

Année 2020/2021

N°

Thèse

Pour le

DOCTORAT EN MEDECINE

Diplôme d'État
par

Camille VERMERSCH

Née le 14 septembre 1992 à La Rochelle (17)

TITRE

**Transition enfant-adulte : étude observationnelle sur les modalités et sur le
ressenti des sujets suivis pour une malformation vasculaire superficielle**

Présentée et soutenue publiquement le 16 Octobre 2020 date devant un jury
composé de :

Président du Jury : Professeur Annabel MARUANI, Dermatologie, Faculté de Médecine – Tours

Membres du Jury :

Professeur Denis HERBRETEAU, Radiologie et Imagerie Médicale, Faculté de Médecine – Tours

Professeur François MAILLOT, Médecine interne, Faculté de Médecine – Tours

Docteur Olivia BOCCARA, Dermatologie, PH, AP-HP, CHU Necker-Enfants Malades – Paris

Docteur Hélène CORNILLIER, Dermatologie – Tours

Directeur de thèse : Docteur Sophie LEDUCQ, Dermatologie, CCA, Faculté de Médecine – Tours

UNIVERSITE DE TOURS
FACULTE DE MEDECINE DE TOURS

DOYEN

Pr Patrice DIOT

VICE-DOYEN

Pr Henri MARRET

ASSESSEURS

Pr Denis ANGOULVANT, *Pédagogie*

Pr Mathias BUCHLER, *Relations internationales*

Pr Theodora BEJAN-ANGOULVANT, *Moyens – relations avec l'Université*

Pr Clarisse DIBAO-DINA, *Médecine générale*

Pr François MAILLOT, *Formation Médicale Continue*

Pr Patrick VOURC'H, *Recherche*

RESPONSABLE ADMINISTRATIVE

Mme Fanny BOBLETER

DOYENS HONORAIRES

Pr Emile ARON (†) – 1962-1966

Directeur de l'Ecole de Médecine - 1947-1962

Pr Georges DESBUQUOIS (†) – 1966-1972

Pr André GOUAZE (†) – 1972-1994

Pr Jean-Claude ROLLAND – 1994-2004

Pr Dominique PERROTIN – 2004-2014

PROFESSEURS EMERITES

Pr Daniel ALISON

Pr Gilles BODY

Pr Jacques CHANDENIER

Pr Alain CHANTEPIE

Pr Philippe COLOMBAT

Pr Etienne DANQUECHIN-DORVAL

Pr Pascal DUMONT

Pr Dominique GOGA

Pr Gérard LORETTE

Pr Dominique PERROTIN

Pr Roland QUENTIN

PROFESSEURS HONORAIRES

P. ANTHONIOZ – P. ARBEILLE – A. AUDURIER – A. AUTRET – P. BAGROS – P. BARDOS – C. BARTHELEMY – J.L. BAULIEU – C. BERGER – JC. BESNARD – P. BEUTTER – C. BONNARD – P. BONNET – P. BOUGNOUX – P. BURDIN – L. CASTELLANI – B. CHARBONNIER – P. CHOUTET – T. CONSTANS – P. COSNAY – C. COUET – L. DE LA LANDE DE CALAN – J.P. FAUCHIER – F. FETISSOF – J. FUSCIARDI – P. GAILLARD – G. GINIES – A. GOUDEAU – J.L. GUILMOT – N. HUTEN – M. JAN – J.P. LAMAGNERE – F. LAMISSE – Y. LANSON – O. LE FLOCH – Y. LEBRANCHU – E. LECA – P. LECOMTE – AM. LEHR-DRYLEWICZ – E. LEMARIE – G. LEROY – M. MARCHAND – C. MAURAGE – C. MERCIER – J. MOLINE – C. MORAIN – J.P. MUH – J. MURAT – H. NIVET – L. POURCELOT – P. RAYNAUD – D. RICHARD-LENOBLE – A. ROBIER – J.C. ROLLAND – D. ROYERE – A. SAINDELLE – E. SALIBA – J.J. SANTINI – D. SAUVAGE – D. SIRINELLI – J. WEILL

PROFESSEURS DES UNIVERSITES - PRATICIENS HOSPITALIERS

ANDRES Christian.....	Biochimie et biologie moléculaire
ANGOULVANT Denis	Cardiologie
AUPART Michel.....	Chirurgie thoracique et cardiovasculaire
BABUTY Dominique	Cardiologie
BAKHOS David.....	Oto-rhino-laryngologie
BALLON Nicolas.....	Psychiatrie ; addictologie
BARILLOT Isabelle	Cancérologie ; radiothérapie
BARON Christophe	Immunologie
BEJAN-ANGOULVANT Théodora.....	Pharmacologie clinique
BERHOUEZ Julien	Chirurgie orthopédique et traumatologique
BERNARD Anne	Cardiologie
BERNARD Louis	Maladies infectieuses et maladies tropicales
BLANCHARD-LAUMONNIER Emmanuelle	Biologie cellulaire
BLASCO Hélène.....	Biochimie et biologie moléculaire
BONNET-BRILHAULT Frédérique	Physiologie
BOURGUIGNON Thierry	Chirurgie thoracique et cardiovasculaire
BRILHAULT Jean.....	Chirurgie orthopédique et traumatologique
BRUNEREAU Laurent	Radiologie et imagerie médicale
BRUYERE Franck.....	Urologie
BUCHLER Matthias.....	Néphrologie
CALAIS Gilles.....	Cancérologie, radiothérapie
CAMUS Vincent.....	Psychiatrie d'adultes
CORCIA Philippe.....	Neurologie
COTTIER Jean-Philippe	Radiologie et imagerie médicale
DE TOFFOL Bertrand	Neurologie
DEQUIN Pierre-François.....	Thérapeutique
DESOUBEAUX Guillaume.....	Parasitologie et mycologie
DESTRIEUX Christophe	Anatomie
DIOT Patrice.....	Pneumologie
DU BOUEXIC DE PINIEUX Gonzague	Anatomie & cytologie pathologiques
DUCLUZEAU Pierre-Henri.....	Endocrinologie, diabétologie, et nutrition
EL HAGE Wissam.....	Psychiatrie adultes
EHRMANN Stephan	Médecine intensive – réanimation
FAUCHIER Laurent.....	Cardiologie
FAVARD Luc.....	Chirurgie orthopédique et traumatologique
FOUGERE Bertrand	Gériatrie
FOUQUET Bernard.....	Médecine physique et de réadaptation
FRANCOIS Patrick.....	Neurochirurgie
FROMONT-HANKARD Gaëlle	Anatomie & cytologie pathologiques
GAUDY-GRAFFIN Catherine.....	Bactériologie-virologie, hygiène hospitalière
GOUPILLE Philippe.....	Rhumatologie
GRUEL Yves.....	Hématologie, transfusion
GUERIF Fabrice.....	Biologie et médecine du développement et de la reproduction
GUILLON Antoine.....	Médecine intensive – réanimation
GUYETANT Serge	Anatomie et cytologie pathologiques
GYAN Emmanuel.....	Hématologie, transfusion
HAILLLOT Olivier.....	Urologie
HALIMI Jean-Michel.....	Thérapeutique
HANKARD Régis.....	Pédiatrie
HERAULT Olivier	Hématologie, transfusion
HERBRETEAU Denis	Radiologie et imagerie médicale
HOURIOUX Christophe.....	Biologie cellulaire
LABARTHE François	Pédiatrie
LAFFON Marc	Anesthésiologie et réanimation chirurgicale, médecine d'urgence
LARDY Hubert.....	Chirurgie infantile
LARIBI Saïd.....	Médecine d'urgence
LARTIGUE Marie-Frédérique	Bactériologie-virologie
LAURE Boris.....	Chirurgie maxillo-faciale et stomatologie
LECOMTE Thierry.....	Gastroentérologie, hépatologie
LESCANNE Emmanuel.....	Oto-rhino-laryngologie
LINASSIER Claude	Cancérologie, radiothérapie
MACHET Laurent	Dermato-vénéréologie
MAILLOT François	Médecine interne
MARCHAND-ADAM Sylvain	Pneumologie

MARRET Henri	Gynécologie-obstétrique
MARUANI Annabel	Dermatologie-vénéréologie
MEREGHETTI Laurent	Bactériologie-virologie ; hygiène hospitalière
MITANCHEZ Delphine	Pédiatrie
MORINIERE Sylvain	Oto-rhino-laryngologie
MOUSSATA Driffa	Gastro-entérologie
MULLEMAN Denis	Rhumatologie
ODENT Thierry	Chirurgie infantile
OUAISSI Mehdi	Chirurgie digestive
OULDAMER Lobna	Gynécologie-obstétrique
PAINTAUD Gilles	Pharmacologie fondamentale, pharmacologie clinique
PATAT Frédéric	Biophysique et médecine nucléaire
PERROTIN Franck	Gynécologie-obstétrique
PISELLA Pierre-Jean	Ophthalmologie
PLANTIER Laurent	Physiologie
REMERAND Francis	Anesthésiologie et réanimation, médecine d'urgence
ROINGEARD Philippe	Biologie cellulaire
ROSSET Philippe	Chirurgie orthopédique et traumatologique
RUSCH Emmanuel	Epidémiologie, économie de la santé et prévention
SAINT-MARTIN Pauline	Médecine légale et droit de la santé
SALAME Ephrem	Chirurgie digestive
SAMIMI Mahtab	Dermatologie-vénéréologie
SANTIAGO-RIBEIRO Maria	Biophysique et médecine nucléaire
THOMAS-CASTELNAU Pierre	Pédiatrie
TOUTAIN Annick	Génétique
VAILLANT Loïc	Dermato-vénéréologie
VELUT Stéphane	Anatomie
VOURC'H Patrick	Biochimie et biologie moléculaire
WATIER Hervé	Immunologie
ZEMMOURA Ilyess	Neurochirurgie

PROFESSEUR DES UNIVERSITES DE MEDECINE GENERALE

DIBAO-DINA Clarisse
LEBEAU Jean-Pierre

PROFESSEURS ASSOCIES

MALLET Donatien Soins palliatifs
POTIER Alain Médecine Générale
ROBERT Jean Médecine Générale

PROFESSEUR CERTIFIE DU 2ND DEGRE

MC CARTHY Catherine Anglais

MAITRES DE CONFERENCES DES UNIVERSITES - PRATICIENS HOSPITALIERS

AUDEMARD-VERGER Alexandra Médecine interne
BARBIER Louise Chirurgie digestive
BINET Aurélien Chirurgie infantile
BRUNAUT Paul Psychiatrie d'adultes, addictologie
CAILLE Agnès Biostat., informatique médical et technologies de communication
CLEMENTY Nicolas Cardiologie
DENIS Frédéric Odontologie
DOMELIER Anne-Sophie Bactériologie-virologie, hygiène hospitalière
DUFOUR Diane Biophysique et médecine nucléaire
ELKRIEF Laure Hépatologie – gastroentérologie
FAVRAIS Géraldine Pédiatrie
FOUQUET-BERGEMER Anne-Marie Anatomie et cytologie pathologiques
GATAULT Philippe Néphrologie
GUILLEUX Valérie Immunologie
GUILLON-GRAMMATICO Leslie Epidémiologie, économie de la santé et prévention

Faculté de Médecine – 10, boulevard Tonnellé – CS 73223 – 37032 TOURS Cedex 1 – Tél : 02.47.36.66.00 – www.med.univ-tours.fr

3

HOARAU Cyrille	Immunologie
IVANES Fabrice	Physiologie
LE GUELLEC Chantal	Pharmacologie fondamentale, pharmacologie clinique
LEFORT Bruno	Pédiatrie
LEGRAS Antoine	Chirurgie thoracique
LEMAIGNEN Adrien	Maladies infectieuses
MACHET Marie-Christine	Anatomie et cytologie pathologiques
MOREL Baptiste	Radiologie pédiatrique
PIVER Éric	Biochimie et biologie moléculaire
REROLLE Camille	Médecine légale
ROUMY Jérôme	Biophysique et médecine nucléaire
SAUTENET Bénédicte	Thérapeutique
TERNANT David	Pharmacologie fondamentale, pharmacologie clinique
VUILLAUME-WINTER Marie-Laure	Génétique

