



HAL
open science

Les troubles de la perception du corps dans le Syndrome Douloureux Régional Complexe

Sessi Acapo

► **To cite this version:**

Sessi Acapo. Les troubles de la perception du corps dans le Syndrome Douloureux Régional Complexe. Médecine humaine et pathologie. Nantes Université, 2023. Français. NNT : 2023NANU1036 . tel-04583067

HAL Id: tel-04583067

<https://theses.hal.science/tel-04583067>

Submitted on 22 May 2024

HAL is a multi-disciplinary open access archive for the deposit and dissemination of scientific research documents, whether they are published or not. The documents may come from teaching and research institutions in France or abroad, or from public or private research centers.

L'archive ouverte pluridisciplinaire **HAL**, est destinée au dépôt et à la diffusion de documents scientifiques de niveau recherche, publiés ou non, émanant des établissements d'enseignement et de recherche français ou étrangers, des laboratoires publics ou privés.



THESE DE DOCTORAT

NANTES UNIVERSITE

ECOLE DOCTORALE N° 605

Biologie-Santé

Spécialité : « *Neurosciences, Ethologie* »

Par

Sessi ACAPO

« Les troubles de la perception du corps dans le Syndrome Douloureux Régional Complexe »

Thèse présentée et soutenue à Nantes, le 04/12/2023

Unité de recherche : EA4391 Excitabilité Nerveuse et Thérapeutique, Université Paris-Est Créteil Val de Marne, Créteil

Rapporteurs avant soutenance :

Pascal GIRAUX, Professeur des Universités – Praticien Hospitalier ; Université Jean Monnet, Saint -Etienne
Sophie BAUDIC, Ingénieur de Recherche – Université Versailles Saint Quentin – Paris Saclay – INSERM U987

Composition du Jury :

Président : Alexandra ROSEN Professeur des Universités – Université Paris Cité
Examineurs : Maxime BILLOT Ingénieur de Recherche – Centre Hospitalier De Poitiers

Dir. de thèse : Julien NIZARD Professeur des Universités – Praticien Hospitalier – EA4391 Excitabilité Nerveuse et Thérapeutique, Centre Hospitalier Universitaire de Nantes

Co-dir. de thèse : Arnaud DUPEYRON Professeur des Universités – Praticien Hospitalier – Centre Hospitalier Universitaire de Nîmes, Nîmes-Montpellier

Remerciements

Je tiens à remercier et exprimer ma gratitude envers les nombreuses personnes qui m'ont accompagnée tout au long de ce projet.

Merci à Monsieur le Professeur **Julien NIZARD**, directeur de thèse, pour sa confiance et son enthousiasme pour le projet. S'engager auprès d'une kinésithérapeute exerçant en libéral ayant un projet de recherche était audacieux. Merci pour cette opportunité, votre encadrement précieux, votre disponibilité et votre bienveillance. Chaque réunion m'a vue sortir enthousiaste et motivée.

Merci à monsieur le Professeur **Arnaud DUPEYRON**, co-directeur de thèse, pour son entrain, son optimisme et son implication, même à l'autre bout de la France. Votre réactivité pour résoudre des situations coincées et votre créativité nous ont fait avancer grandement. Merci pour votre expertise et soutien.

Messieurs les Professeurs, je suis consciente d'avoir eu la chance de bénéficier de votre encadrement et vous suis reconnaissante. J'espère que nous poursuivrons notre travail ensemble dans le futur.

Merci aux praticiens de l'Unité de Recherche Clinique de m'avoir accueillie lors des cafés recherche et d'avoir commenté et ainsi aidé le projet. Votre collaboration a été bénéfique.

Un merci particulier à Dr **Thomas RULLEAU**, membre du Comité de Suivi de Thèse, pour son aide conceptuelle, sa relecture scientifique et son soutien sans faille. Votre fiabilité, force de travail et rigueur forcent mon respect.

Merci à Professeur **Pascal DERKINDEREN**, membre du Comité de Suivi de Thèse pour sa disponibilité et ses conseils.

Merci à Dr **Thomas OSINSKI** pour sa participation, son aide, son expertise et son temps de travail. Avoir un tel ami en soutien est précieux.

Merci à mes collègues (**Carl, Claire, Jonathan, Méline**) pour leur adaptabilité et pour leur compréhension quand mes priorités m'ont éloignée du cabinet.

Merci à ma famille pour leur aide et leur soutien, ma mère **Jeanne MIRAILH** pour l'écoute, la relecture et le temps passé avec les enfants ainsi que ma sœur **Sica ACAPO** pour son anglais impeccable et sa motivation.

Un immense merci à mon compagnon **Damien HRYNKOW** de m'avoir soutenue et supportée dans ce projet, qui a la forme d'un projet de vie commun. Ta patience ne sera pas oubliée. Merci à mes enfants, **Simon** et **Elsa**, nés pendant cette période et qui m'ont centrée.

Un merci à la Société Française de Physiothérapie et aux membres de la commission projet. La bourse reçue dans le cadre de l'appel à projet 2022 a été une reconnaissance appréciée.

Aux membres du jury, un grand merci et ma gratitude de m'accorder votre expertise et votre temps, valeur précieuse.

Monsieur le Professeur **Pascal GIRAUX** et Madame le Docteur **Sophie BAUDIC**, merci de m'avoir fait l'honneur d'être rapporteurs de cette thèse.

Madame le Professeur **Alexandra ROREN** et Monsieur le Docteur **Maxime BILLOT**, Merci de me faire l'honneur d'avoir accepté de juger ce travail de thèse. Merci à Alexandra d'avoir accepté la présidence du jury. C'est un privilège de partager ce travail avec vous.

Enfin, un grand merci aux patients avec qui j'ai eu et j'ai la chance de travailler, pour leur confiance, leur aide et leur patience à transmettre l'expérience singulière de leur situation.

Liste des abréviations

SDRC : Syndrome Douloureux Régional Complexe

SNC : Système Nerveux Central

SNA : Système Nerveux Autonome

TPC : troubles de la perception du corps

IASP : International Association for the Study of Pain

IMG : Imagerie Motrice Graduelle

LLRT : Limb Laterality Recognition Test – tâche de jugement de latéralité

VSA : Visual straight ahead judgments

MSA : Manual straight ahead

TOJ : Temporal Order Judgment Task

Liste des figures

Figure 1 : Critères de Budapest

Figure 2 : Présentation clinique typique d'un patient atteint de Syndrome Douloureux Régional Complexe

Figure 3 : Mécanismes impliqués dans le Syndrome Douloureux Régional Complexe

Figure 4 : Modèle spéculatif des mécanismes impliqués dans le développement du Syndrome Douloureux Régional Complexe

Figure 5 : Les 4 piliers du traitement du Syndrome Douloureux Régional Complexe – une approche interdisciplinaire intégrative

Figure 6 : Approches thérapeutiques dans le traitement du SDRC

Figure 7 : étapes de l'Imagerie Motrice Graduelle

Figure 8 : illustration de la thérapie miroir

Figure 9 : exemple de modalité d'entraînement sensoriel

Figure 10 : modèle sériel des interactions entre schéma corporel et image du corps

Figure 11 : Illustration de la Rubber Hand Illusion

Figure 12 : Neurobehavioral Questionnaire

Figure 13 : images utilisées lors de la tâche de latéralité

Figure 14 : moyenne des temps de réaction lors d'une tâche de latéralité

Figure 15 : Exemples de dessins et des descriptions verbales de sujets atteints de SDRC visualisant leur corps les yeux fermés

Figure 16 : exemple de modification de l'aspect de la main atteinte par réalité virtuelle

Figure 17 : matériel utilisé pour le test de discrimination 2 points

Figure 18 : dispositif de tâche de jugement d'ordre

Figure 19 : montage expérimental de finger tapping

Avant -propos

Kinésithérapeute depuis 2009, ma pratique clinique a été très vite tournée vers les prises en charges musculosquelettiques. La rencontre avec les patients a tout de suite suscité des interrogations et perplexité d'une jeune diplômée face à leurs douleurs persistantes, changeantes et imprévisibles. Ceci m'a entraîné dans un parcours de formation qui se poursuit par ce travail de thèse. Entre les formations continues et le parcours universitaire avec deux masters (en biomécanique et recherche clinique), mes réflexions ont toujours été nourries par ma pratique clinique en libéral, que j'ai toujours poursuivie en même temps. C'est encore la rencontre avec une patiente très particulière et le travail en commun avec un confrère, Thomas Osinski, qui a initié ma plongée dans le monde du Syndrome Dououreux Régional Complexe et des troubles de la perception du corps.

Réalisé sous l'expertise de mes directeurs de thèse, le travail présenté ici est le fruit de la collaboration avec différents acteurs, cliniciens, chercheurs. Effectué sur un temps long pour me permettre de poursuivre mon travail au cabinet, ce travail est une étape vers un projet à long terme de travail alliant recherche et travail en cabinet.

Table des matières

Remerciements	2
Liste des abréviations	3
Liste des figures	3
Avant -propos	4
INTRODUCTION	6
LE SYNDROME DOULOUREUX REGIONAL COMPLEXE.....	7
Définition & historique	7
Epidémiologie.....	9
Facteurs de risque	12
Impact économique	13
Evolution	13
Diagnostic.....	15
Description clinique de la pathologie	18
Physiopathologie	22
Traitement.....	32
LA PERCEPTION DU CORPS	39
Le schéma corporel (Body schema).....	42
L'image du corps (body image).....	43
LES TROUBLES DE LA PERCEPTION DU CORPS DANS LE SDRC	45
Caractérisation des troubles de la perception du corps dans le SDRC	49
Etude 1 : revue systématique	62
Etude 2 : traduction, adaptation transculturelle et validation de l'échelle de Bath en français	76
DISCUSSION GENERALE	86
Conclusion.....	97
Références.....	98
Liste des travaux.....	127
Annexes.....	129

INTRODUCTION

Connu depuis des siècles, le Syndrome Douloureux Régional Complexe (SDRC) est une pathologie atteignant l'extrémité d'un membre, généralement après un traumatisme ou une chirurgie (Harden et al., 2022). Sa physiopathologie est encore mal comprise. Les hypothèses actuelles mettent en avant une origine multifactorielle centrale et périphérique, faisant intervenir entre autres, une réponse inflammatoire et immunitaire exagérée, une dérégulation du système nerveux autonome et des changements centraux (Bruehl, 2015). Le SDRC est caractérisé par une douleur disproportionnée par rapport à l'événement déclencheur. La douleur est accompagnée d'une multitude de symptômes, comme des changements vasomoteurs (couleur et température du membre), des changements sudomoteurs (transpiration et œdème) et des troubles moteurs (raideur, faiblesse, tremblements) (Goebel et al., 2021). Il est caractérisé par l'intensité, le caractère fluctuant voire imprévisible des symptômes et leur grande variabilité d'une personne à une autre (Harden et al., 2010).

Depuis les années 90, d'autres symptômes sont apparus dans la littérature : les troubles de la perception du corps. D'abord observés puis décrits à l'aide de méthodes qualitatives, ces troubles ont ensuite été caractérisés, notamment par des évaluations neuropsychologiques et sensorielles. Regroupés dans un premier temps sous le terme « syndrome de pseudo-négligence » (B. Galer et al., 1995), ils sont retrouvés à l'heure actuelle sous la dénomination de troubles de la perception du corps (Lewis et al., 2007). Ils font désormais partie de la description typique de la pathologie (Birklein et al., 2018). Les patients atteints de SDRC rapportent fréquemment des difficultés à savoir dans quelle position est leur membre atteint sans le regarder, la sensation qu'il n'appartient pas à leur corps ou qu'il est plus gros alors qu'un observateur externe ne le verra pas. A l'instar des autres symptômes et signes cliniques, ces troubles perceptifs sont hétérogènes. Ils englobent à la fois des modifications des représentations sensorimotrices (par exemple, concernant la forme du membre) et de la perception consciente du membre (par exemple du dégoût). Ceci correspondrait à des altérations du schéma corporel et de l'image du corps (Lewis & Schweinhardt, 2012) et serait en rapport avec une altération de la représentation corticale du membre (Maihofner et al., 2003; Marinus et al., 2011; Peltz et al., 2011).

