

Page 1 / 3

## Pourquoi nous faisons cette étude ?



Grâce à l'amélioration des traitements pour la maladie de ta maman ou ton papa, il y a de plus en plus de personnes avec la mucoviscidose qui deviennent parents.



Aujourd'hui on commence à savoir comment c'est d'être une maman ou un papa avec cette maladie, avec les médicaments à prendre, les aérosols et de la kiné à faire, les hospitalisations, etc...

Mais on ne sait pas vraiment comment ça se passe pour les enfants.



C'est pour ça que nous avons besoin de ton aide. Tu vas pouvoir nous apprendre comment c'est pour toi d'avoir une maman ou un papa avec la mucoviscidose.

## Comment ça va se passer ?

Pour que tu puisses nous expliquer, tu vas rencontrer Anne, qui est psychologue chercheuse, soit à l'hôpital, soit chez toi. Elle se présentera et vous posera à toi et tes parents quelques questions comme votre âge, ta classe, le travail de tes parents, etc.



Ensuite tes parents vous laisseront pour qu'elle puisse te poser des questions à toi tout(e) seul(e) ou avec tes frères et sœurs. Tu pourras lui dire tout ce que tu veux et tu pourras même lui dire en dessinant ou en jouant. Elle sera là pour t'aider.



**Si tu ne te sens pas bien, tu as le droit de changer d'avis n'importe quand et de décider d'arrêter de participer à l'étude.**



Pendant votre rencontre Anne la psychologue va enregistrer sur son téléphone ce que vous vous direz.



Après elle réécouterà les enregistrements pour écrire tout ce que vous vous êtes dit. En écrivant votre conversation, elle changera ton prénom par un numéro pour que personne ne sache que c'est toi qui parles.

C'est ce qu'on appelle préserver l'anonymat. C'est très important dans la recherche.



Après, elle analysera ce que vous vous êtes dit et tout ce que les autres enfants lui auront dit. Grâce à tous les enregistrements Anne et les médecins qui soignent la maladie de ta maman ou de ton papa, pourront comprendre comment se passe la vie des enfants qui ont un parent avec la mucoviscidose.



Tout ce que nous aurons appris grâce à toi sera ensuite partagé dans des journaux pour les scientifiques en France et dans le monde entier. Cela servira aux gens qui soignent cette maladie pour aider les enfants comme toi et les parents qui ont la mucoviscidose à vivre le mieux possible avec la maladie.



**Alors, acceptes-tu de participer pour faire avancer la recherche sur la mucoviscidose ?**

*L'équipe de MUCOKIDS te remercie pour ta participation.*

MUCOKIDS\_ni\_mineur\_6-10ans\_v1 du 03/12/2020

Ce document est la propriété du DRCI / APHP. Toute reproduction est formellement interdite. version 3.0 du 02/05/2019

Page 3 / 3

Annexe 7 : Preuve de soumission Article 3

Submission Confirmation for Parenting with Cystic Fibrosis: Experiences of Patients and Spouses - [EMID:a8d595e25671fdbbc]

De

 Health Psychology

À

mercredi 4 décembre 2024 à 6:16 PM





Dear Miss Jacob,

This is to confirm that your submission entitled "Parenting with Cystic Fibrosis: Experiences of Patients and Spouses" has been received by Health Psychology.

Thank you for submitting your work.

You will be able to check on the progress of your paper by logging on to Editorial Manager as an author. The URL is [https://\[redacted\]](#).

Your manuscript will be given a manuscript number once an Editor has been assigned.

Please note that you may also confirm or Authenticate your ORCID id by clicking here Your ORCID id: 0000-0002-2644-6479 is already linked and Authenticated..

APA asks that you please take a moment to give us your feedback on the submission process, by completing a short survey, available at [ht\[redacted\]](#)

Thank you for your interest.