MAITRES DE CONFERENCES DES UNIVERSITES

AGUILLON-HERNANDEZ Nadia	Neurosciences
NICOGLU Antonine	Philosophie – histoire des sciences et des techniques
PATIENT Romuald	Biologie cellulaire
RENOUX-JACQUET Cécile	Médecine Générale

MAITRES DE CONFERENCES ASSOCIES

BARBEAU Ludivine	Médecine Générale
RUIZ Christophe	Médecine Générale
SAMKO Boris	Médecine Générale

CHERCHEURS INSERM - CNRS - INRA

BOUAKAZ Ayache	Directeur de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253
CHALON Sylvie	Directeur de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253
COURTY Yves	Chargé de Recherche CNRS – UMR INSERM 1100
DE ROCQUIGNY Hugues	Chargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1259
ESCOFFRE Jean-Michel	Chargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253
GILOT Philippe	Chargé de Recherche INRA – UMR INRA 1282
GOUILLEUX Fabrice	Directeur de Recherche CNRS – UMR CNRS 7001
GOMOT Marie	Chargée de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253
HEUZE-VOURCH Nathalie	Chargée de Recherche INSERM – UMR INSERM 1100
KORKMAZ Brice	Chargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1100
LAUMONNIER Frédéric	Chargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253
MAZURIER Frédéric	Directeur de Recherche INSERM – UMR CNRS 7001
MEUNIER Jean-Christophe	Chargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1259
PAGET Christophe	Chargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1100
RAOUL William	Chargé de Recherche INSERM – UMR CNRS 7001
SI TAHAR Mustapha	Directeur de Recherche INSERM – UMR INSERM 1100
WARDAK Claire	Chargée de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253

CHARGES D'ENSEIGNEMENT

Pour l'Ecole d'Orthophonie

DELORE Claire	Orthophoniste
GOUIN Jean-Marie	Praticien Hospitalier

Pour l'Ecole d'Orthoptie

MAJZOUB Samuel	Praticien Hospitalier
----------------------	-----------------------

Pour l'Ethique Médicale

BIRMELE Béatrice	Praticien Hospitalier
------------------------	-----------------------

SERMENT D'HIPPOCRATE

En présence des Maîtres de cette Faculté,
de mes chers condisciples
**et selon la tradition d'Hippocrate, je promets et je jure
d'être fidèle aux lois de l'honneur et de la probité
dans l'exercice de la Médecine.**

**Je donnerai mes soins gratuits à l'indigent,
et n'exigerai jamais un salaire au-dessus de mon travail.**

Admis dans l'intérieur des maisons,
**mes yeux ne verront pas ce qui s'y passe,
ma langue taira les secrets qui me seront confiés
et mon état ne servira pas
à corrompre les mœurs ni à favoriser le crime.**

Respectueux et reconnaissant envers mes Maîtres,
**je rendrai à leurs enfants l'instruction que j'ai reçue de leurs
pères.**

**Que les hommes m'accordent leur estime
si je suis fidèle à mes promesses.
Que je sois couvert d'opprobre et méprisé de mes confrères
si j'y manque.**

REMERCIEMENTS

A la présidente du jury,

Madame le Professeur Annabel MARUANI,

Vous me faites l'honneur de présider et de juger cette thèse.

Merci pour votre expertise dans la relecture de ce travail.

Je vous prie de trouver ici l'expression de mon respect profond et sincère et de ma plus vive
admiration.

A ma directrice de thèse,

Madame le Docteur Sophie LEDUCQ,

Chef de clinique des universités – assistant des hôpitaux

Service de Dermatologie

Je te suis profondément reconnaissante de m'avoir guidée dans ce travail.

Je m'estime chanceuse d'avoir pu bénéficier de ton expérience et de ton soutien.

Tu resteras pour moi un exemple, j'espère me montrer dans ma future carrière à la hauteur de
ton enseignement.

Aux membres du jury,

Monsieur le Professeur Denis HERBRETEAU,

Vous me faites l'honneur de juger ce travail et je vous en remercie.

Veillez croire en l'expression de ma plus haute considération.

Monsieur le Professeur François MAILLOT,

Je vous remercie d'avoir accepté de juger ce travail.

Veillez trouver ici l'expression de ma profonde reconnaissance.

Madame le Docteur Olivia BOCCARA,

Je vous remercie de m'avoir apporté votre aide dans cette étude.

C'est un grand honneur que vous ayez accepté de faire partie de mon jury.

Madame le Docteur Hélène CORNILLIER,

Tu m'as beaucoup appris lorsque j'étais ton interne et j'ai beaucoup apprécié ta patience, ta
gentillesse et ton enthousiasme.

Je suis très heureuse que tu aies accepté de juger ce travail.

Au Pr Laurent MACHET : Merci pour votre enseignement, votre disponibilité et votre soutien dans mes projets professionnels.

Au Pr Mahtab SAMIMI : Merci pour ton implication dans notre formation d'internes et pour tout ce que tu m'as appris lors des visites en A.

Au Dr Emmanuelle LEBIDRE : Merci pour ton encadrement, ta patience et ta gentillesse.

Au Dr Margaux GARNIER : Merci pour ton énergie, ton humour et tout ce que tu m'as appris en Oncodermatologie.

A l'ensemble des infirmières, aides-soignantes, secrétaires du CHU de Tours : Merci pour votre bonne humeur et votre gentillesse qui rendent les longues journées et les astreintes bien plus agréables.

A toute l'équipe médicale et paramédicale de Dermatologie du CHR d'Orléans : Merci pour ce premier semestre en Dermatologie qui m'a beaucoup appris et où j'ai pu expérimenter mon premier (et dernier) bain d'amidon.

Aux Dr Sophie OSDOIT et Kelly BAGNY : Ces 6 mois sur l'île intense furent une aventure inoubliable tant sur le plan professionnel que personnel.

Aux Dr Florence DUPUIS, Voichita GEORGESCU et Pierre ARMINGAUD : Merci pour votre accueil dans vos cabinets et votre investissement dans la formation des internes, j'ai beaucoup apprécié mon semestre à vos côtés.

A toute l'équipe médicale et paramédicale de Dermatologie de l'hôpital Ambroise Paré :
Un semestre plein de surprises : la découverte de la chirurgie, une équipe formidable, le Covid... et un même un poste pour les 2 ans à venir. J'ai hâte de faire partie de l'équipe.

Aux médecins et équipes d'Endocrinologie du CHR d'Orléans, d'Anatomopathologie du CH de Bourges : Merci pour m'avoir accueilli dans vos services avec bienveillance et bonne humeur.

A mes cointernes,

Alice et Juliette,

Vous resterez mes pustulettes préférées. J'ai eu une chance inouïe de vous avoir comme cointernes de promotion, comme colocataires, comme amies ! Mon internat n'aurait pas été le même sans vous. Et j'ai bien l'intention de tout faire pour que cette équipe de choc perdure...

Marie Charlotte,

En tant que première cointerne, tu as un statut à part. On a appris à être internes ensemble et j'en garde de très bons souvenirs. Je pense que tu n'oublieras jamais ma « tête en l'air ».

Frederic,

Tu as été mon papa interne, mon chef, mon partenaire de sport et surtout mon ami, merci pour ton aide au cours de ces années et ton soutien lors de ces dernières semaines.

Margaux, Laura, Ariane, Adriana, Claire, Samar, c'est ce qu'il y a de mieux dans l'internat, les nouveaux copains !

Marie, Anne, Stéphanie, j'ai adoré passer ce dernier semestre avec vous.

My-van, pour m'avoir supportée et nourrie pendant la rédaction de ce travail.

A mes parents,

Si je suis là aujourd'hui, c'est grâce à vous, à votre soutien inconditionnel et à vos encouragements tout au long de ma scolarité. Je ne vous remercierai jamais assez.

A mes frères et sœurs, Théophile, Aristide, Elio et Gabrielle-Agathe, merci pour votre entrain et votre soutien lors des innombrables week-ends de révisions rochelais durant ces dix dernières années.

À ma grand-mère, tu seras toujours dans mes pensées.

À mes grands-pères, les circonstances ont fait que vous n'avez pu vous déplacer aujourd'hui, prenez soin de vous.

A Arthur,

Ta patience et ton amour jusqu'à la dernière ligne droite ont été déterminants. Tu es le meilleur.

Aux rochelaises, Camille, Anne, Lysa, Agathe, Morgane, Elisa, Mathilde,

Je suis fière que nous soyons toujours si liées après tant d'années et j'espère que cela durera toute la vie.

Aux bordelais, Marion, Valentine, Dimitri, Mamad, Kevin,

Les sous colles, les bonbons de Valou, la motivation de Marion, les blagues de vous tous ont beaucoup aidé à ce que j'obtienne la spécialité de mon choix. Puissent les week-ends de retrouvailles être nombreux, votre amitié est précieuse.

Table des matières

I- INTRODUCTION GENERALE.....	13
II- RESUME EN FRANCAIS	18
III- ARTICLE SCIENTIFIQUE EN ANGLAIS.....	20
Abstract	23
Capsule Summary.....	25
Introduction	26
Methods	27
Results.....	29
Discussion	31
Conclusion	33
References.....	35
Tables.....	40
Figures legend	44
Supplemental file	45
Attachment.....	47
IV- CONCLUSION GENERALE.....	49
V- ANNEXES.....	51

I- INTRODUCTION GENERALE

Les malformations vasculaires superficielles (MVSs) sont des pathologies congénitales rares, ayant une prévalence estimée de 1,2% (1). Elles sont secondaires à des anomalies de la vasculogénèse survenant durant la vie intra-utérine. Des mutations post-zygotiques causales ont été identifiées dans certains types de MVSs (2). Les MVSs sont présentes à la naissance, mais ne sont pas toujours apparentes. Elles sont à différencier des tumeurs vasculaires, comme les hémangiomes du nourrisson, qui correspondent à une prolifération de cellules endothéliales. D'après la classification de l'*International Society for the Study of Vascular Anomalies* (3), les MVSs sont divisées en quatre types selon les vaisseaux impliqués : les MVSs simples (capillaires, lymphatiques, veineuses et artério-veineuses), combinées, tronculaires et les MVSs associées à d'autres anomalies (syndromiques).

L'évolution naturelle des MVSs est variable selon le type, mais est le plus souvent marquée par une aggravation progressive au cours de la vie (4). À l'exception des MVSs de très petite taille qui peuvent bénéficier d'un traitement curatif, et des malformations capillaires isolées qui entraînent principalement une gêne esthétique, les MVSs sont des pathologies chroniques ayant un impact esthétique et fonctionnel nécessitant un suivi à long terme durant l'enfance, l'adolescence et l'âge adulte.

L'adolescence est une période complexe de transition entre l'enfance et l'âge adulte, marquée par des transformations multiples et des modifications hormonales (puberté, prise d'une contraception œstro-progestative) pouvant aggraver certaines MVSs (4). D'autres facteurs déclenchant des poussées sont décrits, comme les traumatismes ou les actes invasifs (exérèse partielle, artériographie, embolisation incomplète).

C'est au cours de cette période que s'effectue la « transition enfant-adulte » (TEA). La TEA peut se définir par « le mouvement délibéré et planifié des adolescents et des jeunes

adultes avec des pathologies chroniques, physiques ou médicales, d'un système de soins centré sur l'enfant à un système de soins destiné aux adultes » (5). Elle a pour but de « fournir des soins de façon ininterrompue et coordonnée, appropriés du point de vue développemental ainsi que psychosocial et global » (5). Ce processus peut inclure un transfert du service pédiatrique au service adulte avec un changement de lieu et d'équipe de prise en charge. Le transfert a lieu à des âges variés selon le pays, les centres et les patients. L'âge légal de transfert en France est de 15 ans et 3 mois (6).

Les modalités de TEA, son éventuel impact sur la survenue de complications et l'adhésion des patients ont été étudiés pour des pathologies chroniques telles que le lupus (7), les pathologies rhumatologiques (8), les pathologies métaboliques (9), l'infection VIH (10) etc. En effet, la période de TEA est à risque de diminution de l'adhérence au traitement (11), de rupture de suivi (12) voire d'une augmentation de la mortalité (13). Par exemple, dans l'étude de Wiener *et al* qui étudiait la TEA chez des patients suivis pour une infection VIH, une tendance à la baisse de la fonction immunitaire (CD4) était mise en évidence, et 45% des patients ont déclaré que la transition était plus difficile que prévu (10). Dans l'étude de Miller *et al*, il a été montré que l'hémoglobine glyquée chez des patients diabétiques de type 1 augmentait de 8,1% à 9,2% entre l'âge de 7 et 19 ans (14).