En France et dans le monde, la prise en charge thérapeutique des patients atteints de SDRC est difficile, en particulier pour les sujets développant des formes chroniques pouvant durer plusieurs années. Les rééducateurs, dont les kinésithérapeutes, sont en première ligne de ce traitement (Goebel et al., 2019). Les hypothèses physiopathologiques et les symptômes permettent de guider le traitement. Dans ce sens, l'attention s'est largement portée vers le

système nerveux central (SNC) et ses modifications (Birklein & Dimova, 2017). Les troubles de la perception du corps sont devenus une cible thérapeutique à part entière. Ceci requiert leur caractérisation et leur évaluation de façon fiable.

Ce travail de doctorat a pour objectif de déterminer comment évaluer les troubles de la perception du corps dans le SDRC et de fournir un outil en français. Après une présentation des données actuelles sur le SDRC et les troubles de la perception du corps, cet écrit présentera les travaux réalisés : une revue systématique de la littérature sur les outils d'évaluation ainsi que la traduction, adaptation et validation en français de l'échelle de Bath, outil le plus performant. Enfin, des perspectives de traitement et de projets de recherche seront présentées.

LE SYNDROME DOULOUREUX REGIONAL COMPLEXE

Définition & historique

L'histoire du Syndrome Dououreux Régional Complexe (SDRC) ou Complex Régional Pain Syndrome (CRPS) traverse les époques et les différentes guerres.

Dès 1557, le chirurgien Ambroise Paré a observé des douleurs persistantes après blessures aux nerfs de soldats, avec des brûlures, contractures et raideurs articulaires (Stanton-Hicks, 2019). La pathologie a ensuite été très explorée à partir de la fin du XIXème siècle. En 1851, Claude Bernard a décrit des douleurs liées au système nerveux sympathique (R. N. Harden et al., 2013) qui ressemblent à notre SDRC actuel.

La description la plus célèbre est celle de la causalgie par Silas Weir Mitchell (élève de Bernard) d'après ses observations de blessures nerveuses par armes à feu pendant la guerre civile américaine. Il met l'accent sur les symptômes douloureux de brûlure et des changements de la peau à distance de la blessure nerveuse dans son livre « *Gunshot wounds and other injuries of nerves* » et « *Injuries of nerves and their consequences* » publié en 1872 (Iolascon, 2015).

Paul Sudeck identifie en 1900, grâce à l'émergence de la radiographie, une atrophie osseuse sévère, rapide et douloureuse après un traumatisme avec une origine inflammatoire. Ce sera la maladie de Sudeck ou atrophie de Sudeck. En 1917, le chirurgien René Leriche pratique la première sympathectomie chirurgicale sur un patient atteint de douleurs chroniques avec engourdissement à la main et décrit une résolution complète des symptômes en deux semaines (Iolascon, 2015). Il propose alors le terme *sympathetic neuritis* (névrite

sympathique), qui met en avant son hypothèse du rôle fondamental du système nerveux autonome dans le développement de la douleur.

En 1946, après la 2^{ème} guerre mondiale et ses observations cliniques de terrain, James A. Evans propose le nom Dystrophie Réflexe Sympathique (Reflex Sympathetic Dystrophy, RSD) (R. N. Harden et al., 2013; Iolascon, 2015). Ce terme a été employé pour englober les différentes présentations cliniques douloureuses avec l'hypothèse que l'augmentation de l'activité du système nerveux sympathique soit impliquée dans l'activité anormale de la périphérie (Stanton-Hicks et al., 1995).

Dans les années 50, John Bonica propose une évolution par phases du RSD, basée sur son expérience clinique (Bruehl et al., 2002). La phase aiguë (du moment du traumatisme à 3 mois) est caractérisée par la présence d'œdème, de chaleur, de limitation de mouvement et de faiblesse. Les radiographies sont normales mais la scintigraphie montre une hyper-accumulation. La phase dystrophique correspond à une phase de douleur sévère avec des changements de la peau et des poils et des limitations articulaires. La phase atrophique est caractérisée par une réduction de la douleur, qui devient mécanique. La peau est atrophique, fine, sèche, bleue. Les changements moteurs sont plus importants, avec de la raideur, faiblesse musculaire, contractures, tremblements et dystonie éventuelle.

Le terme RSD restera populaire dans le monde anglo-saxon. Les dizaines de noms connus pour ce syndrome, leurs apparitions au cours de l'histoire en lien avec les hypothèses avancées et les avancées médico-chirurgicales indiquent bien la complexité de sa physiopathologie et des difficultés de classification. En France, les termes algodystrophie et algoneurodystrophie ont été les plus répandus.

Cependant, plusieurs difficultés ont émergé autour de ces différentes classifications et de leurs significations. Seul un nombre limité de patients correspondait aux traitements proposés à partir d'une hypothèse physiopathologique dominante, par exemple avec le traitement par bloc sympathique (Stanton-Hicks et al., 1995). Devant cette situation, l'International Association for the Study of Pain (IASP, fondée en 1973) a organisé des conférences de consensus afin d'adopter une taxonomie et des définitions standardisées. La première s'est déroulée à Schloss Rettershof (Allemagne) en 1988 puis à Orlando (Floride, Etats-Unis) en 1994.

Si la première conférence de consensus a permis d'admettre une description formelle du RSD, elle ne proposait pas de critères diagnostiques clairs (R. N. Harden et al., 2010). Lors de la conférence d'Orlando en 1994, le nom officiel *Complex Regional Pain Syndrome* a été adopté, mettant l'accent sur le fait que la douleur est le symptôme clinique le plus important et que la distribution des symptômes est localisée à l'extrémité d'un membre. La physiopathologie n'est donc plus mise en avant dans le nom de la pathologie. Les critères diagnostiques, dits de

l'IASP, ainsi que la distinction entre les types I (après un traumatisme) et le type II (après lésions nerveuses, correspondant à la causalgie) ont également été décrits à cette occasion. Ceci nous emmène à la définition officielle de l'OMS (ICD-11) (World Health Organization (WHO), 2019), révisée en janvier 2023. Le SDRC est désormais considéré comme une douleur chronique primaire (chronic primary pain) comme proposé par le groupe d'expert réuni lors de la conférence de Valence (Goebel et al., 2021) et non plus comme un trouble autonome focal ou segmentaire (focal or segmental autonomic disorder).

Le syndrome douloureux régional complexe (SDRC) est une affection douloureuse chronique dans une extrémité dont l'évolution varie au cours du temps. Il est caractérisé par une douleur régionale continue (non localisée dans un territoire nerveux ou dermatome spécifique), avec habituellement une prédominance distale ou un gradient distal-proximal. Il apparaît typiquement après un traumatisme des tissus et semble d'amplitude ou de durée disproportionnée par rapport à l'évolution habituelle de la douleur après ce type de traumatisme tissulaire. Le SDRC se caractérise par des signes indiquant des changements autonomes et neuro-inflammatoires dans la zone corporelle affectée et varie d'un patient à l'autre ainsi que dans le temps. Le SDRC s'accompagne fréquemment d'une détresse émotionnelle importante ou d'un handicap fonctionnel. Le SDRC est multifactoriel.

International Classification of Diseases, Eleventh Revision (ICD-11) - World Health Organization (WHO) - MG30.04 Complex regional pain syndrome
<https://icd.who.int/browse11/l-m/fr#/http://id.who.int/icd/entity/1834504950>

Ce bref aperçu historique pointe les évolutions successives, émaillées d'échecs thérapeutiques, qui ont menées à la compréhension actuelle de la pathologie, avec sa physiopathologie et les traitements en découlant.

Epidémiologie

Il existe peu d'études concernant l'épidémiologie du SDRC dans le monde et pas de données concernant la population française. Les données présentées seront les suivantes : l'incidence (nombre de nouveaux cas apparus pendant une année), la prévalence (nombre total de personnes atteintes par un SDRC) ou leurs taux associés (exprimés pour 100 000 personnes).

Afin d'obtenir des données de qualité, les études (prospectives ou rétrospectives) doivent inclure une large population ce qui est rendu difficile à cause de la rareté du syndrome, des difficultés à le diagnostiquer et de l'introduction relativement récente de critères diagnostics consensuels (voir plus loin). Deux études restent les références les plus largement retrouvées dans la littérature.

L'étude de Sandroni et al. (2003), est la première basée sur la population d'une ville des Etats-Unis et est représentative de la population blanche de ce pays sur une période de 10 ans (1989-1999). Cette étude rétrospective a utilisé les critères de l'IASP. Une « surprise » des résultats est le fort taux de résolution spontanée des symptômes (74% en 1 an), la plus forte fréquence d'occurrence au membre supérieur (2 fois plus qu'au membre inférieur) et chez les femmes (4 :1). Le taux d'incidence retrouvé est de 5.46 pour 100 000 personnes par an, le taux de prévalence de 20.57/100 000 habitants/an. Les auteurs ont fait le choix d'exclure les patients dont le diagnostic médical était noté, mais dont le dossier ne faisait pas état de symptômes spécifiques.

L'étude de de Mos et al. (2007) s'est déroulée aux Pays-Bas (1996-2005). Cette étude rétrospective retrouve un taux d'incidence de 26.2 pour 100 000 personnes par an, en utilisant les critères de Bruehl (qui deviendront les critères de Budapest). Nous pouvons noter que les auteurs ont retenu les cas confirmés par le médecin généraliste ou le spécialiste. Les critères diagnostics ont seulement été appliqués sur une partie de l'échantillon dont les données étaient disponibles. Ici également, les femmes sont plus touchées que les hommes (3,4 :1) et les extrémités des membres supérieurs plus que les extrémités des membres inférieurs (59,2% vs 39,1%).

A l'heure actuelle, les chiffres retenus habituellement sont un taux d'incidence compris entre 5,5 et 26/100 000 personnes. Ces deux extrêmes reflètent les différences et difficultés méthodologiques, une étude est considérée comme sous estimant l'incidence, l'autre ayant des critères moins restrictifs. La représentativité limitée des échantillons est également soulignée.

Concernant le membre supérieur, Rolls et al. (2020) ont conduit une revue systématique sur l'incidence quatre mois après une fracture du poignet. En sélectionnant les études utilisant les critères de Budapest, ils retrouvent une incidence après fracture du poignet comprise entre 3.7 et 14% (13,63% pour l'étude la plus récente (Lorente et al., 2023)). Il faut noter que les études rapportant les taux d'incidence les plus hauts ont suivi les patients précocement après la fracture et que certaines études excluent les fractures comminutives (Jellad et al., 2014). Pour le membre inférieur, une étude rapporte une incidence de 4,36% après fracture du pied ou de la cheville traitée chirurgicalement (Rewhorn et al., 2014).

La prévalence est également non consensuelle. La prévalence habituellement retenue est estimée entre 3 et 5% après fracture de l'extrémité distale du radius (Birklein et al., 2015).

Le SDRC de type I est largement plus fréquent (88%) que le type II, avec des différences suivant les études (Ott & Maihöfner, 2018; Sandroni et al., 2003).

Le SDRC peut survenir à n'importe quel âge mais se développe plutôt autour des groupes d'âge 50-59 ans et 60-69 ans (52,7 ans en moyenne pour de Mos et al (2007) et 46 ans pour Sandroni et al (2003)). Les femmes sont plus touchées que les hommes (ratio 3.4 à 4 :1) (Elsharydah et al., 2017).