Kind regards,

Health Psychology

 Health Psychology

Home

Main Menu

Submit a Manuscript

About

Help

← Submissions with an Editorial Office Decision for Author

Page: 1 of 1 (2 total completed submissions)

Results per page 10

| Action       | Manuscript Number | Title                                                               | Initial Date Submitted | Status Date  | Current Status   | Date Final Disposition Set | Final Disposition |
|--------------|-------------------|---------------------------------------------------------------------|------------------------|--------------|------------------|----------------------------|-------------------|
| Action Links | HEA-2024-1749     | Parenting with Cystic Fibrosis: Experiences of Patients and Spouses | Dec 04, 2024           | Dec 08, 2024 | Completed Reject | Dec 08, 2024               | Reject            |

Page: 1 of 1 (2 total completed submissions)

Results per page 10

## **Annexe 8 : Retranscription MUCOPAR - Groupe 3 - 16/11/2019**

**Menée du groupe :** Anne Jacob

**Participant.e.s :** 7 personnes, dont 5 patientes (3AC, 3B, 3C, 3D, 3E) et 2 conjoints (3K et 3L)

**Groupe en présentiel**

**Statut patient.e.s :** Patientes non greffées pulmonaires

-----

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

## **Annexe 9 : Retranscription MUCOPAR - Groupe 7 – 18/11/2020**

**Menée du groupe** : Anne Jacob

**Participant.e.s** : 4 personnes, dont 3 patient.e.s (7A,7B, 7C) et 1 conjoint (7E)

**Groupe en visio**

**Statut patient.e.s** : Patient.e.s greffé.e.s pulmonaires

-----

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

Élément sous droit, diffusion non autorisée

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

## **Annexe 10 : Retranscription MUCOPAR - Entretien E1 - 11/03/2020**

**Menée de l'entretien : Anne JACOB**

**Entretien en présentiel**

**Statut patient.e.s : Patient greffé pulmonaire**

-----

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

## **Annexe 11 : Retranscription MUCOPAR - Entretien E2 - 25/03/2020**

**Menée de l'entretien : Anne JACOB**

**Entretien en visio**

**Statut patient.e.s : Patiente non greffée**

-----

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

## **Annexe 12 : Retranscription MUCOKIDS - Groupe Majeurs -**

**16/11/2019**

**Menée du groupe :** Anne Jacob

**Participant.e.s :** 7 personnes, dont 6 participantes (GKA, GKB, GKC, GKD, GKE GKF)

**Groupe en visio**

**Statut participant.e.s :** Enfants majeurs, dont une avec mère greffée pulmonaire

-----

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

## **Annexe 13 : Retranscription MUCOKIDS - Entretien EK1 - 20/10/2021**

**Menée de l'entretien : Anne JACOB**

**Entretien en visio**

**Statut patient.e.s : Enfant mineure (adolescente) de patient non greffé**

-----

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

## **Annexe 14 : Retranscription MUCOKIDS – Entretien de fratrie GK1 et FK2 – 25/03/2021**

**Menée de l'entretien : Anne JACOB**

**Entretien à domicile**

**Statut patient.e.s :** Fratrie de deux enfants mineurs (pré-adolescents) de patiente non greffée

-----

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

## **Annexe 15 : Retranscription MUCOKIDS - Entretien EK3 - 29/05/2021**

**Menée de l'entretien :** Anne JACOB

**Statut patient.e.s :** Enfant mineure de patiente greffée pulmonaire

-----

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

## **Annexe 16 : Retranscription MUCOKIDS - Entretien EK4 - 18/02/2022**

**Menée de l'entretien : Anne JACOB**

**Entretien à domicile**

**Statut patient.e.s : Enfant mineur de patiente non greffée**

-----

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

**Élément sous droit, diffusion non autorisée**

## Liste des contenus protégés

Eléments retirés de la version complète de la thèse faute d'en détenir les droits

| Titre du document                                          | N° (si numéroté) | Page(s) dans la thèse |
|------------------------------------------------------------|------------------|-----------------------|
| Retranscription MUCOPAR - Groupe 3                         | Annexe 8         | <b>375</b>            |
| Retranscription MUCOPAR - Groupe 7                         | Annexe 9         | <b>441</b>            |
| Retranscription MUCOPAR - Entretien E1                     | Annexe 10        | <b>485</b>            |
| Retranscription MUCOPAR - Entretien E2                     | Annexe 11        | <b>504</b>            |
| Retranscription MUCOKIDS – Groupe majeurs                  | Annexe 12        | <b>526</b>            |
| Retranscription MUCOKIDS - Entretien EK1                   | Annexe 13        | <b>566</b>            |
| Retranscription MUCOKIDS - Entretien de fratrie GK1 et FK2 | Annexe 14        | <b>579</b>            |
| Retranscription MUCOKIDS - Entretien EK3                   | Annexe 15        | <b>602</b>            |
| Retranscription MUCOKIDS - Entretien EK4                   | Annexe 16        | <b>616</b>            |