Il n'y a pas de données publiées sur la TEA dans les pathologies chroniques rares en dermatologie, en particulier les MVSs. Nous nous sommes donc intéressés à la période de TEA dans cette pathologie. L'objectif de notre travail était d'évaluer le nombre de patients perdus de vue au décours de cette période de transition, l'impact de la TEA sur la consommation de soins, de décrire les modalités de la TEA dans les centres hospitaliers en France spécialisés dans les MVSs, et le ressenti des patients sur le déroulement de la TEA. Nous avons réalisé une étude observationnelle transversale multicentrique afin d'étudier l'impact de la TEA sur la prise en charge des patients suivis pour une MVS. Nous avons mené

cette étude auprès de 7 centres hospitaliers spécialisés dans les MVSs (Angers, Dijon, Marseille, Nice, Paris-Necker, Toulouse et Tours). Les patients âgés de 19 à 25 ans (nés entre 1995 et 2001) avec une MVS ayant eu au moins une consultation hospitalière avant l'âge de 16 ans ont été inclus. Les données médicales des patients sur la période pendant la TEA et la période post-TEA ont été recueillies. Dans notre étude, nous avons défini la TEA comme la période allant de 13 à 19 ans, en considérant qu'à 13 ans le processus de transition n'avait pas encore débuté, et qu'à 19 ans il était terminé. Parallèlement, un questionnaire a été envoyé à chaque patient inclus, comprenant des questions sur la période de l'adolescence, sur le suivi actuel, sur le passage des soins pédiatriques aux soins adultes et sur leur ressenti vis-à-vis du suivi pendant adolescence.

Ce travail a été réalisé par l'équipe de dermatologie pédiatrique du CHRU de Tours, labellisée en 2017 comme site constitutif du centre de référence MAGEC (MALadies GENétiques rares d'Expression Cutanée à début pédiatrique), avec la valence « malformations vasculaires et lymphatiques ». L'article a été soumis dans la revue *Journal of American Academy of Dermatology* (IF 8,277) pour publication. Les résultats de cette étude seront communiqués lors d'une présentation orale aux Journées Dermatologiques de Paris 2021.

Références

1. Tasnádi G. Epidemiology and etiology of congenital vascular malformations. *Semin Vasc Surg.* 1993;6(4):200-203.
2. Brouillard P, Vikkula M. Genetic causes of vascular malformations. *Hum Mol Genet.* 2007;16 Spec No. 2:R140-149.
3. Wassef M, Blei F, Adams D, et al. Vascular anomalies classification: recommendations from the International Society for the Study of Vascular Anomalies. *Pediatrics.* 2015;136(1):e203-214.
4. Boccara O, Maruani A, Léauté-Labrèze C. Anomalies vasculaires bénignes agressives de l'enfant et de l'adolescent. *Bull Cancer.* 2018;105(6):610-625.
5. Blum RWM, Garell D, Hodgman CH, et al. Transition from child-centered to adult health-care systems for adolescents with chronic conditions: a position paper of the Society for Adolescent Medicine. *J Adolesc Health.* 1993;14(7):570-576.
6. Yassaee A, Hale D, Armitage A, et al. The impact of age of transfer on outcomes in the transition from pediatric to adult health systems: a systematic review of reviews. *J Adolesc Health Off Publ Soc Adolesc Med.* 2019;64(6):709-720.
7. Haro SL, Lawson EF, Hersh AO. Disease activity and health-care utilization among young adults with childhood-onset lupus transitioning to adult care: data from the Pediatric Lupus Outcomes Study. *Lupus.* 2020;29(10):1206-1215.
8. Kelly A, Niddrie F, Tunnicliffe DJ, et al. Patients' attitudes and experiences of transition from paediatric to adult healthcare in rheumatology: a qualitative systematic review. *Rheumatology.* 2020; <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keaa168>

9. Chabrol B, Jacquin P, Francois L, et al. Transition from pediatric to adult care in adolescents with hereditary metabolic diseases: Specific guidelines from the French network for rare inherited metabolic diseases (G2M). *Arch Pédiatrie*. 2018;25(5):344-349.
10. Wiener LS, Kohrt B-A, Battles HB, et al. The HIV Experience: youth identified barriers for transitioning from pediatric to adult Care. *J Pediatr Psychol*. 2011;36(2):141-154.
11. Campagna BR, Weatherley K, Shemesh E, et al. Adherence to medication during transition to adult services. *Paediatr Drugs*. 2020;1–9.
<https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC7474320/>
12. Kranzer K, Bradley J, Musaaazi J, et al. Loss to follow-up among children and adolescents growing up with HIV infection: age really matters. *J Int AIDS Soc*. 2017;20(1):21737.
13. Turner PJ, Gowland MH, Sharma V, et al. Increase in anaphylaxis-related hospitalizations but no increase in fatalities: an analysis of United Kingdom national anaphylaxis data, 1992-2012. *J Allergy Clin Immunol*. 2015;135(4):956-963.
14. Miller KM, Foster NC, Beck RW, et al. Current state of type 1 diabetes treatment in the U.S.: updated data from the T1D Exchange clinic registry. *Diabetes Care*. 2015;38(6):971-978.

II- RESUME EN FRANCAIS

Introduction

La transition « enfant-adulte » (TEA) est une étape importante dans le suivi des maladies chroniques et a été très peu étudiée dans les pathologies chroniques rares en dermatologie.

Objectifs

Les objectifs de cette étude étaient d'évaluer la proportion de perdus de vue après la TEA chez les patients présentant des malformations vasculaires superficielles, l'impact de la TEA sur la consommation de soins, de décrire les modalités de TEA dans les hôpitaux français et le ressenti des patients.

Méthodes

Nous avons mené une étude transversale dans 7 hôpitaux français. Nous avons inclus des patients de 19 à 25 ans qui ont été suivis pour une malformation vasculaire superficielle avant l'âge de 16 ans. Les données ont été recueillies à partir des dossiers médicaux et un questionnaire a été envoyé aux patients, avec des questions sur la TEA.

Résultats

Quatre-vingt-dix patients ont été inclus, 41 (45,5%) étaient perdus de vue après la TEA. L'âge au moment du diagnostic était significativement plus élevé dans le groupe perdu de vue. La proportion de patients perdus de vue était similaire entre les patients qui ont dû changer de site pendant le processus de transition et ceux qui n'ont pas changé de site. Le taux de réponse au questionnaire était de 52,2% (n = 47). La plupart des patients étaient satisfaits de leur prise en charge (n = 31/36, 86,1 %), mais un manque de soutien psychologique a été mentionné (seuls 5 patients ayant répondu au questionnaire avaient été suivis par un psychologue).

Limites

Cette étude est limitée par la petite taille de son échantillon et la collecte de données via les dossiers médicaux.

Conclusion

Un diagnostic précoce, une prise en charge psychologique et des consultations régulières pourraient limiter le nombre de patients perdus de vue au cours de la TEA.

III- ARTICLE SCIENTIFIQUE EN ANGLAIS

Article Type: Original article

Title: Transition from pediatric to adult care for patients with superficial vascular malformations: a French multicenter cross-sectional study

Authors and affiliations

Camille Vermersch¹, Olivia Boccaro², Christine Chiaverini³, Juliette Mazereeuw⁴, Ludovic Martin⁵, Stéphanie Mallet⁶, Pierre Vabres⁷, Denis Herbreteau⁸, Anne Le Touze⁹, Annabel Maruani^{*1,10}, Sophie Leducq^{*1,10}

**Equally contributed*

¹Department of Dermatology and Reference Center for Rare Diseases and Vascular Malformations (MAGEC), CHRU Tours, Tours, France

²Department of Dermatology and Reference Center for Genodermatoses and Rare Skin Diseases (MAGEC), University Hospital Necker-Enfants Malades, Paris, France

³Department of Dermatology, University Hospital Center of Nice, Nice, France.

⁴Department of Dermatology, University Hospital Center of Toulouse, Toulouse, France.

⁵Department of Dermatology, University Hospital Center of Angers, Angers, France.

⁶Department of Dermatology, University Hospital Center of Marseille, 13885, Marseille Cedex 5, France.

⁷Department of Dermatology, University Hospital Center of Dijon, Dijon, France.

⁸Department of Neuroradiology and Interventional Radiology, University Hospital Center of Tours, Tours, France.

⁹Department of Pediatric Surgery, University Hospital Center of Tours, Tours, France.

¹⁰Universities of Tours and Nantes, INSERM 1246 – SPHERE, 37000 Tours, France

Corresponding author

Dr Sophie Leducq, Department of Dermatology, CHRU Tours, Avenue de la République,
37044 Tours Cedex 9, France

Tel: +33 2 47 47 90 80

Fax: +33 2 47 47 82 47

Email: sophie.leducq@univ-tours.fr

Funding sources: None

Conflict of interest: None declared

IRB approval status: Not applicable

Reprint requests: Reprints not available from the authors

Manuscript word count [excluding capsule summary, abstract, references, figures, tables]:

2366

Abstract word count: 260

Capsule summary word count: 47

References: 27

Figures: 1

Supplementary figure: 1

Tables: 4

Supplementary table: 1

Additional file 1: Informed consent material

Additional file 2: STROBE checklist for cross-sectional studies

Keywords: health care transition, vascular malformation, follow-up, adult, children, survey, patient satisfaction

Abstract

Background

Health care transition (HCT), i. e. transition from pediatric to adult care, is challenging in chronic conditions, although it has been very poorly studied for rare chronic skin diseases.

Objective

The objectives of this study were to investigate the proportion of loss of follow-up (LFU) in patients with superficial vascular malformations after HCT and the impact of HCT on care consumption, and to describe modalities of HCT in French centers and collect patients' opinions.

Methods

We conducted a cross-sectional study in 7 French hospitals. We included patients aged between 19 and 25 years, who were followed up for a superficial vascular malformation before age 16 years. Data were collected from medical records and a questionnaire was sent to the patients included asking about the HCT.

Results

Among the 90 patients included, 41 (45.6%) were LFU after HCT. The age at diagnosis was significantly higher for the group LFU. The LFU proportion was similar between patients who had to change of hospital during transition process and those who did not. Responses at the questionnaire were obtained for 47 out of 90 (52.2% response rate). Most patients were satisfied by their management ($n = 31/36$, 86.1%), however a lack in psychological support was reported (only 5 patients who responded to the questionnaire had been followed by a psychologist).

Limitations

This study is limited by its small sample size and collection of data via medical records.

Conclusion

Early diagnosis, psychological management and regular appointments could limit the number of patients LFU during pediatric to adult transition care.

Capsule Summary

- Health care transition (HCT) is known to be at risk for complication, decreased adherence and patient dissatisfaction.
- This is the first study on HCT in vascular malformations. We found that early diagnosis was associated to less loss of follow-up, and that patients attended for better psychological management.

Introduction

Superficial vascular malformations (SVMs) are congenital rare conditions of children and adults, with a prevalence estimated at 1.2% (1). In numerous types of SVMs, post-zygotic mutations in genes involved in vasculogenesis have been evidenced, which consequences are inborn errors in vascular morphogenesis (2,3). According to the classification from the International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA), SVMs are divided into four subtypes according to the vessels involved: capillary malformations (CMs), lymphatic malformations (LMs), venous malformations (VeMs), and arteriovenous malformations (AVMs). They can be isolated, combined or associated with other anomalies (4). Although SVMs are present at birth, they are not always apparent at this stage, and might even occur during the adulthood (5). The natural history of SVMs depends on the subtype, and usually consists in progressive worsening during life (6-8). Except for very small SVMs that can undergo curative treatment, management of SVMs is a life-long process that requires long-term follow-up during childhood and adulthood.