Les évènements à l'origine du SDRC sont principalement traumatiques (55-60%), avec la fracture de l'extrémité distale du radius (Jellad et al., 2014; Schwartzman et al., 2009) la plus représentée (Rolls et al., 2020). On peut noter que ce type de fracture est la plus fréquente dans la population générale, avec un pic d'incidence chez les enfants et les personnes âgées (Gillespie et al., 2016). Les évènements déclencheurs vont du traumatisme des tissus mous à la fracture ou la chirurgie. Des cas de SDRC spontanés c'est-à-dire sans traumatisme déclencheur identifié, ont été décrits comme rares (moins de 10%) et sont considérés comme un élément de vigilance invitant à la recherche d'un diagnostic différentiel poussé (Goebel et al., 2021).

L'incidence après chirurgie rapporte également des chiffres contrastés, suivant les méthodologies (prospectif/rétrospectif), le type de chirurgie et les critères diagnostics. Harden et al(2003) retrouvent 21% des patients remplissant les critères de l'IASP 1 mois après une arthroplastie de genou. Le développement du SDRC a fait l'objet de nombreux écrits suivant les types de fracture, les modalités d'interventions (garrot, anesthésie, ...) et le sujet de la réintervention sur un membre déjà atteint n'est pas clos. Le guide de recommandation du Royaume-Uni précise que la chirurgie devrait être évitée ou reportée pour les cas le nécessitant (Goebel, 2018).

Le SDRC est donc une complication touchant environ 5% des personnes après le traumatisme d'un membre. Il affecte plus fréquemment le membre supérieur, les femmes et les personnes autour de 50 ans.

Ceci en fait une pathologie rare, répertoriée au sein du registre des maladies rares Orphanet (ORPHA:83452).

Facteurs de risque

Les facteurs de risques de développement du SDRC les plus retrouvés sont les fractures complexes (ouvertes, intra-articulaires, associées à des lésions tissulaires...) et le sexe féminin (particulièrement les femmes après la ménopause) (Lorente et al., 2023; Pons et al., 2015).

En 2014, une cohorte prospective (1 549 patients, fractures du poignet traitées orthopédiquement) a identifié qu'une douleur intense ($\geq 5/10$) dans la semaine suivant le traumatisme prédisait le développement d'un SDRC (G. L. Moseley et al., 2014). L'incidence retrouvée était de 3,8%. Ce résultat a été retrouvé dans plusieurs études depuis (Beerthuisen et al., 2012; Jellad et al., 2014; Pons et al., 2015).

Les facteurs psychologiques, notamment la dépression et l'anxiété, ne sont pas considérés comme des facteurs de risque de déclenchement du SDRC (Beerthuisen et al., 2009; Pons et al., 2015). Le catastrophisme n'a également pas été retrouvé comme facteur de risque (G. L. Moseley et al., 2014).

Le fait que les personnes anxieuses, décrites dans les années 80 comme « Sudeck A personality », soient plus à risque de développer un SDRC est une hypothèse rejetée par la littérature (Beerthuisen et al., 2009; Feliu & Edwards, 2010; Jellad et al., 2014; Pons et al., 2015). Les événements de vie traumatiques dans l'année précédant le développement du SDRC ont été suspectés de jouer un rôle sans pour autant avoir de résultats concluants (Beerthuisen et al., 2009). Les patients atteints de SDRC semblent davantage présenter des symptômes liés au stress post-traumatique. Dans une étude prospective récente, 38% des patients atteints de SDRC, 10% des patients atteints de douleurs de membre non-SDRC et 4% de personnes sans douleurs remplissaient les critères diagnostiques de troubles du stress post-traumatique (152 participants). La sévérité des symptômes étaient associée avec le SDRC (Speck et al., 2017). Chez la plupart des patients, les symptômes liés au stress post-traumatique étaient présents avant que le traumatisme à l'origine du SDRC ait lieu. Le stress post-traumatique pourrait être considéré comme une comorbidité au SDRC mais son rôle en tant qu'éventuel facteur de risque reste à investiguer.

Les troubles psychologiques (dépression, anxiété, stress) semblent être des conséquences du SDRC (douleur, chronicité, incapacité) et des changements du système nerveux central. La relation causale n'est pas élucidée : les troubles psychologiques sont également suspectés d'entraîner des adaptations du SNC (Schulte-Goecking et al., 2020).

A l'heure actuelle, les facteurs de risque ne font pas l'objet de controverse marquée. A l'instar d'autres pathologies douloureuses chroniques, l'influence des troubles psychologiques fait toujours l'objet de recherche. En clinique, la douleur intense après le traumatisme reste un des indicateurs les plus utiles (Birklein et al., 2018).

Impact économique

Il existe peu de données sur les coûts de santé engendrés par le SDRC. Une étude suisse récente (Scholz-Odermatt et al., 2019) a estimé que, par rapport à un accident (traumatisme/fracture) n'ayant pas déclenché de SDRC, les coûts assuranciers étaient multipliés par 19 et les coûts de traitement par 13. Le nombre de jours de travail manqués était 20 fois plus élevé. Entre 30 et 40% des patients ne retournent pas au travail et 27-35% devront bénéficier d'adaptations de leur poste (Johnson et al., 2022).

Evolution

L'histoire naturelle du SDRC est un sujet complexe qui fait intervenir, en plus des considérations éthiques liées aux méthodes de recherche, les difficultés liées au diagnostic (en particulier avant l'adoption des critères de Budapest), le caractère fluctuant des symptômes mais aussi la définition de la guérison.

Dans une étude prospective, Zyluk et al (1998) rapportent une amélioration spontanée des symptômes chez 26 des 27 participants dans la première année, avec des participants ne présentant plus la majorité des symptômes. L'œdème et la douleur au repos sont les symptômes ayant diminué en premier. On peut noter que le diagnostic est celui de RSD, qu'il est clinique, radiographique et scintigraphique. Bien que les auteurs rapportent une « amélioration satisfaisante », la faiblesse musculaire persistait dans la majorité des cas (17/27) entraînant une fonction de la main altérée. Sandroni et al (2003) rapportent une résolution des symptômes dans 74% des cas, « le plus souvent » spontanément. A l'inverse, tous les patients de la cohorte de Beerthuisen et al. (2012) ayant répondu aux questionnaires de suivi après 1 an avaient toujours des symptômes (37 participants). Une étude rétrospective retrouve que, en moyenne 6 ans après le diagnostic, 64% des patients remplissaient encore les critères diagnostics de l'IASP (102 patients) (de Mos et al., 2009). Dans une étude pilote portant sur les symptômes et la qualité de vie de 31 personnes atteintes de SDRC, une majorité reportait aucune amélioration notable des symptômes (3,3 ans en moyenne) (B. S.

Galer et al., 2000). Sur 656 patients évalués rétrospectivement, aucun ne montrait de rémission spontanée des symptômes (Schwartzman et al., 2009). Les symptômes étaient progressifs jusqu'à environ 1 an pour ne changer plus que modérément, à l'exception des symptômes moteurs (dystonie, spasmes, faiblesse) présents plus fréquemment sur le long terme.

Une revue systématique de 2014 (Bean et al., 2014) nous résume ainsi les données disponibles de la littérature : si les symptômes sudomoteurs et vasomoteurs ont plus tendance à se résorber, la douleur et les symptômes sensoriels persistent plus longtemps. Les symptômes moteurs (faiblesse, raideur et limitation de mouvement) ont le plus de chance de persister. Il apparaît qu'il est courant que les patients aient des séquelles, sans avoir de données sur l'intensité de ces symptômes ou leur influence sur la qualité de vie. Pour préciser cela, Bean et al (2016) ont réalisé une étude prospective incluant 59 patients avec un suivi à 12 mois. Parmi eux, plus de 25% remplissaient encore les critères de recherche de Budapest bien que la sévérité des symptômes soit réduite de manière probante. Les changements dans la sévérité des symptômes se produisaient le plus souvent entre 6 et 12 mois après le début des symptômes mais seulement 5% des patients rapportaient être sans symptômes à 12 mois (Bean et al., 2016). La revue systématique la plus récente à ce sujet nous précise qu'il manque de données pour la période au-delà des 12 mois après le début des symptômes (Johnson et al., 2022) et confirme que les symptômes moteurs (faiblesse, diminution de l'amplitude de mouvement) persistent et ont des répercussions importantes sur la fonction et la capacité de reprendre le travail.

Une des limites identifiées qui peut expliquer les différences entre les études est la difficulté de définir la « guérison » du SDRC. Si certains auteurs la considèrent comme la sortie des critères diagnostics, les données nous indiquent que cela ne signifie pas que les patients ne présentent plus de symptômes limitant leur fonctionnement et qualité de vie. La catégorie *CRPS with remission of some features* (SDRC avec des caractéristiques en régression) donne dorénavant une place aux patients dans cette situation : les patients ne peuvent plus correspondre aux critères de Budapest tout en étant considérés comme toujours atteints (Goebel et al., 2021). Une étude Delphi (Llewellyn et al., 2017) incluant des patients correspondant ou ayant correspondu aux critères de Budapest a exploré cette notion de guérison ainsi que les priorités de traitement. Les 347 participants ont fourni 62 déclarations définissant leur guérison lors du 1^{er} tour, allant de l'absence de symptômes du SDRC au niveau du membre atteint (« *si je n'ai plus de mouvements involontaires dans mon membre affecté* », « *si je n'ai plus de changement de couleur* », « *si je n'ai plus de douleur liée au SDRC dans mon membre* »), l'absence de symptômes conséquences du SDRC dont psychologiques (« *si je suis moins fatigué* », « *si je n'ai plus de changements d'humeur* », « *si je peux me sentir en contrôle*») ou de l'amélioration des capacités fonctionnelles (« *si je peux conduire un*

véhicule », *si je peux préparer un repas* », *si je peux reprendre le travail* ») et sociales (« *si je peux participer aux activités familiales* »). Les facteurs déclarés comme les plus importants pour se considérer comme « guéri » sont : le soulagement de la douleur liée au SDRC (la douleur généralisée et l'inconfort), l'amélioration des mouvements, la baisse de prise médicamenteuse et la réduction de la raideur. Encore ici, on retrouve l'importance des symptômes moteurs, les plus fréquemment rapportés parmi les patients qui se déclarent « non-guérés » (faiblesse 90%, réduction de l'amplitude de mouvement 87%) et les patients « guérés » (faiblesse 31%, réduction de l'amplitude de mouvement 33%) (Llewellyn et al., 2017).

Il n'existe pas de facteurs pronostics de bonne qualité (Pons et al., 2015). Cependant, il semble que les patients présentant des symptômes de troubles de la sensibilité et une température de peau froide aient un pronostic moins bon avec des durées plus longues (de Mos et al., 2009; Wertli et al., 2013). Les facteurs psychologiques sont considérés par les experts comme moins pertinents que les paramètres cliniques (Brunner et al., 2011) et ont fait l'objet de moins d'investigations.

Le SDRC est donc une pathologie de longue durée, avec des symptômes persistants qui s'améliorent habituellement avec le temps. La douleur et les troubles moteurs sont les plus persistants et affectent la qualité de vie des personnes. A l'heure actuelle, la littérature ne fournit pas d'information sur le tout début des symptômes. Néanmoins, ce sont bien les personnes qui n'évoluent pas positivement dans la première année qui présentent le challenge des cliniciens (15 à 25%) (R. N. Harden et al., 2013).

Diagnostic

A l'instar des nombreuses dénominations du syndrome, il existe de nombreux diagnostics (critères de Atkins, de Veldman, etc. (Rolls et al., 2020)). Les critères diagnostics ont été également abordés lors de la conférence d'Orlando. Y étaient spécifiés : la présence d'un évènement à l'origine (traumatisme ou immobilisation ou évènement dangereux), de douleur disproportionnée (allodynie ou hyperalgésie), de symptômes non spécifiques (œdème, changements de la peau, de la transpiration) dans la région et la nécessité d'un diagnostic d'exclusion. Ces critères ont montré une sensibilité de 90% et une spécificité de 50%. Ils ne permettaient pas la distinction avec d'autres pathologies douloureuses, comme les neuropathies diabétiques, et emmenaient à un fort taux de faux diagnostics positifs.