Adolescence is a complex period for management as it involves multiple transformations. Hormonal changes may worsen SVMs (6); also, the adolescents' aspiration for independence might lead them to disrupt their treatment and follow-up, which also might induce worsening of disease (9); last, the healthcare systems, including caregivers, sometimes change during this transition period, depending on each country's health care organizations. For example in France, pediatric hospitals and health care units usually receive children until they reach 15 years and 3 months, then they are managed in adults' departments. This transition from pediatric to adult care is called "health care transition" (HCT). HCT can be defined as "the process of moving from a pediatric to an adult model of health care with or without a transfer to a new health care provider" (10). HCT for patients with a chronic disease is challenging for both patients and physicians, and requires to "provide health care that is uninterrupted,

coordinated, developmentally appropriate, psychosocially sound, and comprehensive” (11). The modalities of HCT, its possible impact on chronic conditions, the occurrence of complications and patient’s adhesion have been studied for chronic pathologies such as HIV or tuberous sclerosis complex (12-14). The issues may differ whether the disease is acquired or congenital, and whether it is an orphan disease or not. In rare diseases, HCT is challenging because of the strong relationship between the patient and the physician due to a long-term follow-up and because it may be difficult to find physicians with a good knowledge of the disease in adult departments. A recent literature review on HCT in 2020 highlighted practical considerations to facilitate the development of programs for epidermolysis bullosa and other dermatologic conditions (15). However, there are no published data on HCT in rare chronic conditions such as SVMs.

The objectives of this study were: (1) to assess the prevalence of loss of follow-up in patients with SVMs during HCT; (2) to evaluate the impact of HCT on care consumption; and (3) to describe patients’ perception on HCT.

Methods

Study design and setting

We conducted a cross-sectional multicenter study in patients with SVMs. Seven French centers involved in the network of the reference centers for vascular anomalies participated: departments of dermatology/pediatric dermatology of Angers, Dijon, Marseille, Nice, Paris-Necker, Toulouse and Tours.

Participants

We included all patients followed up for a SVM who had completed transition period in 2020, i.e. aged between 19 and 25 years (birthdates ranging from 1995 and 2001). Criteria for eligibility included that these patients had consulted at least once for their SVM at the center

before age 16 years (i.e. before transition), so we could be able to investigate the transition period.

Patients all had a SVM (LMs, VeMs or AVM) confirmed by imaging (ultrasound, CT-scan, or resonance magnetic imaging), that could not undergo curative treatment. SVM was simple, combined or associated with others anomalies, whatever the topography. Patients with a simple CM, as this condition might not always require a systematic follow-up. Patients with incomplete medical records were excluded.

Definition of health care transition-age

We defined HCT-age as ranging from 13 to 19 years old, as at 13 years old the transition to adult care has not yet begun and at 19 years, this process is considered completed. HCT must be distinguished from transfer, which only defines the physical change of hospital site from pediatric department to adult department during HCT. The transfer takes place at various ages during adolescence (16).

Data collected

We collected the following data from clinical records: demographic characteristics (age, sex), characteristics of the SVM (type, localization, simple or combined), history (age of diagnosis, previous treatment, effect of puberty on the SVM), current follow-up and change of hospital site during follow-up, data on care consumption (last pediatric/adult care, number of physician's visits, of hospitalizations and number of emergency department admissions from the age of 13 to 19 years).

A standardized 32-item-questionnaire was submitted to all patients who were included. To optimize response rate, patients who did not complete the questionnaire were contacted by telephone. Items included demographic data (age, sex, marital status, professional status and education level), data on the period of adolescence, on the current follow-up, on transition from pediatric to adult healthcare and on the feelings on the follow-up during adolescence.

Last, a form was completed by the investigator of each center to collect data on the center's practices regarding modalities of HCT.

Endpoints

The primary outcome was the proportion of patients who were lost to follow-up, defined as the absence of any consultation for at least 3 years prior to data collection. Secondary outcomes were: i) the health care consumption which was assessed by the number of hospitalizations, admissions to the emergency department and physician's visit from the age of 13 to 19 years; ii) description of patients' perception on HCT; iii) and description of modalities of HCT in French tertiary centers.

Statistical analysis

Descriptive data are presented as median (interquartile range) for quantitative data and frequency (percentage) for qualitative data. No methods to handle missing data were performed. Means were compared using the Student *t* test and the Wilcoxon sum rank when necessary. Frequencies were compared using the Chi-squared test and Fisher's exact test as appropriate. No sensitivity analysis was performed. Statistical analyses were performed using R software version 4.0.2. The R package Leaflet was used for figure. A two-sided $p < 0.05$ was considered statistically significant.

Ethical considerations

The study was approved by the institutional review board of the University Hospital Center of Tours and received approval from the *Commission Nationale de l'Informatique et des Libertés*. Patients received written information.

Results

Characteristics of study participants (Table 1)

A total of 90 patients were included (**Figure 1, Supplemental Data Figure**). Fifty-one women (56.7%) and 39 men (43.3%) with a median age 21.0, interquartile interval [20-22.25] (range 19-25 years), were included. All types of SVMs were represented with a majority of VeMs (38 patients, 42.0%). The most frequent location was the lower limb (n = 36, 40.0%). The median age at diagnosis was 3.0 years, interquartile interval [0.0 – 11.0]. Eighty-five patients had undergone previous treatment. For 35 patients (38.9%), a worsening during puberty was reported in the medical records.

Primary outcome

Altogether, 41 patients (45.6%) were LFU during HCT. **Table 2** shows the characteristics of patients according to their LFU status. Age of diagnosis was significantly higher in patients LFU compared to patients not LFU (9.0 vs 2.0 years, $p = 0.038$). There were no differences regarding the age, gender, age of onset of follow-up in the hospital site, frequency of physician's visits and necessity to change of hospital site between the 2 groups.

Health care consumption

Table 1 in Supplemental Data displays the health care consumption by age during HCT for patients undergoing follow-up. Scheduled consultations were from 0 to 10 per year for each age between 13 and 19 years and there was no increase on frequency during follow-up.

Unscheduled hospitalization and admission to the emergency department ranged respectively from 0 to 2 and 0 to 3 per year for each age and were similar between age ranging.

Modalities of HCT in the French departments participating

Among the 7 French tertiary centers which participated to the study, health providers were the same for children and adults followed up for SVMs in 6 centers and different in one; in 5 centers, adult and pediatric consultations took place at the same hospital site and patients had to change of hospital (from a specific pediatric one to an adult one) during the HCT for 2. One

center had a professional HCT coordinator and one center offered support groups or therapeutic workshops.

Patients' perceptions of the transition process

Of all 90 patients, 47 patients completed the questionnaire (52.2% response rate), among whom 14 were LFU from the hospital center, and 33 were still followed up (**Figure 1**). The characteristics of responding patients are described in **Table 3** and patients' feelings about follow-up are reported in **Supplemental Data**. The median age of the responders was 21.0, interquartile interval [20-22.0] years, 29 (61.7%) were females (i.e., male/female ratio 1/1.6); 36 (76.6%) were in college and 6 (12.8%) had a professional activity. There was no difference between LFU patients and not LFU patients regarding change of city for studies, discomfort linked to the malformation during adolescence and the rate of patients who wanted to interrupt their follow-up during adolescence. Most patients were satisfied by their management (n = 31, 86.1%, missing data for 11 patients) and there was no difference between LFU and not LFU groups (**Supplemental Data, Table 2**). However a lack in psychological support was reported (only 5 patients who responded to the questionnaire had been followed by a psychologist).

Discussion

Key results

To our knowledge, this is the first study to describe HCT process in patients with SVMs. Among 90 patients included, 41 patients (45.6%) were lost to follow-up during transition period. The change of hospital site during transition was not associated with a greater likelihood of patients being LFU. Age of diagnosis of SVMs for patients LFU was significantly higher than patients not LFU ($p = 0.038$).

Interpretation

There are many challenges inherent in the transition process from pediatric to adult care. This critical period takes place during adolescence which is associated with physical and psychosocial changes, with a risk for worsening of SVMs, as reported in 38.9% of our patients. As a consequence, we could have expected an increased number of consultations and a low rate of LFU, but our study highlights a high rate of LFU (45.6%). This could be explained by several factors: absence of curative treatments (17-19), prevalence of the disease, overloaded school schedules, follow-up fatigue in children, or opposition to parents, for example. Indeed, in conditions more common (HIV and type 1 diabetes), the LFU rate was lower (19.8% and 8.6% respectively) and could be explained by the long-term treatment (20, 21). Recently, sirolimus, a mammalian target of rapamycin (mTOR) inhibitor, has been increasingly used for complicated vascular malformations (22), and targeted PIK3CA inhibitor alpelisib (BYL719) was recently administered with significant clinical benefit in syndromic vascular malformations belonging to PIK3CA-related overgrowth spectrum (23). The prospect of new effective drugs for vascular malformations could help to reduce the number of patients LFU. Early diagnosis was associated with fewer LFU in our study. We can assume that when the diagnosis is early, the child's and parents' confidence in the medical team and therefore adherence to follow-up is better. It is also possible that more extensive and therefore more troublesome SVMs may lead parents to consult earlier.

Furthermore, we highlight that a transition coordinator was present in only one centers out of 7. In other chronic conditions, the presence of a transition coordinator, who helps coordinate patient intake and follow-up as well as answers questions/concerns that the patient or patient's family may have, seems to be an important element for the success of the process (24-26). Contrary to diabetes for example, SVMs are rare chronic conditions and therefore a small number of patients are treated in each center. The implementation of transition protocols for small numbers of patients can therefore be more difficult.

In our study, consumption of scheduled care from 13 to 19 years was higher than unscheduled care. Rates of scheduled consultations seem similar to data from a Canadian study that found a 44.3% rate of patients with non-complex chronic conditions consulting a specialist in the 2 years after HCT (27). Rates of hospitalizations are higher than in this study that found a rate of 6.3% of hospitalizations in the 2 years after HCT. In our study, consumption of unscheduled care was very low, with very few admissions to the Emergency Department or unplanned hospitalizations. In the previously mentioned study (27), rates of admissions to the Emergency Department were much higher with 45.9% of patients being admitted in the 2 years after HCT.

The survey part of our study highlighted an important psychological impact of the SVM as reported by the patient (42.5% were very embarrassed or annoyed by the malformation). The satisfaction for psychological management by their doctor was low. Very few patients had a follow-up by a psychologist (10.6%), whereas we find higher rates of psychological follow-up during this period in other pathologies such as tuberous sclerosis complex (35%) (14).

Limitations

First, our study may be underpowered because of the small sample size (N = 90) explained by the fact that SVMs are rare and the small number of centers included (N = 7). Second, number of patients LFU might be overestimated, in case the patient moved and was followed-up in a hospital which did not participate to the study. Moreover, our data collection may have been incomplete because we did not have access to the care consumption of patients outside the center (attending physician, emergency room or dermatology department in another hospital).

Conclusion

Early diagnosis and follow-up, associated with psychological management and periodic physicians' visits was associated to less of follow-up during and after HCT, which is a crucial

period due to the hormonal and psychological changes of adolescence and the potential change of hospital. Evaluating HCT with measurable factors in order to be able to improve practices is an ambitious but necessary goal in rare chronic diseases.

References

1. Tasnádi G. Epidemiology and etiology of congenital vascular malformations. *Semin Vasc Surg.*1993;6(4):200-203.
2. Brouillard P, Vikkula M. Genetic causes of vascular malformations. *Hum Mol Genet.* 2007;16 Spec No. 2:R140-149.
3. Keppler-Noreuil KM, Rios JJ, Parker VER, et al. PIK3CA-related overgrowth spectrum (PROS): diagnostic and testing eligibility criteria, differential diagnosis, and evaluation. *Am J Med Genet A.* 2015;167A(2):287-295.
4. Wassef M, Blei F, Adams D, et al. Vascular anomalies classification: recommendations from the International Society for the Study of Vascular Anomalies. *Pediatrics.* 2015;136(1):e203-214.
5. Guillet A, Connault J, Perrot P, et al. Early symptoms and long-term clinical outcomes of distal limb's cutaneous arterio-venous malformations: a retrospective multicentre study of 19 adult patients. *J Eur Acad Dermatol Venereol.* 2016;30(1):36-40.
6. Hassanein AH, Mulliken JB, Fishman SJ, et al. Lymphatic malformation: risk of progression during childhood and adolescence. *J Craniofac Surg.* 2012;23(1) :149-152.
7. Enjolras O, Logeart I, Gelbert F, et al. Arteriovenous malformations: a study of 200 cases. *Ann Dermatol Venereol.* 2000;127(1):17-22.
8. Pappas DC, Persky MS, Berenstein A. Evaluation and treatment of head and neck venous vascular valformations. *Ear Nose Throat J.* 1998;77(11):914-922.

9. Campagna BR, Weatherley K, Shemesh E, et al. Adherence to Medication During Transition to Adult Services. *Paediatr Drugs*. 2020; 1-9. <https://doi.org/10.1007/s40272-020-00414-2>
10. Society for Adolescent Health and Medicine. Transition to adulthood for youth with chronic conditions and special health care needs. *J Adolesc Health*. 2020;66(5):631-634.
11. Blum RWM, Garell D, Hodgman CH, et al. Transition from child-centered to adult health-care systems for adolescents with chronic conditions: A position paper of the Society for Adolescent Medicine. *J Adolesc Health*. 1993;14(7):570-576.
12. Agwu AL, Lee L, Fleishman JA, et al. Aging and loss to follow-up among youth living with human immunodeficiency virus in the HIV research network. *J Adolesc Health*. 2015;56(3):345-351.
13. Peron A, Canevini MP, Ghelma F, et al. Healthcare transition from childhood to adulthood in tuberous sclerosis complex. *Am J Med Genet*. 2018;178(3):355-364.
14. Bar C, Ghobeira R, Azzi R, et al. Experience of follow-up, quality of life, and transition from pediatric to adult healthcare of patients with tuberous sclerosis complex. *Epilepsy Behav*. 2019;96:23-27.
15. Perez VA, Morel KD, Garzon MC, et al. Review of transition of care literature: epidermolysis bullosa, a paradigm for patients with complex dermatologic conditions. *J Am Acad Dermatol*. 2020;S0190-9622(20)31182-31188.
<https://doi.org/10.1016/j.jaad.2020.06.083>

16. Yassaee A, Hale D, Armitage A, et al. The impact of age of transfer on outcomes in the transition from pediatric to adult health systems: a systematic review of reviews. *J Adolesc Health*. 2019;64(6):709-720.
17. Hage AN, Chick JFB, Srinivasa RN, et al. Treatment of venous malformations: the data, where we are, and how it is done. *Tech Vasc Interv Radiol*. 2018;21(2):45-54.
18. Elluru RG, Balakrishnan K, Padua HM. Lymphatic malformations: diagnosis and management. *Semin Pediatr Surg*. 2014;23(4):178-185.
19. Cox JA, Bartlett E, Lee EI. Vascular malformations: a review. *Semin Plast Surg*. 2014;28(2):58-63.
20. Kranzer K, Bradley J, Musaazi J, et al. Loss to follow-up among children and adolescents growing up with HIV infection: age really matters. *J Int AIDS Soc*. 2017;20(1):21737.
21. Farrell K, Fernandez R, Salamonson Y, et al. Health outcomes for youth with type 1 diabetes at 18 months and 30 months post transition from pediatric to adult care. *Diabetes Res Clin Pract*. 2018;139:163-169.
22. Sandbank S, Molho-Pessach V, Farkas A, et al. Oral and topical Sirolimus for vascular anomalies: a multicentre study and review. *Acta Derm Venereol*. 2019;99(11):990-996.
23. Venot Q, Blanc T, Rabia SH, et al. Targeted therapy in patients with PIK3CA-related overgrowth syndrome. *Nature*. 2018;558(7711):540-546.
24. Schultz AT, Smaldone A. Components of interventions that improve transitions to adult care for adolescents with type 1 diabetes. *J Adolesc Health*. 2017;60(2):133-146.

25. Gray WN, Holbrook E, Dykes D, et al. Improving IBD transition, self-management, and disease outcomes with an in-clinic transition coordinator. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2019;69(2):194-199.
26. Spaic T, Robinson T, Goldbloom E, et al. Closing the gap: results of the multicenter canadian randomized controlled trial of structured transition in young adults with type 1 diabetes. *Diabetes Care.* 2019;42(6):1018-1026.
27. Cohen E, Gandhi S, Toulany A, et al. Health care use during transfer to adult care among youth with chronic conditions. *Pediatrics.* 2016;137(3):e20152734.

Abbreviations used

AVMs, arteriovenous malformations

CMs, capillary malformations

HCT, health care transition

ISSVA, International Society for the Study of Vascular Anomalies

LFU, lost to follow-up

LMs, lymphatic malformations

VeMs, venous malformations

Tables

Table 1. Characteristics of patients included

	Missing data	N = 90
Demographic characteristics		
Age, years	2	21.0 [20.0 - 22.25]
Female gender	0	51 (56.7)
Clinical features of vascular malformation		
Vascular malformation type	0	
Simple venous malformation		38 (42.2)
Simple lymphatic malformation		12 (13.4)
Simple arteriovenous malformation		9 (10.0)
Combined malformation (capillary/venous/lymphatic)		20 (22.2)
Vascular malformation associated with other anomalies		11 (12.2)
Location*	1	
Head and neck/tongue		30 (33.3)
Trunk/gluteal area		22 (24.4)
Upper limb		16 (17.8)
Lower limb		36 (40.0)
Age of diagnosis	10	3.0 [0.0-11.0]
Treatment of malformation*	0	
Therapeutic abstention		5 (5.6)
Sclerotherapy/embolization		42 (46.7)
Drugs		34 (37.8)
Physical treatment (bandages, drainage, laser)		31 (34.4)
Surgery		44 (48.9)
Medical data puberty		
Age of first period (for women only)	7	13.0 [12.0-14.0]
Age of growth spurt	65	13.0 [12.0-14.0]
Aggravation of the malformation (reported in the medical record)	7	35 (38.9)
Aggravation of the malformation (reported by the patient)	43	35 (74.5)

Results are reported in n (%) for qualitative variables and median [interquartile range] for quantitative variables.

**A patient may have several characteristics*

Table 2. Patient characteristics according to their loss to follow-up status

	Missing data	Lost to follow-up (N = 41)	Not lost to follow-up (N = 49)	P value
Demographic characteristics				
Age, years	2	21.0 [20.0 - 22.25]	21.0 [20.0 - 22.25]	0.42
Female gender	0	25 (61.0)	26 (53.1)	0.28
Clinical features of vascular malformation				
Vascular malformation type	1			0.059
Simple venous malformation		23 (56.1)	15 (30.6)	
Simple lymphatic malformation		7 (17.1)	6 (10.2)	
Simple arteriovenous malformation		2 (4.9)	7 (14.3)	
Combined malformation (capillary/venous/lymphatic)		6 (14.6)	14 (28.6)	
Syndromic malformation		3 (7.3)	8 (16.3)	
Location*	1			0.53
Head and neck/language		10 (24.4)	20 (40.8)	
Trunk/gluteal area		10 (24.4)	12 (24.5)	
Upper limb		8 (19.5)	8 (16.3)	
Lower limb		18 (43.9)	18 (36.7)	
Age of diagnosis	10	9.0 [0.0-13.0]	2.0 [0.0-6.5]	0.038
Previous treatment of malformation*	0			0.055
Therapeutic abstention		4 (9.8)	1 (2.0)	
Sclerotherapy/embolization		18 (43.9)	24 (49.0)	
General drug treatment		7 (17.1)	27 (55.0)	
Physical treatment (bandages, drainage, laser)		13 (31.7)	18 (36.7)	
Surgery		14 (34.2)	30 (61.2)	
Follow-up procedures in the centre				
Age of onset of follow-up in the site	2	13.0 [9.0-14.0]	9.0 [3.5-13.0]	0.07
Type of site	0			0.71
Pediatric site		30 (73.2)	38 (77.5)	
Adult site		1 (2.4)	0 (0.0)	
Mixed site		10 (24.4)	11 (22.5)	
Transition/change of site during follow-up	1	9 (22.5)	14 (28.6)	0.23
Age of change of site	2	17.0 [16.0-16.5]	16.0 [14.5-16.5]	0.09
Average number of consultations†	7			0.08
≤ 1 time per year		11 (26.8)	25 (51.0)	
> 1 time per year		30 (73.2)	24 (49.0)	

Results are reported in n (%) for qualitative variables and median [interquartile range] for quantitative variables.

*A patient may have several characteristics

† Average number of consultations per year corresponding to the total number of consultations/number of years of follow-up

Table 3. Characteristics of responders to the survey regarding their loss to follow-up status

	Missing data	Total (N = 47)	Lost to follow-up (N = 14)	Not lost to follow-up (N = 33)	P value
Demographic characteristics					
Age, years	0	21.0 [20.0- 22.0]	20.5 [20.0- 22.0]	21.0 [20.0- 22.0]	0.58
Female gender	0	29 (61.7)	13 (92.9)	16 (48.5)	0.01
Professional status					0.19
High school		1 (2.1)	0 (0.0)	1 (3.0)	
College		36 (76.6)	10 (71.4)	26 (78.8)	
Professional activity		6 (12.8)	1 (7.1)	5 (15.2)	
Not working because of disability		2 (4.3)	2 (14.3)	0 (0.0)	
Not working		2 (4.3)	1 (7.1)	1 (3.0)	
Education level	1				0.97
Primary/high school education		25 (54.3)	7 (53.9)	18 (54.5)	
College/university education		21 (45.7)	6 (46.1)	15 (45.5)	
Marital status	0				>0.99
Single		42 (89.4)	13 (92.9)	29 (87.9)	
Married/common law		5 (10.6)	1 (7.1)	4 (12.1)	
Change of city for studies	0	25 (53.2)	7 (50.0)	18 (54.5)	>0.99
Data on the period of adolescence/transition					
Embarrassment or complex due to malformation	1				>0.99
Yes, absolutely		20 (42.5)	6 (46.2)	14 (42.4)	
Yes, rather		10 (21.7)	3 (23.0)	7 (21.2)	
No, not really		8 (17.4)	2 (15.4)	5 (15.2)	
Not at all.		8 (17.4)	2 (15.4)	6 (18.2)	
Want to stop follow-up	1				0.72
Yes, absolutely		7 (15.2)	3 (23.1)	4 (12.1)	
Yes, rather		7 (15.2)	2 (15.4)	5 (15.2)	
No, not really		9 (19.6)	3 (23.1)	6 (18.2)	
Not at all		23 (50.0)	5 (38.4)	18 (54.5)	
Patients satisfied with follow-up	11	31 (86.1)	8 (88.9)	23 (85.2)	>0.99
Rhythm of appointments	13				>0.99
Adapted		25 (75.7)	6 (75.0)	19 (79.1)	
Not enough		6 (15.2)	1 (12.5)	5 (20.8)	
Too frequent		3 (9.1)	1 (12.5)	2 (8.3)	
Psychological follow-up	1	5 (10.6)	1 (7.1)	4 (12.5)	>0.99
Change of site during monitoring	1	22 (47.8)	9 (69.3)	13 (40.6)	0.20