Dès leur publication, ces critères ont rencontré beaucoup de résistance de la part des experts et dans les faits ont peu été utilisés (R. N. Harden et al., 2007).

Des propositions ont été faites, principalement par Harden et al, et ont abouti lors de la conférence de consensus qui s'est tenue à Budapest en 2003, à l'adoption de nouveaux critères diagnostiques. Le principal changement de ces critères dits de Budapest tient en l'introduction de catégories de symptômes et de signes cliniques (voir figure 1).

Deux interprétations des critères de Budapest ont été décrits : des critères cliniques (sensibilité 0.99, spécificité 0.68) et des critères de recherche, plus restrictifs (sensibilité 0.78, spécificité 0.90). Les critères cliniques sont les plus couramment utilisés, à la fois en pratique courante et en recherche.

A l'heure actuelle, les critères de Budapest font partie des recommandations et sont reconnus et utilisés internationalement (Goebel, 2018; Goebel et al., 2019; Groupe de projet spécifique (GPS) de la SFETD, 2019; Harden et al., 2022; Henderson, 2019; Miller et al., 2017).

A) Le patient a des douleurs continues, disproportionnées par rapport à l'évènement initial		<input type="checkbox"/>	
B) Le patient doit présenter au moins un signe au moment de l'évaluation dans 2 ou plus des catégories suivantes		<input type="checkbox"/>	
C) Le patient doit rapporter au moins un symptôme dans 3 ou 4 des catégories suivantes		<input type="checkbox"/>	
D) Il n'existe pas d'autre diagnostic qui explique mieux les signes et symptômes		<input type="checkbox"/>	
Catégorie		Signe (vous pouvez voir ou détecter un problème)	Symptôme (le patient rapporte un problème)
1. Somatosensorielle	hyperalgésie (pic/touche) et/ou allodynie (au toucher léger et/ou pression profonde et/ou mouvement articulaire)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> (y compris l'hyperesthésie)
2. Vasomoteur	différence de température et/ou changement de couleur de peau et/ou différence de couleur de peau	<input type="checkbox"/> (la différence de température doit être au minimum de 1°)	<input type="checkbox"/>
3. Sudomoteur/œdème	œdème et/ou changement de la sudation et/ou différence de sudation	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. Moteur/trophique	amplitudes articulaires diminuées et/ou dysfonction motrice (faiblesse, tremblements, dystonie) et/ou changements trophiques (pouls, ongles, peau)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Fig. 1 : les critères de Budapest (traduction personnelle) (N. R. Harden et al., 2010).

Pour plus de détails sur la démarche diagnostic et l'utilisation des critères de Budapest, voir **annexe 1** : poster présenté au congrès des Journées Francophones de Kinésithérapie, Montpellier, 2019.

Comment repérer un Syndrome Douloureux Régional Complexe en pratique : les outils de diagnostic

En 2009, la Société Française d'Etude et de Traitement de la Douleur (SFETD) a publié ses recommandations diagnostiques et de prise en charge thérapeutique des syndromes douloureux régionaux complexes : les recommandations de Lille (Groupe de projet spécifique (GPS) de la SFETD, 2019) (voir Annexe 2). Les critères de Budapest sont présentés dans la recommandation 1, concernant le diagnostic.

En 2019, la conférence de consensus de Valence est revenue non pas sur la formulation des critères diagnostics, mais sur des points d'interprétation (Goebel et al., 2021).

La catégorie *CRPS-NOS* (« *Not Otherwise Specified* »), déjà introduite, y est explicitée. Elle rassemble les patients ne correspondant pas aux signes/symptômes des critères de Budapest mais dont la présentation clinique ne peut pas être expliquée autrement. A cela s'ajoute le sous-type *CRPS with Remission of Some Features* (SDRC avec des caractéristiques en régression) qui correspond à des patients ne remplissant plus les critères de Budapest. La douleur peut ne pas avoir diminué et ils peuvent toujours présenter des symptômes pouvant altérer grandement leur qualité de vie.

Malgré le consensus et ces critères diagnostiques en théorie « parfaits » parce qu'ils demandent qu'un diagnostic d'exclusion soit mené, les cliniciens sont confrontés à des obstacles, notamment avec des diagnostics trop rapides (Birklein et al., 2001) ou avec une démarche de diagnostic différentiel poussé difficile (Terkelsen & Birklein, 2022). De plus, des avis d'experts incitent à un diagnostic précoce pouvant améliorer les résultats, sans preuves solides à l'heure actuelle. Ceci pourrait amener à des diagnostics trop précoces et donc des prises en charges non adaptées (Breivik & Stubhaug, 2016). Les signes cliniques entre un traumatisme précoce et le SDRC se superposent et peuvent prêter à confusion. Certains auteurs indiquent que le diagnostic peut être fait 1 à 2 semaines après un traumatisme des tissus mous (Zyluk, 1999) ou 4-8 semaines après l'évolution attendue d'une fracture (Birklein & Schlereth, 2015) si celle-ci n'est pas favorable. D'autres recommandations indiquent 8 à 12 semaines (Goebel, 2018), le groupe de travail de la SFETD recommandant un délai maximum de 12 semaines après le traumatisme (Groupe de projet spécifique (GPS) de la SFETD, 2019).

Pour plus de détails sur l'histoire, le diagnostic, voir Annexe 3

Acapo, S. (2019). Outils diagnostiques et prise en charge thérapeutique du syndrome douloureux régional complexe. Mains Libres, 3, 7.

Le score de sévérité du SDRC (CRPS Severity Score)

Le score de sévérité a été développé par Harden et al (2010) directement à partir des critères diagnostics de Budapest et peut servir à confirmer le diagnostic. Il se compose d'une liste de 8 signes cliniques et de 8 symptômes du SDRC dont le clinicien et le patient notent la présence (=1) ou l'absence (=0) (score maximal = 16). Un score plus élevé indique une sévérité plus importante. Il fait partie des outils de mesures recommandés en recherche clinique (Grieve et al., 2017) pour mesurer la sévérité de la maladie. Il est recommandé de le remplir au minimum à 3,6 et 12 mois pour suivre l'évolution des symptômes.

The « Smallest real difference » est de 4.9, indiquant qu'un changement de 5 points reflète un réel changement de la situation du patient (R. N. Harden et al., 2017).

Le score de sévérité du SDRC permet donc de suivre la présence ou l'absence de symptômes mais pas de ne les évaluer quantitativement ni d'évaluer leur retentissement. Des auteurs ont donc proposé d'y ajouter une échelle de mesure de l'intensité (de 0 à 10) ou de la fréquence du symptôme avec une échelle de type Likert (« tout le temps » à « rarement ») (Ten Brink, Halicka, Vittersø, Jones, et al., 2021).

Une des avancées dans le diagnostic a été possible grâce aux changements dans la prise en compte des symptômes et des signes cliniques.

Description clinique de la pathologie

Le diagnostic repose donc sur différentes catégories de symptômes, impliquant de multiples systèmes.

De manière classique, le SDRC se développe à l'extrémité d'un membre, après un traumatisme léger (traumatisme des tissus mous) ou modéré (fracture)(Marinus et al., 2011). Les premiers symptômes se développant sont typiques du traumatisme et d'une phase inflammatoire : douleur, rougeur, chaleur, gonflement. Plus ou moins rapidement, d'autres types de symptômes sont présents, comme des symptômes moteurs, trophiques ou autonomiques.

Deux sous-types cliniques ont été décrits : le type I se développant après un traumatisme et le type II avec une lésion nerveuse avérée. Indifférenciables cliniquement et recevant la même

prise en charge thérapeutique, ils tendent désormais à être abandonnés (Goebel et al., 2021). L'emploi des sous-types (ou phénotypes ou forme) dont les sous-types « chaud » et « froid » tend à se répandre (Bruehl et al., 2002; Dimova et al., 2019). Les patients avec un sous-type chaud ou forme chaude présentent plus de symptômes dits « positifs » : hyperalgésie/allodynie et signes inflammatoires exagérés (œdème, couleur rouge). Dans le sous-type froid ou forme froide, les patients montrent plus de signes de dysfonctions sensorielles (hypoesthésie), une couleur pâle ou bleue et des changements moteurs (dystonie, tremblements). Les sous-types « froid » et « chaud » ont d'abord été définis par la différence de température de la peau entre le membre affecté et non-affecté (Bruehl et al., 2002). Le plus souvent, le sous-type chaud devient froid avec le temps alors que le sous-type froid le reste (Eberle et al., 2009). Bruehl et al (2016) ont effectué une analyse statistique de reconnaissance de schéma pour valider cette distinction et la définir au-delà de la seule température cutanée. Cette proposition diffère de l'évolution par phases hypothétisée à partir d'observations cliniques, notamment par J. Bonica. Des travaux prospectifs et rétrospectifs observant l'évolution des symptômes dans le temps sont venus depuis apporter de la nuance. Il apparaît que, dans la plupart des cas, la pathologie ne progresse pas suivant les phases décrites. Celles-ci, désormais obsolètes, décriraient plutôt des sous-types distincts (Goebel et al., 2021; R. N. Harden et al., 1999).

Si ces classifications sont insuffisantes pour embrasser l'hétérogénéité des présentations cliniques et leur caractère fluctuant, elles ont l'intérêt d'interpeller le clinicien/chercheur sur l'image clinique individuelle du patient (Dimova et al., 2019). Ainsi, Dimova et al. (2019) suggèrent une classification par signe clinique associé à une physiopathologie : phénotype central, périphérique et mixte. Le groupe central présentant des signes de réorganisation centrale (allodynie, ...) est le plus rare, le groupe de phénotype périphérique (signes de type inflammatoire) et le groupe mixte représentent la majorité des patients. Cette classification rejoint les sous-types froids et chauds décrits plus haut.

La **douleur** est le symptôme cardinal. Elle est continue, le plus souvent profonde, disproportionnée avec des caractéristiques neuropathiques (type électrique, étou, froid intense, brûlure, paresthésies ...). Elle est exacerbée par le mouvement, les changements de température, le contact, le stress ou l'activité physique (Birklein et al., 2015). Elle peut être spontanée, et prendre la forme « d'attaques » paroxystiques de courte durée, d'intensité variable, pouvant être empirée après l'utilisation du membre ou l'exposition au froid (Birklein, 2000; Birklein & Dimova, 2017). L'allodynie mécanique à la pression (82% des sujets dans l'étude de Cohen et al (2013)) ou au contact peut concerner tout ou une partie du membre atteint. L'allodynie ou l'hyperalgésie peuvent être provoquées par des stimuli mécaniques

(pression et/ou toucher) ou bien thermiques (chaud et/ou froid). Ces modalités peuvent se présenter de manière indépendante (Birklein, 2000).

Classiquement, la douleur peut s'étendre au reste du membre, mais les autres articulations doivent également remplir les critères de Budapest pour considérer que le SDRC s'est étendu (Goebel et al., 2021). Le même raisonnement s'applique en cas de douleurs du membre controlatéral.

La douleur liée à l'activité du système nerveux sympathique (Sympathetically Maintained Pain, SMP) désigne les douleurs augmentées par les situations augmentant l'activité du système nerveux sympathique, comme les changements de température ou le stress (Gibbs et al., 2008).

Parmi les **troubles autonomiques**, on distingue les troubles vasomoteurs et sudomoteurs.

Les dysfonctions sudomotrices entraînent des changements de transpiration au niveau du membre (augmentation ou diminution). Les troubles vasomoteurs entraînent de l'œdème persistant, les changements de couleur (vers le bleu ou le rouge), les changements de température ($> 1^{\circ}\text{C}$, vers le chaud ou le froid). Ces changements sont caractérisés par leur variabilité (Birklein et al., 2015).