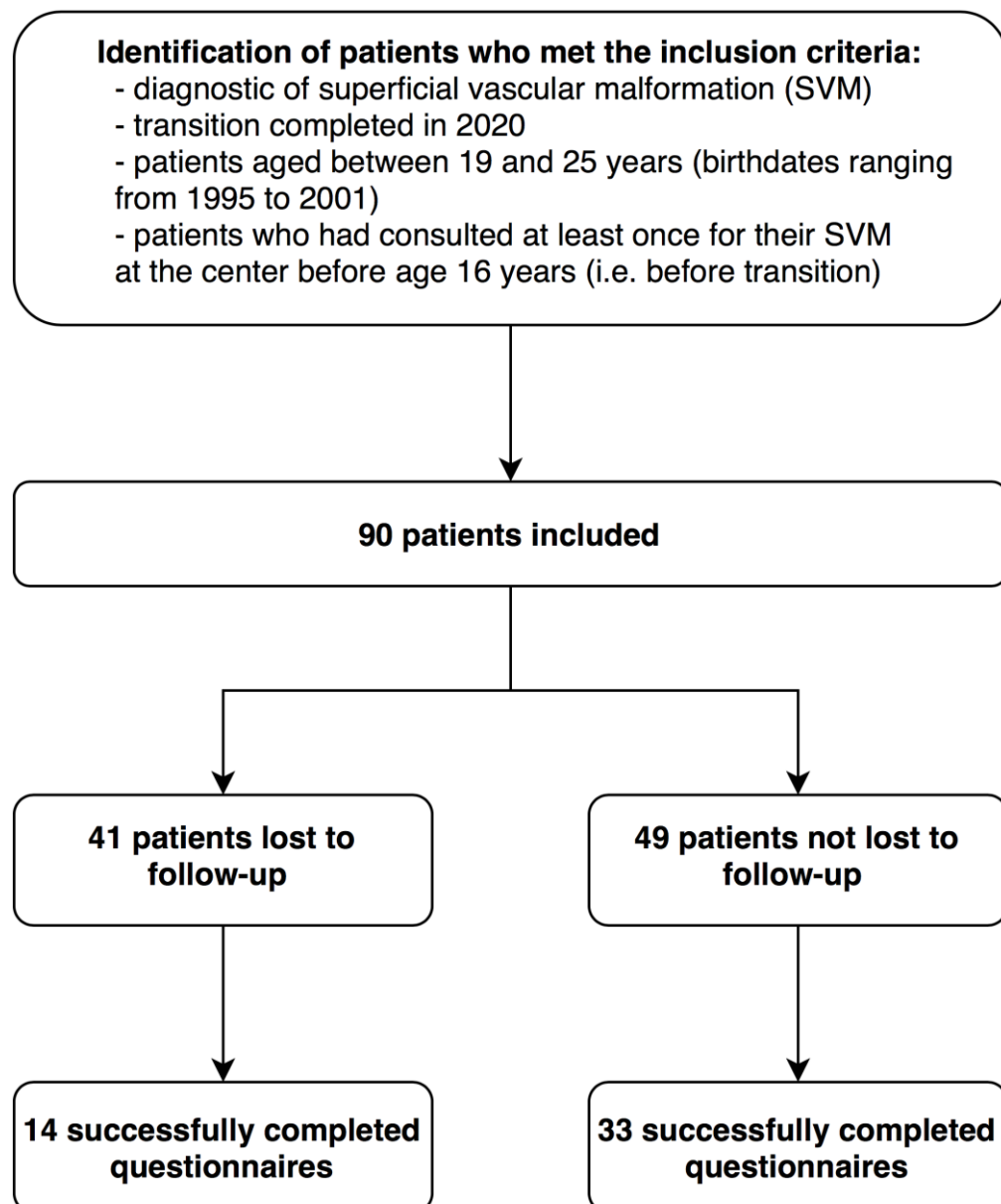
Age of change of site	2	16.0 [16.0-17.5]	16.0 [15.5-17.5]	16.0 [16.0-17.8]	
Decision to change site	3				>0.99
Good time		16 (84.2)	7 (87.5)	9 (81.8)	
Too soon		3 (15.8)	1 (12.5)	2 (18.2)	
Too late		0 (0.0)	0 (0.0)	0 (0.0)	
Change in support	0				0.29
Yes, absolutely		3 (13.6)	1 (11.1)	2 (15.4)	
Yes, rather		7 (31.8)	5 (55.6)	2 (15.4)	
No, not really		7 (31.8)	2 (22.2)	5 (38.4)	
Not at all		5 (22.7)	1 (11.1)	4 (30.8)	
Data for the current (post-transition) period					0.66
Embarrassed or annoyed by the malformation	0				
Yes, absolutely		12 (25.5)	3 (21.4)	9 (27.3)	
Yes, rather		9 (19.1)	2 (14.3)	7 (21.2)	
No, not really		8 (17.0)	4 (28.6)	4 (12.1)	
Not at all		18 (38.3)	5 (35.7)	13 (39.4)	

Results are reported in n (%) for qualitative variables and mean $\pm$ standard deviation or median [interquartile range] for quantitative variables.

*A patient may have several characteristics

Figures legend

Figure 1. Flow of participants in the study



Supplemental file

Figure 1. Geographical distribution of patients included (initial center of follow-up).

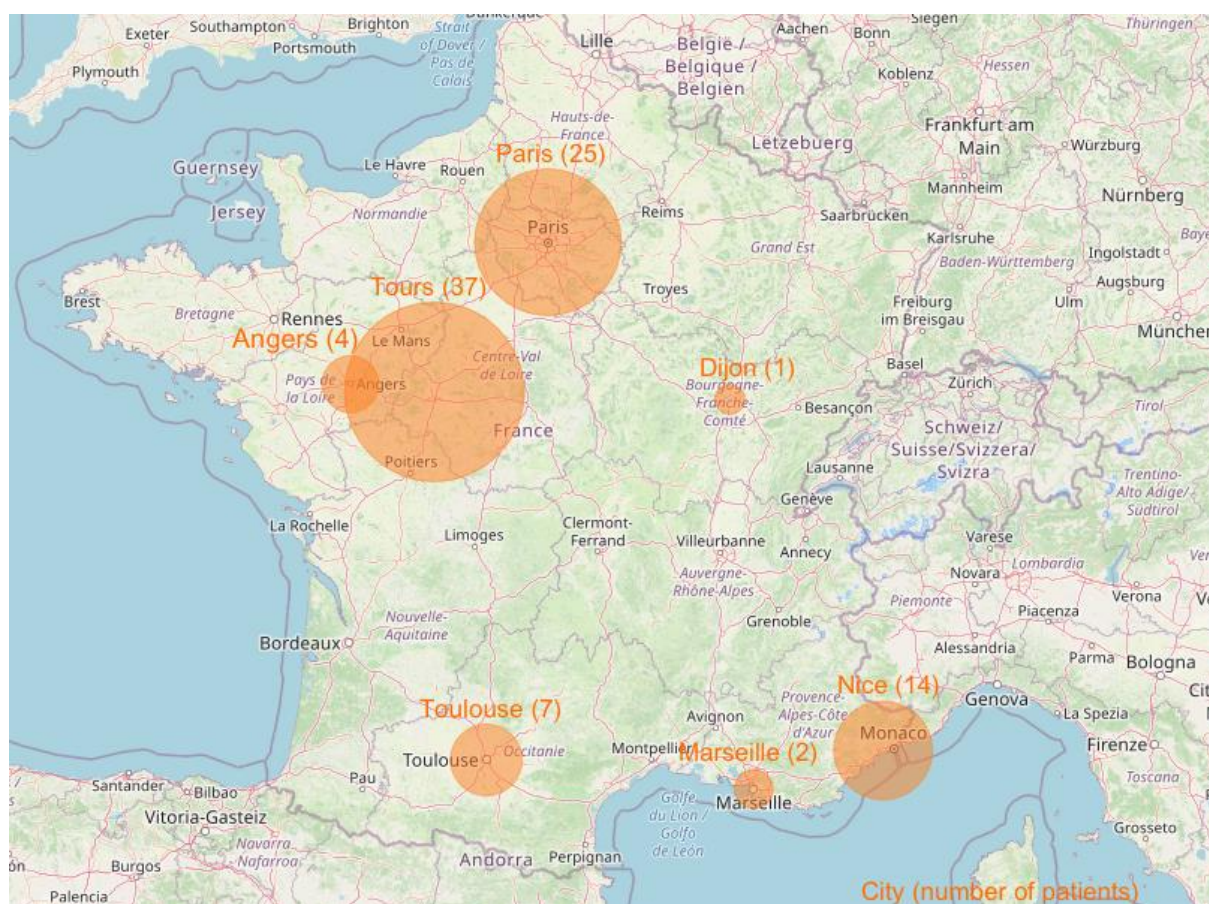


Table 1. Health care consumption during follow-up and health care transition

	Missing data	13-14 years	14-15 years	15-16 years	16-17 years	17-18 years	18-19 years
Number of patients with more >1 scheduled consultations	5	13/70 (18.6%)	27/76 (35.5%)	16/70 (22.9%)	19/66 (22.8%)	24/62 (38.7%)	23/56 (41.1%)
Median number of scheduled consultations [min-max]	5	0 [0 – 6]	0 [0 – 5]	1 [0 – 6]	1 [0 – 5]	1 [0 – 10]	1 [0 – 10]
Number of patients with ≥1 emergency department visit(s)	5	0/70 (0.0%)	4/76 (5.3%)	1/71 (1.4%)	1/67 (1.5%)	3/63 (4.8%)	2/57 (3.5%)
Median number of emergency department visits [min-max]	5	0 [0 – 0]	0 [0 – 2]	0 [0 – 3]	0 [0 – 1]	0 [0 – 1]	0 [0 – 2]
Number of patients with ≥1 unscheduled hospitalization(s)	5	0/72 (0.0%)	2/78 (2.6%)	1/73 (1.4%)	0/69 (0.0%)	2/65 (3.1%)	1/59 (1.7%)
Median number of unscheduled hospitalizations [min-max]	5	0 [0 – 0]	0 [0 – 2]	0 [0 – 2]	0 [0 – 1]	0 [0 – 1]	0 [0 – 2]

Results are reported in number/number of patients at risk for the period (%)

We defined health care transition-age as ranging from 13 to 19 years old, as at 13 years old the transition to adult care has not yet begun and at 19 years, this process is considered completed.

Table 2. Feelings about follow-up during adolescence

	Missing data	Score*
Your doctor gave you enough time?	4	
13-16 years		8.0 [7.0 – 10.0]
16-19 years		8.0 [6.0 – 10.0]
Your doctor coordinated care?	5	
13-16 years		8.0 [6.0 – 9.0]
16-19 years		8.0 [7.0 – 10.0]
Satisfaction with the care?	5	
13-16 years		8.0 [7.0 – 10.0]
16-19 years		8.0 [7.0 – 10.0]
Your doctor helped you empower yourself?	6	
13-16 years		7.5 [5.0 – 9.3]
16-19 years		8.0 [7.0 – 10.0]
Assessment of psychological care?	10	
13-16 years		5.0 [0.0 – 8.0]
16-19 years		6.0 [0.0 – 8.3]
Satisfied of regularity of appointments?	17	
13-16 years		24 (82.8)
16-19 years		21 (72.4)

*10 point scale, 0 = not all, 10 = yes completely

Data are expressed as median [min – max] and n (%)

Attachment.

Additional file 1: STROBE checklist for cross-sectional studies

Additional file 1: STROBE checklist for cross sectional studies			Page No
	Item No	Recommendation	
Title and abstract	1	(a) Indicate the study’s design with a commonly used term in the title or the abstract	20
		(b) Provide in the abstract an informative and balanced summary of what was done and what was found	23
Introduction			
Background/rationale	2	Explain the scientific background and rationale for the investigation being reported	26-27
Objectives	3	State specific objectives, including any prespecified hypotheses	17
Methods			
Study design	4	Present key elements of study design early in the paper	17
Setting	5	Describe the setting, locations, and relevant dates, including periods of recruitment, exposure, follow-up, and data collection	17-18
Participants	6	(a) Give the eligibility criteria, and the sources and methods of selection of participants	17-18
Variables	7	Clearly define all outcomes, exposures, predictors, potential confounders, and effect modifiers. Give diagnostic criteria, if applicable	28-29
Data sources/ measurement	8*	For each variable of interest, give sources of data and details of methods of assessment (measurement). Describe comparability of assessment methods if there is more than one group	28
Bias	9	Describe any efforts to address potential sources of bias	28
Study size	10	Explain how the study size was arrived at	NA
Quantitative variables	11	Explain how quantitative variables were handled in the analyses. If applicable, describe which groupings were chosen and why	NA
Statistical methods	12	(a) Describe all statistical methods, including those used to control for confounding	29
		(b) Describe any methods used to examine subgroups and interactions	29
		(c) Explain how missing data were addressed	29
		(d) If applicable, describe analytical methods taking account of sampling strategy	NA
		(e) Describe any sensitivity analyses	NA
Results			
Participants	13*	(a) Report numbers of individuals at each stage of study—eg numbers potentially eligible, examined for eligibility, confirmed eligible, included in the study, completing follow-up, and analysed	Fig 1
		(b) Give reasons for non-participation at each stage	Fig 1
		(c) Consider use of a flow diagram	Fig 1
Descriptive data	14*	(a) Give characteristics of study participants (eg demographic, clinical, social) and information on exposures and potential confounders	30, Table 1
		(b) Indicate number of participants with missing data for each variable of interest	Table 1
Outcome data	15*	Report numbers of outcome events or summary measures	30
Main results	16	(a) Give unadjusted estimates and, if applicable, confounder-adjusted estimates and their precision (eg, 95% confidence interval). Make clear which confounders were adjusted for and why they were included	NA
		(b) Report category boundaries when continuous variables were categorized	NA
		(c) If relevant, consider translating estimates of relative risk into	NA

		absolute risk for a meaningful time period	
Other analyses	17	Report other analyses done—eg analyses of subgroups and interactions, and sensitivity analyses	NA
Discussion			
Key results	18	Summarise key results with reference to study objectives	31-32
Limitations	19	Discuss limitations of the study, taking into account sources of potential bias or imprecision. Discuss both direction and magnitude of any potential bias	33
Interpretation	20	Give a cautious overall interpretation of results considering objectives, limitations, multiplicity of analyses, results from similar studies, and other relevant evidence	32-33
Generalisability	21	Discuss the generalisability (external validity) of the study results	32-33
Other information			
Funding	22	Give the source of funding and the role of the funders for the present study and, if applicable, for the original study on which the present article is based	22

IV- CONCLUSION GENERALE

L'étude que nous avons menée permet d'aborder la problématique du processus de TEA dans les malformations vasculaires superficielles et plus largement dans les pathologies chroniques rares.