Les **troubles moteurs** comprennent de la faiblesse musculaire, des amplitudes de mouvement limitées, des tremblements voire de la dystonie. Les **changements trophiques** touchent le tissu conjonctif, avec des changements de la peau, des ongles ou des poils. Les **troubles de la sensibilité** ont de nombreuses modalités et peuvent concerner la sensibilité superficielle (hypo ou hyperesthésie) et la sensibilité profonde (proprioception). On note souvent une sensibilité tactile réduite (baisse des seuils de détection mécanique), une baisse de la précision tactile (évaluée par le test de discrimination des deux points) et des difficultés à localiser des stimuli tactiles (identifier quel doigt est touché). Ce dernier test est altéré chez 48% des participants atteints de SDRC sur la main affectée et 6,5% sur la main non-affectée (Forderreuther et al., 2004). Les patients sont donc moins précis et mettent également plus de temps à localiser un stimulus tactile (Kuttikat et al., 2018).

Des changements dans les seuils de détection du chaud et du froid dans des études utilisant des Quantitative Sensory Testing (QST) ont été relevés (Birklein et al., 2000; Rommel et al., 2001). De l'allochiria (stimulation tactile perçue seulement sur la localisation analogue au membre opposé) est retrouvée ainsi que l'extinction sensorielle (stimulation bilatérale simultanée perçue seulement dans un membre) (Cohen et al., 2013; Forderreuther et al., 2004). Des sensations référées (referred sensations) (sensation perçue comme provenant de la stimulation d'une autre partie du corps) ont été explorées dans plusieurs études. 5 des 16 patients recrutés montraient des sensations référées localisées dans des parties du corps adjacentes au site stimulé sur l'homonculus de Penfield. Par exemple, stimuler le doigt provoquait des sensations sur la joue. Ces sensations étaient présentes quand le participant

avait les yeux fermés et diminuées ou abolies quand le participant regardait la zone touchée. Ces sensations étaient perdues quand les symptômes de SDRC disparaissaient (McCabe et al., 2003).

La synchiria (stimulation tactile d'un seul membre perçue dans les deux membres) est rapportée de manière anecdotique mais évocatrice de processus centraux en cours. Dans une étude impliquant 10 patients atteints de SDRC (Acerra & Moseley, 2005), 9 patients atteints de douleur locale non-SDRC (Whiplash Associated Disorder, tendinites, entorse, arthrose) et 9 contrôles sains, dans une condition équivalente à de la thérapie miroir (le membre atteint caché et le membre non-atteint se reflétant dans le miroir), les patients atteints de SDRC rapportaient des sensations normales quand le site stimulé uniquement sur la main non-atteinte correspondait à une zone non-douloureuse sur le membre atteint. Si la zone stimulée correspondait à une zone allodynique, le patient rapportait de la douleur dans la main atteinte. Si la zone correspondait à une zone paresthésique, le patient rapportait également des paresthésies de telle sorte qu'il était possible de cartographier les zones allodyniques et paresthésiques sur l'image reflétée du membre. Quand du froid était appliqué sur la main non-atteinte, la sensation de froid était ressentie sur la main atteinte. Les auteurs proposent le terme de dysynchiria pour ce phénomène, seulement retrouvé chez des sujets atteints de SDRC. Ceci a été retrouvé également chez 3 sujets sur 22 dans une autre étude (Cohen et al., 2013).

Les troubles de la sensibilité peuvent se retrouver dans une partie plus large que le membre atteint (Cohen et al., 2013).

Enfin, une autre catégorie de symptômes est désormais citée : les **troubles de la perception du corps** (Birklein et al., 2018; Eberle et al., 2009). Les troubles de la perception du corps regroupent des symptômes comme la sensation que le membre atteint ne fait pas partie de soi (sentiment de non-appartenance), des émotions négatives ou la sensation que le membre est plus gros (Birklein et al., 2015, 2018; Marinus et al., 2011). Ils seront détaillés dans un chapitre suivant.

L'étendue des symptômes/signes cliniques et de leurs possibles associations chez une même personne aboutit à des présentations cliniques hétérogènes au sein du SDRC. Une présentation clinique « typique » d'un patient atteint d'un SDRC est présentée dans la figure 2, soulignant les différents sous-types. Ceci entraîne le besoin d'une évaluation adaptée et, sans doute, d'un traitement individualisé.

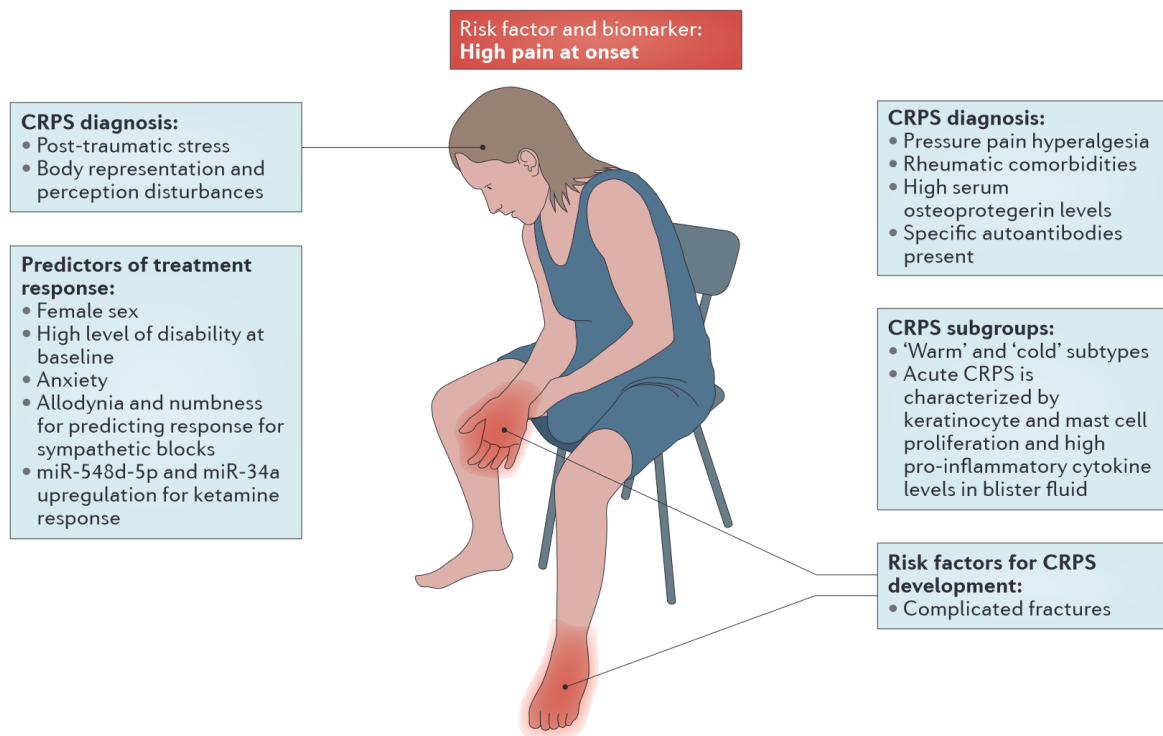


Figure 2 : présentation clinique typique d'un patient atteint de Syndrome Dououreux Régional Complexe- *Birklein, F et al. (2018).*

La physiopathologie du SDRC, directement liée aux symptômes et la présentation clinique, a fait et fait l'objet de recherches approfondies pour essayer de démêler sa présentation complexe.

Physiopathologie

Le SDRC a longtemps été considéré comme résultant principalement d'une dysfonction du système nerveux autonome, d'une réponse inflammatoire disproportionnée ou bien comme une pathologie neuropathique.

De nos jours, il est admis que la physiopathologie du SDRC est multifactorielle, avec des processus à la fois périphériques et centraux qui produisent une grande variabilité des présentations cliniques. Ce débat provoque encore des controverses (Birklein et al., 2018) et fait l'objet d'une littérature abondante, à la fois sur le modèle animal et humain. Sans s'attarder

sur les différentes théories, voici les hypothèses mécanistiques les plus partagées, en se concentrant sur la recherche impliquant la personne humaine (figure 3).

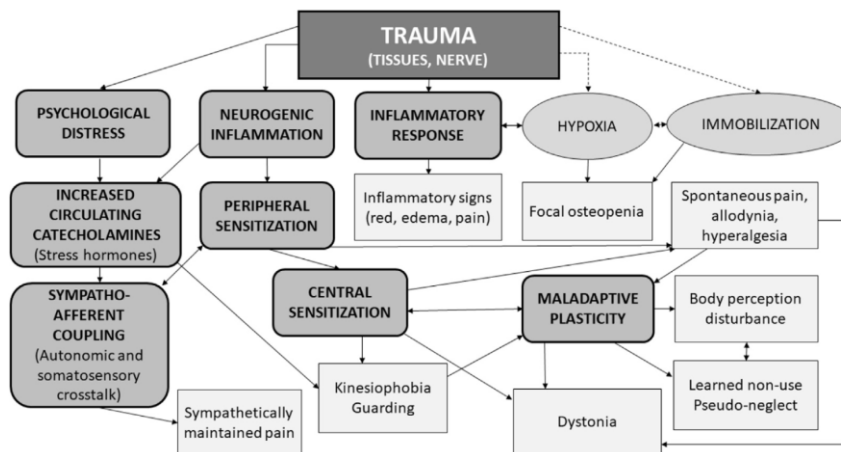


Fig. 1. Proposed mechanisms of CRPS. Primary mechanisms are in bolded capitals; secondary mechanisms are in sentence case type, with arrows denoting proposed relationships. Additional contributing factors are noted in circles. CRPS = complex regional pain syndrome. (adapted from the study by Gierthmühlen et al⁷)

Figure 3 : mécanismes impliqués dans le Syndrome Douloureux Régional Complexe Packham, T et al. (2018).

Génétique

Il existe sûrement un facteur génétique prédisposant au développement du SDRC. En effet, on retrouve parfois plusieurs cas au sein d'une même famille et les frères et sœurs de patients ayant développé jeunes un SDRC ont un risque accru (Marinus et al., 2011). Cela suggère une prédisposition génétique, avec plusieurs combinaisons suivant les sous-types et phénotypes. Cependant, d'autres études ne retrouvent pas de risque plus élevé des proches en général, mais 3 à 6 fois plus élevé pour les proches âgés de moins de 50 ans (de Rooij, de Mos, et al., 2009) .

Le gène TNF alpha, le gène codant pour l'enzyme de conversion de l'angiotensine et le système Human Leukocyte Antigen (HLA-DQ8, HLA-B62) sont notamment cités. Le système HLA semble être plus impliqué chez les patients présentant des dystonies (de Rooij, Gosso, et al., 2009).

De manière générale, même avec des résultat contrastés, les données épidémiologiques et génétiques suggèrent que le développement du SDRC peut être influencé par les paramètres individuels de réponse au traumatisme (Marinus et al., 2011). En effet, plusieurs profils génétiques associés aux réponses inflammatoires et immunitaires semblent impliqués.

Inflammation et système immunitaire

Très tôt, l'inflammation a été placée comme un acteur important dans la présentation clinique et la physiopathologie du SDRC. Il existe des preuves en faveur d'un processus inflammatoire exagéré et d'inflammation neurogénique.