De nombreuses perspectives semblent envisageables pour améliorer notre prise en charge. Tout d'abord, la mise en place de consultations dédiées à la TEA avec le médecin pédiatre, le patient, ses parents et le spécialiste qui suivra l'adolescent après la TEA en cas de changement d'équipe, permettrait de mettre le patient en confiance et d'éviter une rupture du suivi. La présence d'un coordinateur médical ou paramédical de la TEA dans les centres hospitaliers permettrait aussi aux patients et aux familles d'avoir un interlocuteur en cas de difficultés et de faire le lien entre l'équipe soignante pédiatrique et adulte, par exemple pour la planification des soins. Il est également essentiel qu'un suivi par un psychologue soit proposé aux adolescents pendant la TEA, la prise en charge psychologique étant jugée insuffisante par une grande majorité des patients dans notre étude. Enfin, la mise en place d'une application mobile dédiée aux patients en cours de TEA, ou encore la création d'une base de données partagée entre les professionnels de santé des services pédiatriques et adultes, déjà réalisée pour certaines pathologies complexes, constituent des alternatives pour améliorer la prise en charge et la continuité des soins.

Il serait également nécessaire de définir les critères d'une TEA satisfaisante, tant sur le plan médical que pour le patient, afin d'être capable d'évaluer ces interventions.

Enfin, la rédaction de recommandations générales ou par pathologies sur la TEA dans notre spécialité serait d'une grande aide pour les équipes soignantes. Cela permettrait d'homogénéiser les pratiques et de faciliter les transferts de patients dans d'autres centres à un

âge et à une période de vie où les patients sont fréquemment amenés à changer de régions pour leurs études ou leur vie professionnelle.

V- ANNEXES

Annexe 1 : Lettre d'information patient

Formulaire d'information aux participants – étude TSAR Lettre d'information pour la participation à une recherche non interventionnelle

Transition enfants-adulte : modalités et ressenti des patients suivis pour une malformation vasculaire superficielle

Étude du groupe de Recherche de la Société Française de Dermatologie Pédiatrique

Madame, Monsieur,

Nous vous proposons de participer à cette étude car vous êtes ou vous avez été suivi pour une malformation vasculaire superficielle. Les malformations vasculaires sont des maladies chroniques qui justifient habituellement d'un suivi régulier.

INFORMATIONS GÉNÉRALES SUR L'ÉTUDE

✎ La période de l'adolescence est une étape-clé dans le suivi des malformations vasculaires : modification possible du suivi durant une période où le ressenti et le vécu de la maladie peuvent être modifiés.

✎ Nous souhaitons étudier cette période de transition chez les patients suivis pour une malformation vasculaire superficielle. Pour cela, nous souhaitons recueillir les modalités de votre suivi durant l'adolescence et votre ressenti sur votre prise en charge.

✎ Par ailleurs, nous interrogerons également votre médecin référent pour évaluer si cette période a eu un impact sur votre maladie (augmentation du nombre de consultations et d'hospitalisations).

MODALITÉS DE L'ÉTUDE

✎ Vous n'aurez pas de visite ou d'examen supplémentaire lié à l'étude.

✎ **Vous devez simplement remplir le questionnaire fourni, puis le renvoyer par voie postale à l'adresse suivante (enveloppe affranchie fournie) :**

Dr Sophie LEDUCQ, Service de Dermatologie, Hôpital Trousseau CHRU Tours, Avenue de la République, 37044 Tours Cedex 9

PARTICIPATION VOLONTAIRE ET FACULTATIVE

✎ Votre participation est facultative. Si vous refusez, cela ne modifiera en rien votre prise en charge au sein du service. Les renseignements recueillis seront conservés sauf opposition de votre part.

✎ **Il n'y a ni bénéfice ni inconvénient pour vous à participer à l'étude.** Vos réponses nous permettront d'identifier les éventuelles faiblesses lors du passage de l'hôpital pédiatrique à l'hôpital adulte et nous aideront, nous espérons, à améliorer ce transfert dans le futur.

DISPOSITIONS LÉGISLATIVES ET RÉGLEMENTAIRES

✎ Dans le cadre de la recherche biomédicale à laquelle le CHU de Tours vous propose de participer, un traitement de vos données personnelles va être mis en œuvre pour permettre d'analyser les résultats de la recherche au regard de l'objectif de cette dernière qui vous a été présenté. A cette fin, les données médicales vous concernant et les données relatives à vos habitudes de vie seront transmises au promoteur de la recherche ou aux personnes agissant pour son compte, en France. **Ces données seront anonymisées et identifiées par les deux premières lettres de votre nom et les trois premières lettres de votre prénom.** Ces données pourront également, dans des conditions assurant leur confidentialité, être transmises aux autorités de santé françaises ou étrangères, à d'autres entités du CHU de Tours.

✎ Conformément aux dispositions de loi relatives à l'informatique aux fichiers et aux libertés, vous disposez d'un droit d'accès et de rectification. Vous disposez également d'un droit d'opposition à la transmission des données couvertes par le secret professionnel susceptibles d'être utilisées dans le cadre de cette recherche et d'être traitées. 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 L1111-7 du Code de la Santé Publique. Ces droits s'exercent auprès du médecin qui vous suit dans le cadre de la recherche et qui connaît votre identité.

Vous remerciant par avance de la confiance que vous nous témoignez, nous restons à votre disposition au 02.47.47.46.25 (secrétariat) ou par mail (sophie.leducq@univ-tours.fr) pour tout renseignement complémentaire concernant cette étude.

Pr Annabel MARUANI et Dr Sophie LEDUCQ, dermatologues, Unité de Dermatologie Pédiatrique, CHRU de Tours
Camille VERMERSCH, interne en Dermatologie, UFR de Médecine de Tours

Étude TSAR

Questionnaire médecins (CRF)

Un questionnaire par patient

Fiche complétée à adresser à :

Dr Sophie LEDUCQ, Service de Dermatologie, CHRU de Tours, 37044 Tours cedex 9.

Adresse mail : sophie.leducq@univ-tours.fr

Nom et Prénom du médecin référent du patient : Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.

Centre (ville) : Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.

☐ Site pédiatrique ☐ Site adulte ☐ Site mixte

Date de remplissage de la fiche : __/__/____

Identification du patient

Identifiant du patient : 2 premières lettres du nom - 3 premières lettres du prénom

__ - ___

Année de naissance : Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte. **Sexe :** ☐ Homme ☐ Femme

Données médicales concernant la malformation vasculaire
--

1) Type de malformation vasculaire

- ☐ Malformation veineuse simple
- ☐ Malformation lymphatique simple
- ☐ Malformation artério-veineuse simple
- ☐ Malformation combinée (capillaire/veineuse/lymphatique)
- ☐ Malformation syndromique

Préciser : Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.

☐ Ne sait pas

2) Localisation de la malformation vasculaire (plusieurs réponses possibles)

- ☐ Tête et cou/langue
- ☐ Tronc/zone glutéale
- ☐ Membre supérieur
- ☐ Membre inférieur
- ☐ Ne sait pas

3) Âge du diagnostic (années) : Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.

Si diagnostic à la naissance, mettre 0

4) Âge du début du suivi dans le centre (années) : Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.

Si diagnostic à la naissance, mettre 0

5) Suivi actuel du patient pour sa malformation vasculaire :

Date de la dernière consultation : __/__/____ Patient perdu de vue*: ☐ Oui ☐ Non

**un patient est considéré comme perdu de vue s'il n'existe pas de consultation dans l'hôpital, pour le suivi de sa malformation vasculaire, depuis au moins 3 ans*

6) Où était suivi le patient avant l'âge de 16 ans ?

- ☐ Site pédiatrique
- ☐ Site adulte
- ☐ Site mixte

7) Y a-t-il eu un changement de site au cours du suivi ? ☐ Oui ☐ Non **Si oui**, à quel âge (ou année) : _____

8) Si oui, modalités de transition pour ce patient :

- Courrier de transfert adressé au médecin du service adulte : ☐ Oui ☐ Non
- Suivi effectué par le même médecin dans les 2 sites : ☐ Oui ☐ Non

9) Traitement de la malformation (plusieurs réponses possibles) :

- ☐ Abstention thérapeutique
- ☐ Sclérothérapie/embolisation
- ☐ Traitement médicamenteux par voie générale. Si oui lequel (préciser uniquement le nom du traitement) :
- ☐ Traitement physique (contention, drainage, laser) : préciser
- ☐ Autres, préciser : Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.
- ☐ Ne sait pas

Données médicales concernant la puberté
--

1) Pour les femmes :

Date des premières règles (préciser l'année) _____ ☐ Ne sait pas

Date de poussée de croissance staturo-pondérale (préciser l'année) _____ ☐ Ne sait pas

2) Pour les hommes :

Date de poussée de croissance staturo-pondérale (préciser l'année) _____ ☐ Ne sait pas

3) Y a-t-il eu une accélération/poussée évolutive de la maladie au cours de la puberté (environ entre l'âge de 11 et 16 ans pour les filles et entre l'âge de 13 et 18 ans pour les garçons) :

☐ Oui ☐ Non ☐ Ne sait pas

Consommation de soins			
	[13-14] ans	[14-15] ans	[15-16] ans
1) Où était effectué le suivi ? (plusieurs réponses possibles)	Secteur ☐ pédiatrique ☐ adulte ☐ mixte Consultation ☐ simple ☐ multidisciplinaire ☐ Ne sait pas	Secteur ☐ pédiatrique ☐ adulte ☐ mixte Consultation ☐ simple ☐ multidisciplinaire ☐ Ne sait pas	Secteur ☐ pédiatrique ☐ adulte ☐ mixte Consultation ☐ simple ☐ multidisciplinaire ☐ Ne sait pas
2) Nombre de consultations <u>programmées</u> pour la malformation	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.
3) Nombre de passages au service des urgences	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.
4) Nombre d'hospitalisations <u>programmées</u> en lien avec la malformation	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.
5) Nombre d'hospitalisations <u>non programmées</u> en lien avec la malformation	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.

	[16-17] ans	17-18] ans	18-19] ans
1) Où était effectué le suivi ? (plusieurs réponses possibles)	Secteur ☐ pédiatrique ☐ adulte ☐ mixte Consultation ☐ simple ☐ multidisciplinaire ☐ Ne sait pas	Secteur ☐ pédiatrique ☐ adulte ☐ mixte Consultation ☐ simple ☐ multidisciplinaire ☐ Ne sait pas	Secteur ☐ pédiatrique ☐ adulte ☐ mixte Consultation ☐ simple ☐ multidisciplinaire ☐ Ne sait pas
2) Nombre de consultations <u>programmées</u> pour la malformation	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.
3) Nombre de passages au service des urgences	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.
4) Nombre d'hospitalisations <u>programmées</u> en lien avec la malformation	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.
5) Nombre d'hospitalisations <u>non programmées</u> en lien avec la malformation	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.	Cliquez ou appuyez ici pour entrer du texte.

Étude TSAR
Questionnaire à destination des participants

Coordonnées pour le renvoi des questionnaires :

*Dr Sophie LEDUCQ, Service de Dermatologie, Hôpital Trousseau CHRU Tours, Avenue de la République,
37044 Tours Cedex 9, mail = sophie.leducq@univ-tours.fr - Tel 02.47.47.46.25 (secrétariat)*

Partie A. Données socio-professionnelles

Deux premières lettres de votre nom : _ _ **Trois premières lettres de votre prénom : _ _ _**

Votre année de naissance : _____ **Vous êtes :** ☐ une femme ☐ un homme

1) Dans quel hôpital êtes-vous maintenant suivi ? _____
☐ Non suivi(e) ☐ Suivi(e) en ville

2) Dans quel hôpital étiez vous suivi avant l'âge de 16 ans ? _____

3) Quelle est votre situation professionnelle actuelle ?

- ☐ Lycéen
- ☐ Étudiant
- ☐ Travailleur à plein temps
- ☐ Travailleur à temps partiel
- ☐ Chômeur ☐ Sans profession
- ☐ En invalidité

4) Quel est votre niveau d'étude ?

- ☐ CAP ou BEP
- ☐ Baccalauréat général, technologique ou professionnel
- ☐ Diplômes de niveau Bac plus 2
- ☐ Diplômes de second ou troisième cycle universitaire

5) Avez-vous dû quitter votre ville pour vos études ? ☐ Oui ☐ Non

Si oui, à quel âge (année) ? _____

6) Quel est votre statut marital ?

- ☐ Célibataire
- ☐ En concubinage
- ☐ Marié(e)
- ☐ Pacsé(e)
- ☐ Divorcé(e)
- ☐ Veuf (veuve)

Partie B. Données sur la période de l'adolescence (*consultez le carnet de santé pour vous aider*)

1) Pour les femmes :

Date des premières règles (préciser l'année) _____ ☐ Ne sait pas

Date de poussée de croissance (préciser l'année) _____ ☐ Ne sait pas

2) Pour les hommes :

Date de poussée de croissance (préciser l'année) _____ ☐ Ne sait pas

3) Pendant votre adolescence (11-16 ans pour les filles, 13-18 pour les garçons), avez-vous vécu une évolution plus rapide (aggravation) de votre malformation ? ☐ Oui ☐ Non ☐ Ne sait pas

Si oui, était-ce : ☐ une augmentation de volume ☐ Des poussées douloureuses plus fréquentes

4) Pendant l'adolescence, vous êtes-vous senti(e) gêné(e) ou complexé(e) par votre maladie ?

☐ Oui tout à fait

☐ Non pas vraiment

☐ Oui plutôt

☐ Non pas du tout

5) Pendant l'adolescence, avez-vous eu envie d'arrêter le suivi car trop contraignant ?

☐ Oui tout à fait

☐ Non pas vraiment

☐ Oui plutôt

☐ Non pas du tout

6) Avez-vous été suivi(e) par un psychologue, un psychiatre ou un sophrologue pendant cette période ?

☐ Oui ☐ Non ☐ Ne sait pas

7) Actuellement : vous sentez-vous gêné(e) ou complexé(e) par votre maladie ?

☐ Oui tout à fait

☐ Non pas vraiment

☐ Oui plutôt

☐ Non pas du tout

Partie C. Suivi actuel

1) Êtes-vous suivi(e) dans un hôpital actuellement pour votre malformation vasculaire ?

☐ Oui ☐ Non

Si vous avez répondu oui, merci d'aller directement à la question 4.

Si vous avez répondu non, répondre uniquement aux questions 2 et 3.

2) Si vous n'êtes plus suivi(e) dans un hôpital pour votre malformation vasculaire, pour quel motif ?

☐ Mon médecin m'a dit que ce n'était plus nécessaire

☐ Je n'ai pas trouvé de médecin pour mon suivi

☐ Je ne souhaite plus être suivi(e)

☐ Autre :

3) Si vous n'êtes plus suivi(e), depuis quel âge (en années) ? _____

4) Par qui êtes-vous suivi(e) pour votre malformation ?

☐ Médecin de ville ☐ Médecin hospitalier

5) Êtes-vous suivi(e) parfois en consultation pluridisciplinaire (consultation avec au moins 2 médecins de 2 spécialités différentes) ? ☐ Oui ☐ Non ☐ Ne sait pas

6) Êtes-vous suivi(e) dans un secteur pédiatrique ou dans un secteur adulte ?

☐ Je suis suivi(e) dans un secteur pédiatrique

☐ Je suis suivi(e) dans un secteur adulte

☐ Je suis suivi(e) dans un secteur mixte

Si vous avez répondu « Je suis suivi(e) dans un hôpital adulte » merci de ne pas répondre à la question 7.

7) Si vous êtes toujours suivi(e) dans un secteur pédiatrique, pour quel motif ?

☐ Suivi poursuivi en pédiatrie à ma demande

☐ Suivi poursuivi en pédiatrie à la demande de mon médecin

☐ Suivi dans un secteur adulte non évoqué par mon médecin

☐ Absence de médecin dans le secteur adulte suivant des patients atteints de ma maladie

☐ Autre :

☐ Ne sait pas

Partie D. Passage du secteur pédiatrique au secteur adulte

1) Au cours de votre suivi, avez-vous changé du secteur pédiatrique au secteur adulte?

☐ Oui ☐ Non ☐ Les 2 secteurs sont communs

Si oui, à quel âge (en années) ? _____

Si oui, selon vous, votre passage du secteur pédiatrique au secteur adulte s'est fait :

2) Êtes-vous satisfait de votre prise en charge durant l'adolescence (entre 16 et 19 ans environ)?

____ / 10

Note entre 0 et 10, 0 = pas du tout satisfait, 10 = très satisfait

3) Avez-vous eu l'impression qu'il y a eu un changement de votre prise en charge ?

☐ Oui tout à fait ☐ Oui plutôt ☐ Non pas vraiment ☐ Non pas du tout

4) Pensez-vous que les consultations de suivi au cours de l'adolescence (entre 16 et 19 ans) étaient trop fréquentes ?

☐ Oui, trop fréquentes

☐ Non, le rythme des consultations était adapté

☐ Non, au contraire, les consultations n'étaient pas assez fréquentes

☐ Ne sait pas

Si oui, quelle(s) était(étaient) la ou les raison(s) ?

☐ La maladie était stable

☐ On ne me proposait pas de nouveau médicament

☐ Je ne souhaitais pas voir de médecin

☐ Je ne me préoccupais pas de la maladie

☐ Autre :

Partie E. Ressenti sur le suivi au cours de l'adolescence

Nous vous interrogeons ici sur votre ressenti sur votre suivi durant la période de l'adolescence.

	De l'âge de 13 ans à 16 ans	De l'âge de 16 ans à 19 ans
1) Aviez-vous l'impression que votre médecin vous consacrait assez de temps ? <i>Note entre 0 et 10</i> <i>0 = pas du tout, 10 = oui complètement</i>	___ / 10	___ / 10
2) Avez-vous l'impression que votre médecin coordonnait les soins ? <i>Note entre 0 et 10</i> <i>0 = pas du tout, 10 = oui complètement</i>	___ / 10	___ / 10
3) Quelle est votre satisfaction sur votre prise en charge ? <i>Note entre 0 et 10</i> <i>0 = pas du tout satisfait, 10 = oui complètement satisfait</i>	___ / 10	___ / 10
4) Avez-vous l'impression que votre médecin vous aidait à vous autonomiser ? <i>Note entre 0 et 10</i> <i>0 = pas du tout, 10 = oui complètement</i>	___ / 10	___ / 10
5) Comment évaluez-vous votre prise en charge psychologique ? <i>Note entre 0 et 10</i> <i>0 = pas du tout, 10 = oui complètement</i>	___ / 10	___ / 10
6) Le rythme des consultations était :	☐ Trop fréquent ☐ Adapté ☐ Trop espacé ☐ Ne sait pas	☐ Trop fréquent ☐ Adapté ☐ Trop espacé ☐ Ne sait pas

Commentaires libres (vous pouvez exprimer votre ressenti) :

Étude TSAR

Questionnaire médecins (CRF)

Un questionnaire par centre

Fiche complétée à adresser à :

Dr Sophie LEDUCQ, Service de Dermatologie, CHRU de Tours, 37044 Tours cedex 9.

Adresse mail : sophie.leducq@univ-tours.fr

Modalités de transition dans votre centre
--

1) Existe-t-il un professionnel de santé coordinateur de la transition auquel les adolescents peuvent se référer en cas de difficulté (par exemple une infirmière) ?

☐ Oui ☐ Non ☐ Ne sait pas

2) Existe-t-il des groupes de soutien ou des ateliers d'éducation thérapeutique pour les adolescents ou les adultes suivis pour malformation vasculaire ?

☐ Oui ☐ Non ☐ Ne sait pas

3) Le service de pédiatrie et le service adulte pour le suivi des malformations vasculaires sont-ils dans le même hôpital ?

☐ Oui ☐ Non ☐ Ne sait pas

4) L'équipe médicale est-elle la même dans le service de pédiatrie et le service adulte ?

☐ Oui ☐ Non ☐ Ne sait pas

5) Qui choisit le médecin qui se chargera du suivi des patients à l'âge adulte ?

☐ Vous

☐ Le pédiatre

☐ Le médecin généraliste

☐ Le patient

☐ La famille

☐ Autre :

6) Comment se passe la transition dans votre centre ?

Commentaire libre :

Vu, le Directeur de Thèse

**Vu, le Doyen
De la Faculté de Médecine de Tours
Tours, le**

Camille VERMERSCH

Nombre de pages : 62

Tableaux : 5

Figures : 2

Graphiques : 0

Résumé :

Les malformations vasculaires superficielles (MVS) sont des pathologies congénitales chroniques nécessitant un suivi au long cours. L'adolescence est une période marquée par des transformations multiples, pouvant induire des modifications psychologiques et somatiques comme un rejet des soins médicaux chez certains sujets, ou une aggravation de certaines MVS du fait de modifications hormonales. Cette période charnière est appelée période de « transition enfant-adulte » (TEA).

Les objectifs de cette étude ont été d'évaluer le nombre de patients atteints de MVS perdus de vue au décours de la TEA, d'évaluer la consommation de soins pendant la TEA, les modalités de TEA et le ressenti des patients sur la prise en charge durant cette période.

Nous avons mené une étude observationnelle multicentrique dans 7 centres en France spécialisés dans la prise en charge des MVS, entre Janvier et Juin 2020. Les patients âgés de 19 à 25 ans avec une MVS ayant eu au moins une consultation hospitalière avant l'âge de 16 ans ont été inclus. Des données démographiques, médicales sur la MVS et sur la puberté ont été recueillies. Un questionnaire a été envoyé à chaque patient.

Quatre-vingt-dix patients ont été inclus, parmi lesquels 41 (45,6 %) étaient perdus de vue à l'âge adulte. L'âge au diagnostic était significativement plus élevé chez les patients perdus de vue. Vingt-trois patients ont changé de site (site pédiatrique à site adulte) au cours du suivi, ce qui n'était pas associé au risque de perdus de vue. La consommation de soins d'augmentait pas pendant la TEA. Quarante-sept patients (52,2%) ont répondu au questionnaire envoyé sur le ressenti. Vingt patients (42,5%) étaient très gênés par leur MVS pendant l'adolescence. Le score de satisfaction concernant leur suivi médical était satisfaisant, excepté pour l'aide psychologique, où seulement 5 patients avaient bénéficié d'un suivi psychologique spécifique. Un diagnostic précoce, un suivi psychologique et des consultations régulières pourraient contribuer à limiter le nombre de patients perdus de vue au moment de la TEA.

Mots clés : Transition enfants-adulte, pédiatrie, malformation vasculaire, questionnaire, satisfaction du patient, perdu de vue, consommation de soins.

Jury :

Président du Jury : Professeur Annabel MARUANI

Directeur de thèse : Docteur Sophie LEDUCQ

Membres du Jury : Professeur Denis HERBRETEAU

Professeur François MAILLOT

Docteur Olivia BOCCARA

Docteur Hélène CORNILLIER

Date de soutenance : 16 Octobre 2020