Ainsi, l'ampleur de la réponse immunitaire et inflammatoire au traumatisme semble être un des éléments déclenchant le développement du SDRC (Bruehl, 2015). Le traumatisme initial provoque une réaction inflammatoire physiologique, comprenant œdème, vasodilatation, changements de température et probablement hyperhidrose. De manière simultanée, des changements trophiques, de la douleur mécanique et douleur au chaud sont provoqués par des facteurs pro-inflammatoires (cytokines, Tumor Necrosis Factor-alpha (TNF-alpha) ...). Des facteurs de croissance et des anticorps entraînent une sensibilisation périphérique (glutamate, substance P). Dans le SDRC, la réponse est exagérée (Birklein et al., 2015) et pourrait mener à une persistance des symptômes. Il a été montré que des concentrations plus importantes de neuropeptides pro-inflammatoires, cytokines et médiateurs (substance P, peptide relié au gène calcitonine (CGRP), bradykinine, TNF-alpha) étaient présentes dans la circulation sanguine, le liquide cérébro-spinal et les membres affectés de patients atteints de SDRC (Birklein & Schmelz, 2008; Bruehl, 2015). Les sujets atteints présentent également un taux moins élevé de cytokines anti-inflammatoires comparés à des sujets contrôles (IL-4, IL-10) (Bruehl, 2010; Parkitny et al., 2013) et des concentrations plus élevées de cytokines pro-inflammatoires (IL-1, IL-6, IL-8 et TNF-alpha) (Schinkel et al., 2009). Ces données suggèrent qu'un processus inflammatoire est impliqué dans le SDRC, déclenché par plusieurs voies.

L'inflammation neurogénique fait référence au relargage de neuropeptides et de cytokines pro-inflammatoires directement par des fibres nociceptives (Birklein & Schmelz, 2008; Bruehl, 2010, 2015). Les principaux neuropeptides impliqués sont la substance P et le CGRP. Ils sont responsables de la vasodilatation et l'extravasation plasmatique, typiques d'une présentation aiguë. Le CGRP renforce l'activation des glandes sudoripares et favorise la croissance des poils. TNF-alpha et la substance P activent les ostéoclastes. Endothelin-1 (ET-1), vasoconstricteur puissant, est retrouvé en quantité augmentée dans le membre atteints d'une forme froide de SDRC comparé au membre non-atteint (Birklein & Schmelz, 2008). Birklein et al. étaient les premiers à mettre en lumière un processus d'inflammation neurogénique par de forts taux plasmatiques de CGRP dans le SDRC en comparaison avec des contrôles sains. Ces taux se normalisaient après réduction de l'inflammation (Birklein & Schmelz, 2008; Kortekaas et al., 2016).

Les modèles animaux ont suggéré une influence des lésions d'ischémie-reperfusion (ischemic reperfusion injury) déclencheur de la production de substances pro-inflammatoires

(Bruehl, 2015) impliquant la voie du stress oxydatif. Il existe peu d'études sur la personne humaine mais des applications en clinique ont été testées, comme le changement d'utilisation de garrots en chirurgie (Gillespie et al., 2016; Perez et al., 2010).

Des mécanismes immunitaires semblent également en jeu, avec des taux d'auto-anticorps plus élevés que dans la population sans SDRC, une activité innée altérée (Bruehl, 2015) et la capacité de transférer des symptômes de SDRC à une souris non atteinte par transfusion d'anticorps IgG de personnes atteintes de SDRC (Tékus et al., 2014).

Le système nerveux autonome

Le système nerveux autonome dont le **système nerveux sympathique (SNS)** a historiquement été impliqué dans la physiopathologie du SDRC. Il est tenu pour responsable de symptômes parmi les plus caractéristiques du SDRC : les troubles vasomoteurs avec les changements de température et de couleur. La présentation typique d'un membre froid avec une augmentation de la transpiration ont conduit à l'hypothèse d'un excès d'activité du SNS. Une partie des patients semble répondre favorablement à des traitements visant le SNS (blocs, sympathectomie) et ont été définis comme ayant une « Sympathetically Maintained Pain ». Chez ces patients, une injection de norépinephrine pouvant faire resurgir ces symptômes (Price 1998). Cependant, des études contrôlées de meilleure qualité ne retrouvent pas de bénéfice supérieur au placebo, ne permettant pas de proposer ce traitement largement (Ferraro et al., 2023).

Le couplage sympatho-afférent (sympathetic afferent coupling), à savoir la stimulation par le SNS (catécholamines) des récepteurs adrénérgiques exprimés par les nocicepteurs après blessure, est un des mécanismes qui semble être impliqué (Bruehl, 2015; Schlereth et al., 2014). Peu de preuves existent pour déterminer l'existence de ce phénomène dans le SDRC et peut être son influence sur la sévérité des symptômes.

Le SNS pourrait également agir comme facilitateur de l'inflammation après traumatisme (Bruehl, 2015). Le phénomène de réflexe inflammatoire, à savoir la diminution du taux de TNF-alpha circulant par le nerf vague, a été identifié.

D'une manière générale, les preuves soutiennent l'existence d'une dysfonction du SNS dans le SDRC, responsable, entre autres, de la sévérité, du maintien ou du déclenchement des symptômes.

Système nerveux central (SNC)

Cliniquement, la douleur persistante, hyperalgésie, allodynie, la douleur étendue et les troubles moteurs (tremblements, dystonie) ainsi que leur distribution sont reliés à des mécanismes centraux (Maihöfner et al., 2005). La discordance entre l'importance du traumatisme initial et la sévérité du développement du SDRC et sa durée est également un indice d'implication du SNC.

Les données suggèrent que l'inhibition descendante est réduite et que la facilitation descendante augmentée (Marinus et al., 2011).

Bien que la douleur soit régionale, l'allodynie et l'hyperalgésie sont des symptômes de la sensibilisation centrale qui semble impliquée dans la présentation clinique du SDRC (Bruehl, 2010; Marinus et al., 2011). La sensibilisation centrale est définie comme une "Increased responsiveness of nociceptive neurons in the central nervous system to their normal or subthreshold afferent input" dans la taxonomie de l'IASP.

Le système nerveux central semble faire l'objet de changements structurels et fonctionnels (Marinus et al., 2011).

La réorganisation du système nerveux central fait l'objet d'une attention particulière depuis de nombreuses années et les connaissances évoluent notamment grâce à l'avancée des technologies. La fonction de différentes régions du système nerveux et leurs implications dans le développement, la sévérité ou le maintien du SDRC ont été explorées par des points de vue différents : anatomo-morphologiques (représentation spatiale, volumes) et fonctionnels (activation, réactivité, connectivité). Si les premières années de recherche se sont principalement focalisées sur le cortex somatosensoriel primaire et le cortex moteur primaire, il est peu probable que les dysfonctions observées proviennent d'une unique structure (Di Pietro et al., 2013a). Les régions cérébrales explorées maintenant sont plus nombreuses et rejoignent celles étudiées dans d'autres pathologies douloureuses chroniques comme le thalamus, le cortex cingulaire antérieur ou l'insula. Les limites des études présentées ci-après sont habituelles dans le SDRC (critères diagnostics, hétérogénéité des présentations cliniques, atteinte au membre supérieur uniquement) et spécifiques aux techniques de neuroimagerie (précision des technologies employées, diversité des critères d'évaluation, comparaisons entre membre atteint/non atteint, groupe contrôle ou inter-hémisphérique, etc.).

Le cortex sensorimoteur est composé du cortex somatosensoriel primaire et du cortex moteur primaire. Il est considéré comme une région cruciale dans le maintien de la douleur dans le SDRC (Vittersø et al., 2022).

Le cortex somatosensoriel primaire (S1) est organisé de manière somatotopique. Il contient la carte de la surface du corps (Swart et al., 2009) et traite les informations somatosensorielles dont l'acuité tactile, la perception consciente et la localisation spatiale de la douleur (Bushnell et al., 2013; Mancini et al., 2012).

Représentation spatiale du membre atteint dans S1

Juottonen et al. (2002) ont été les premiers à étudier un groupe de 6 patients atteints de SDRC type I via la magnétoencéphalographie (MEG, résolution spatiale de l'ordre du millimètre). Ils ont retrouvé une réponse augmentée de SI aux stimuli tactiles côté atteint et une distance réduite entre les doigts 1 et 5 interprétée comme une réduction de la représentation de la main atteinte par rapport au côté non-atteint.

Maihofner et al. (2003) ont investigué ces changements chez 12 patients atteints de SDRC au membre supérieur (MEG). Les résultats indiquaient une réduction de la représentation corticale de la main (*shrinkage*) ainsi qu'un déplacement de cette représentation vers celle de la lèvre, par comparaison avec le côté non-atteint. Ces résultats étaient associés avec l'intensité de la douleur et l'hyperalgésie mécanique. Cette même équipe ré-évalua, toujours par MEG, 10 de ces patients qui, après 1 an de traitement, montraient des améliorations sur les critères cliniques évalués (douleur, hyperalgésie mécanique notamment). La réorganisation observée était inversée, même si les valeurs ne rejoignaient pas celles du côté non atteint (Maihofner et al., 2004). La normalisation de la représentation corticale était corrélée avec la réduction de la douleur.

Pleger et al. (2004), ont exploré par cartographie des potentiels somatosensoriels évoqués (SSEP, Electroencéphalogramme EEG) sur 7 patients et 7 contrôles (stimulation des nerfs médian et ulnaire). Ici encore, ils retrouvent une représentation corticale dans SI de la main atteinte plus petite par rapport au membre non atteint et aux sujets contrôles sains. Une corrélation avec l'intensité de la douleur durant le mois passé était retrouvée.

En 2005, ils évaluent après traitement sensorimoteur (ex : désensibilisation, exercices de mobilité, activités de la vie quotidienne) de 6 patients le caractère réversible de la réorganisation (Pleger et al., 2005). Ils retrouvent une restauration de la cartographie de SI (et SII), corrélée avec la diminution de l'intensité de la douleur.

L'hypothèse principale découlant de ces observations met en lien les symptômes du SDRC et la réorganisation corticale. Cela a eu une importance significative dans le développement de stratégies de traitement visant à stimuler progressivement les différentes zones cérébrales impliquées pour guider cette réorganisation corticale. Les moyens de traitement que sont l'imagerie motrice, l'imagerie motrice graduelle ou la thérapie miroir en sont des exemples (voir Traitement). Cependant, les 5 études présentées utilisent des techniques d'imagerie avec une faible résolution spatiale, qui sont maintenant dépassées en précision par l'IRMf. Les

méthodes de calcul de taille de la représentation étaient indirectes (distance euclidienne entre les doigts 1 et 5 soit une source potentielle d'erreur dans un cortex en volume et circonvolutions). De plus, les mesures comparatives se faisaient entre côté atteint et côté sain de patients atteints de SDRC, sans comparaison avec des participants contrôles, ce qui en font des preuves avec un fort risque de biais (Di Pietro et al., 2013b).

Plus récemment, des preuves discordantes sont venues se rajouter.

En 2015, une étude par IRMf inclut 18 participants avec un SDRC du membre supérieur et 18 participants sans douleur dans un groupe contrôle (Di Pietro et al., 2015). Dans les résultats, la représentation de la main atteinte est effectivement plus petite que celle de la main non-atteinte. Cependant, la représentation de la main atteinte n'est pas plus petite que celle du groupe contrôle. Le changement de représentation spatiale dans S1 concernerait donc plutôt une augmentation de la représentation de la main non-atteinte.

La représentation n'était pas corrélée ni à l'intensité de la douleur, ni à la durée des symptômes, ni à la latéralité.

En 2019, Mancini et al. (2019) recrutent 18 participants avec un SDRC au membre supérieur et 17 participants contrôles sains et utilisent l'IRMf.

La représentation corticale des bouts des doigts de la main atteinte est comparable à celle de la main non-atteinte et à celle des contrôles, pour la surface, la localisation, l'orientation et la géométrie. La taille de la main est modulée par la durée des symptômes (une durée plus longue entraîne une plus petite taille) mais pas par l'intensité de la douleur ni par la fonction. L'étude ne concerne pas l'activité ni la connectivité de S1.

L'hypothèse de l'influence de la sur-utilisation du membre sain en compensation pour expliquer un tel résultat n'a pas trouvé confirmation dans une étude par IMRf (12 participants avec un SDRC au membre supérieur, 10 participants contrôles) (Di Pietro et al., 2016).

Il est donc difficile de conclure de manière forte sur les changements dans la représentation spatiale du membre atteint dans S1. D'autres études, contrôlées, de plus grande taille et longitudinales sont nécessaires. À l'heure actuelle, l'hypothèse d'une réorganisation est encore jugée plausible, sans pouvoir la préciser n'y y imputer une relation causale.

Activation de S1

Une revue systématique a inclus 7 articles évaluant le niveau d'activation de S1 par IRMf (Di Pietro et al., 2013b). Les résultats sont contradictoires mais suggèrent qu'il n'y a pas de différence d'activation de S1 (niveau d'activation), ni de preuves de désinhibition corticale,

avec un haut niveau de risque de biais. Les comparaisons sont, suivant les études, entre les hémisphères ou avec des contrôles.

Cortex moteur

Les troubles moteurs très présents dans le SDRC (faiblesse, tremblements, dystonie...) sont largement attribués à une altération centrale et ont emmené l'attention rapidement vers le cortex moteur primaire.

Maihöfner et al. (2007) ont montré (10 participants atteints de SDRC, 12 contrôles sains ; IRMf) une augmentation de l'activation du cortex moteur primaire et des aires motrices supplémentaires. Leur activation était corrélée aux troubles moteurs. D'autres études ont montré des anomalies de l'excitabilité du cortex moteur (désinhibition) corrélée à l'intensité de la douleur (Juottonen et al., 2002). Cependant, l'activité du cortex moteur pendant des tâches d'imagerie motrice semble être similaire à celle du groupe contrôle sans douleur, suggérant que l'activité du cortex moteur n'est pas inhibée dans d'autres régions (van Velzen et al., 2016). Une revue systématique a montré des changements dans la représentation spatiale de M1, l'excitabilité corticale, le métabolisme du glucose (Di Pietro et al., 2013a). Si les preuves de changement de l'excitabilité corticale semblent suffisantes, elles manquent quant aux autres aspects fonctionnels de M1 (Di Pietro et al., 2013a).

Volume de matière grise

Dans le SDRC, les résultats sont contradictoires avec des études retrouvant une diminution du volume de matière grise dans le cortex préfrontal ventro-medial, l'insula antérieure and the noyau accumbens (Geha et al., 2008), et d'autres n'en retrouvant pas (van Velzen et al., 2016). Il existe des preuves sur la diminution du volume de matière grise dans le thalamus médial en bilatéral (Domin et al., 2021).

Les données indiquent donc une tendance vers une atrophie de la matière grise dans les régions impliquées dans les fonctions somatosensorielles et de perception du corps et émotionnelles (Cortex Cingulaire Antérieur, amygdale, insula antérieure) (Barad et al., 2014; Ma et al., 2022).

Insula

L'insula est une région impliquée dans l'intégration sensorielle, affective et cognitive de la douleur en interconnectant les régions préfrontales-limbiques (Kim et al., 2023). L'insula est notamment connectée avec des régions impliquées dans des processus cognitifs comme le cortex cingulaire dorsal antérieur (dACC) ou le cortex dorsolatéral préfrontal (dLPFC) Elle guide notamment les comportements. L'insula postérieure est impliquée dans la discrimination des sensations douloureuses et l'insula antérieure a un rôle dans l'intégration émotionnelle de

la douleur en intégrant des informations sensorielles, physiologiques et émotionnelles provenant de l'insula postérieure, de l'amygdale et du système sympathique.

Dans leur étude de 2023, Kim et al. (2023) retrouvent une connectivité réduite entre l'insula gauche et droite et entre l'insula bilatérale et dACC chez des sujets atteints de SDRC comparés à des sujets sains. Une connectivité fonctionnelle bilatérale de l'insula antérieure plus faible est corrélée à une intensité de douleur plus grande.

Les connectivités plus faibles semblent indiquer un découplage (decoupling) et donc un processus inadapté de traitement de la douleur ainsi que des voies de modulation dysfonctionnelles.

L'insula antérieure est également connue pour son rôle de modulation dans le système autonome (Kim et al., 2023).

En conclusion, la physiopathologie du SDRC est complexe, multifactorielle et semble impliquer des mécanismes à la fois centraux et périphériques (voir figure 3 et 4). A l'heure actuelle, les preuves en faveur de plusieurs processus d'adaptations du système nerveux central sont nombreuses, sinon cohérentes. Les relations avec le déclenchement et le maintien des symptômes, en particulier de la douleur, ou la prédominance d'une physiopathologie sur une autre, sont des questions encore en suspens. Le changement des hypothèses liées à la réorganisation du cortex somatosensoriel, modèle qui a dominé pendant plus d'une décennie, est en cours. Nul doute que les connaissances connaîtront d'autres bouleversements dans les prochaines années

Les multiples mécanismes physiopathologiques entraînent des présentations cliniques hétérogènes chez les patients. Ces mécanismes peuvent être plus ou moins entre les patients et changer au cours du temps au sein d'un même individu (van den Berg et al., 2022).

Actuellement, les choix de traitement sont basés sur les mécanismes sous-jacents.

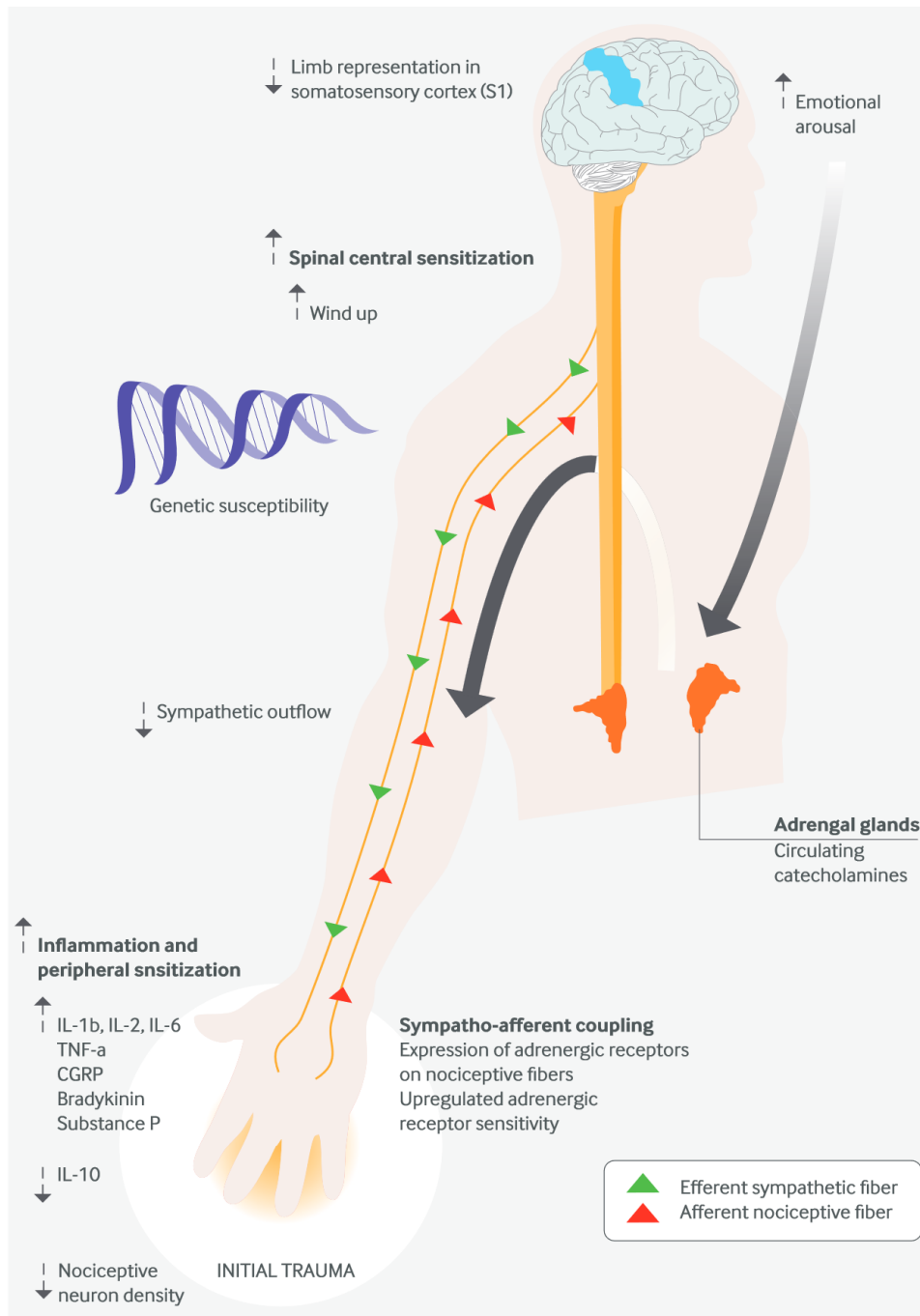


Figure 4 : modèle spéculatif des mécanismes impliqués dans le développement du Syndrome Douloureux Régional Complexe. *Bruehl, S. (2015).*

Traitement

Le traitement du SDRC représente un challenge pour les cliniciens et les patients, plus particulièrement pour la proportion de patients qui n'évoluent pas favorablement dans la première année. Ces patients dits chroniques ou avec des formes réfractaires sont les plus difficiles à traiter.

Des recommandations sont disponibles dans différents pays en Europe et dans le monde (Goebel, 2018; Groupe de projet spécifique (GPS) de la SFETD, 2019; R. N. Harden et al., 2013; Henderson, 2019; Perez et al., 2010), des essais cliniques avec des méthodologies variées et des revues systématiques (De Souza et al., 2015; Duong et al., 2018; Méndez-Rebolledo et al., 2017; Saed et al., 2023; Shafiee et al., 2023; Smart et al., 2022)

Sans être exhaustive, cette partie va résumer les grandes modalités de traitements actuellement disponibles (hors chirurgie).

Le traitement doit adresser la perte de fonction et la douleur (Birklein et al., 2018; Boichat et al., 2020). Le traitement doit être initié tôt, encourager le mouvement et l'utilisation du membre atteint dans les activités (Boichat et al., 2020).

Les standards européens précisent qu'en matière de traitement, les patients doivent avoir accès à des traitements pharmacologiques antalgiques et que des efforts pour obtenir une antalgie doivent être accompagnés par une rééducation adaptée (standards 9 et 10) (Goebel et al., 2019). Les recommandations britanniques recommandent d'organiser le traitement autour de 4 piliers : la rééducation/réadaptation, la gestion de la douleur, les interventions psychologiques et l'information et éducation du patient (Goebel, 2018) (voir figure 5).

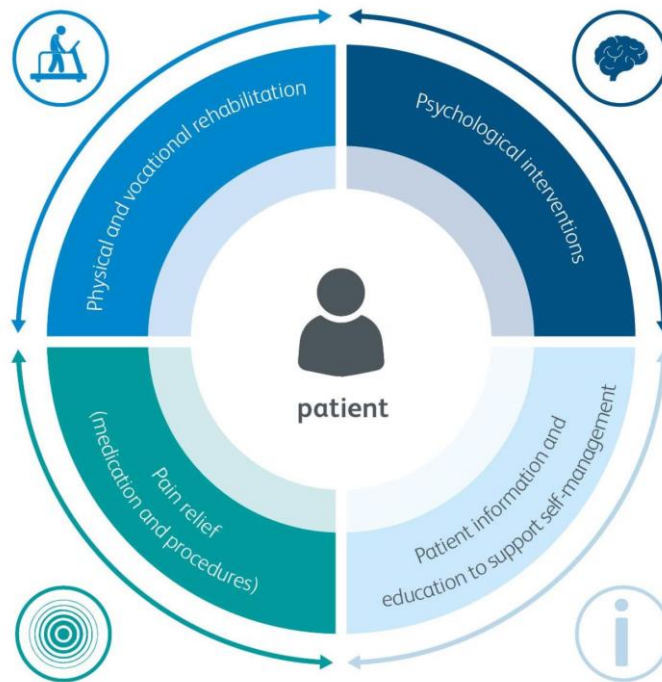


Figure 5 : les 4 piliers du traitement du Syndrome Douloureux Régional Complexe – une approche interdisciplinaire intégrative - *Goebel, A. (2018)*.

Il y a peu de preuves pour support le traitement rééducatif multidisciplinaire comme traitement de référence. Il fait cependant partie des recommandation bien qu'il soit couteux et difficile à mettre en place (R. N. Harden et al., 2013; Lewis et al., 2021; Smart et al., 2016, 2022).

Traitement médicamenteux

Le traitement médicamenteux a pour but de minimiser la douleur pour permettre le mouvement (Goebel, 2018). Cependant, les traitements manquent d'efficacité et sont souvent mis de côté à cause de leurs effets secondaires importants.

Les médicaments utilisés communément sont les anti-inflammatoires (AINS, corticostéroïdes), les antiépileptiques (prégabaline, gabapentine), les antidépresseurs (amitriptyline), les opioïdes (morphine, tramadol), les antagonistes NMDA (kétamine), les biphosphonates et la calcitonine (Ferraro et al., 2023).

Les preuves restent limitées et faibles pour les traitements de courte durée de corticostéroïdes (Duong et al., 2018; van den Berg et al., 2022). Une revue Cochrane sur l'emploi de la gabapentine ne permet pas de conclure, les sujets atteints de SDRC étant intégrés à des

groupes de patients avec des douleurs neuropathiques chroniques (Wiffen et al., 2017). Les preuves sont très incertaines pour soutenir l'emploi des biphosphonates en phase précoce pour réduire l'intensité de la douleur, avec une augmentation des risques d'effets secondaires (Ferraro et al., 2023). Il n'existe pas d'essais cliniques évaluant l'efficacité des antidépresseurs tricycliques ou des opioïdes (Ferraro et al., 2023). L'utilisation de la ketamine n'est pas soutenue par la littérature, avec une très faible certitude quant à ses effets cliniques. De la même façon, l'usage de la calcitonine intranasale n'a pas montré d'effets sur la douleur (certitude des preuves très faible).

Il reste important de déterminer leur intérêt suivant des critères cliniques précis (degré de l'atteinte osseuse, sévérité de l'atteinte, début des symptômes,) pour cibler leur utilisation.

Le manque d'études de bonne qualité pour guider les cliniciens dans la gestion médicamenteuse antalgique dans le SDRC est manifeste. On peut noter que la plupart des recommandations du Groupe de Projet Spécifique de la SFETD concernant le traitement médicamenteux sont des avis d'experts, en l'absence d'une littérature suffisante (Groupe de projet spécifique (GPS) de la SFETD, 2019) (annexe 2).

Interventions psychologiques

Les interventions psychologiques ont pour but d'adresser les facteurs de vulnérabilité associés au SDRC et facteurs de mauvais pronostic comme la dépression ou l'anxiété (Groupe de projet spécifique (GPS) de la SFETD, 2019).

Les thérapies psychologiques incluent des thérapies cognitivo-comportementales (TCC) comme l'ACT (thérapie de l'acceptation et de l'engagement) ou la relaxation, ou bien des thérapies d'exposition (Ferraro et al., 2023).

Les thérapies psychologiques sont incluses dans les programmes pluridisciplinaires, sans faire l'objet de recherche extensive (Ferraro et al., 2023).

Traitement rééducatif

La rééducation est considérée comme primordiale dans la prise en charge du SDRC (Goebel et al., 2019; Groupe de projet spécifique (GPS) de la SFETD, 2019; Pons et al., 2018), malgré des preuves de qualité très faible (Smart et al., 2022).

Les techniques rééducatives sont orientées vers la reprise du mouvement. Les techniques antalgiques utilisées ont pour objectif de permettre le mouvement et l'utilisation du membre (Pons et al., 2018). Les techniques sont variées et peuvent être spécifiques au SDRC ou non (voir figure 6).

Therapeutic approaches	CRPS-specific rehabilitation techniques
<ul style="list-style-type: none"> • Patient education and support • Self-administered tactile and thermal desensitisation with the aim of normalising touch perception • General exercises and strengthening • Functional activities • Mirror visual feedback • Gait re-education • Transcutaneous electrical nerve stimulation (TENS) • Postural control • Pacing, prioritising and planning activities • Goal setting • Relaxation techniques • Coping skills • Hydrotherapy • Sleep hygiene • Oedema control strategies • Vocational support • Facilitating self-management of condition • Splinting (generally short term, in acute CRPS) 	<ul style="list-style-type: none"> • Graded motor imagery • Tactile discrimination • Strategies to correct body perception disturbance, involving looking, touching and thinking about the affected body part • Mental visualisation to normalise altered size and form perception of affected body part • Functional movement techniques to improve motor control and awareness of affected limb position • Principles of stress loading • Conflict allodynia re-education to reduce fear of physical contact with others in community settings • Management of CRPS-related dystonia

Figure 6 : approches thérapeutiques dans le traitement du SDRRC - *Goebel, A. (2018)*.

Une revue systématique avec méta-analyse Cochrane, mise à jour en 2022, met en avant le peu de preuves et leur manque de qualité générale. Parmi les techniques étudiées, les stratégies de rééducation visant la réorganisation corticale dont l'Imagerie Motrice Graduelle (IMG) et la thérapie miroir ont reçu le plus d'attention.

L'IMG est un programme mis au point au début des années 2000 (G. L. Moseley, 2004a). Il est composé de 3 phases : la tâche de latéralité (imagerie motrice implicite), la visualisation (imagerie motrice explicite) et la thérapie miroir (figure 7). Ces étapes sont élaborées pour recruter de manière progressive les zones cérébrales impliquées dans le mouvement du membre, en évitant de déclencher la douleur (Barde-Cabusson & Osinski, 2017). L'IMG s'intègre dans le plan de rééducation, avec les autres techniques classiques de mobilisation et exercices.

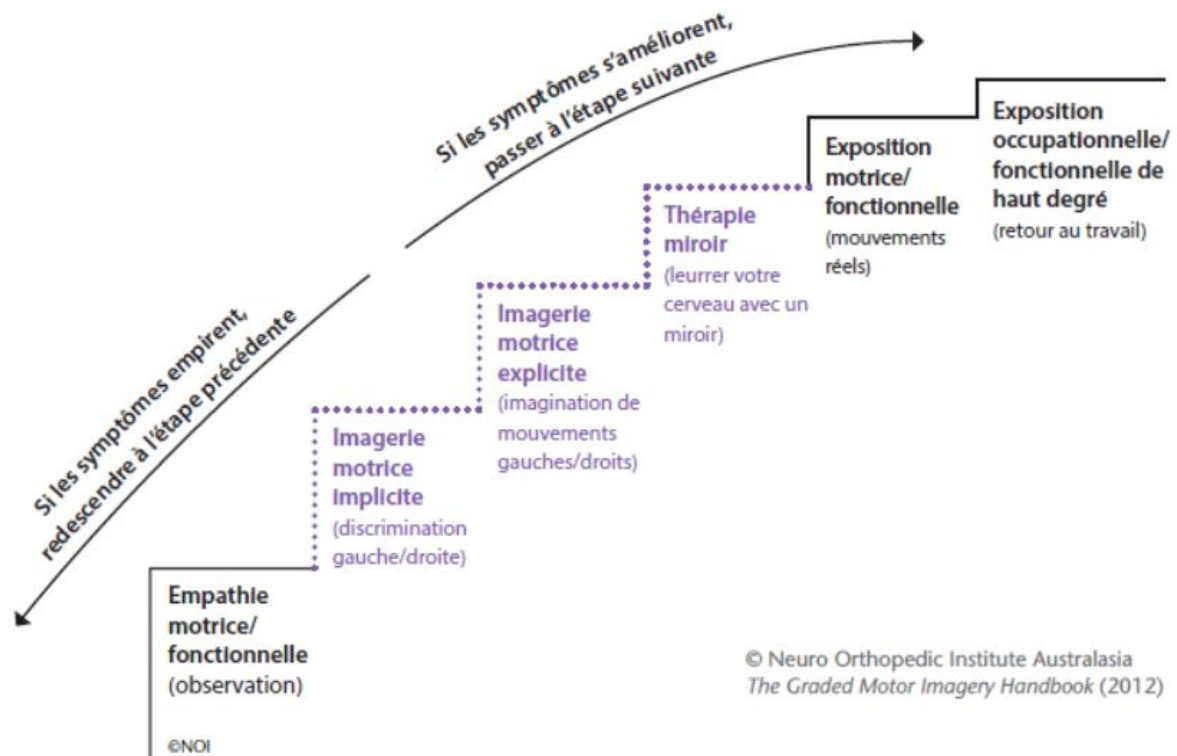


Figure 7 : étapes de l'Imagerie Motrice Graduelle (en violet) au sein de la prise en charge rééducative (extrait de Barde-Cabusson Y, Osinski T. 2017)

Lors de la tâche de latéralité (Laterality Limb Judgment Task) ou discrimination gauche droite, le participant doit déterminer si l'image du membre présenté devant lui est celle d'un membre droit ou gauche. A l'aide de cartes ou d'une application, les performances notées sont le temps de réaction et le nombre de réponses correctes.

L'imagerie motrice explicite ou mouvements imaginés demande au participant d'imaginer (sans exécuter) des mouvements de son membre atteint selon une séquence de mouvements prédéterminés ou bien pour des tâches plus ou moins complexes. Cette étape s'appuie sur les travaux initiaux de Parsons sur les mouvements imaginés (Parsons, 1987b, 1987a).

Pour la thérapie miroir, le sujet place son membre atteint derrière un miroir, son membre non-atteint devant le miroir. L'illusion induite voulue est celle de percevoir le reflet du membre comme étant le membre atteint dissimulé (figure 8). Le sujet effectue des séries de mouvements (unilatéraux puis bilatéraux) en regardant le miroir. Cette technique a été initialement décrite par Ramachandran dans la douleur de membre fantôme (Ramachandran & Rogers-Ramachandran, 2000).



Figure 8 : illustration d'une installation pour la thérapie miroir pour un SDRC au membre supérieur gauche.

L'Imagerie Motrice Graduelle a des preuves de très faible qualité quant à son utilité sur la douleur et la fonction sur le long terme comparé au traitement habituel. De même, la thérapie miroir et les interventions multimodales ont des preuves de très basse qualité. A l'heure actuelle, les données montrent que le GMI et la thérapie miroir pourrait améliorer la douleur et la fonction dans le SDRC (Méndez-Rebolledo et al., 2017; Smart et al., 2022). Les techniques générales utilisées ne sont d'ailleurs pas très différentes d'une autre prise en charge musculosquelettique, à savoir la restauration des amplitudes articulaires (mobilisation passive/active, exercices actifs), de la force (renforcement, exercices actifs) et du contrôle (exercices de stabilisation) (Miller et al., 2017).

Parmi les techniques d'exposition graduelle habituellement rencontrées dans la prise en charge rééducative de patients atteints de douleur chronique, l'exposition à la douleur (Pain Exposure Physical Therapy ou PEPT) est une démarche plus spécifique au SDRC (den Hollander et al., 2016; Hollander et al., 2020) qui consiste en l'exposition à des activités variées, sans traitement dirigé pour contrôler la douleur. Cette démarche s'accompagne d'une information/éducation du patient étendue sur la pathologie et les neurosciences de la douleur. L'information du patient, un des piliers de traitement, a été exploré notamment par la recherche qualitative (Antunovich et al., 2021; Johnston-Devin et al., 2021; Moore et al., 2022). Les patients atteints de SDRC y décrivent leur expérience et ce qu'ils auraient aimé savoir au début de leurs symptômes, par exemple le fait que cela risque de durer longtemps et d'avoir des conséquences sur leur vie professionnelle et personnelle (Grieve et al., 2016).

La rééducation sensorielle est également un des moyens décrits pour le SDRC, et plus spécifiquement dans le traitement de l'allodynie et des troubles de la sensibilité. Cela peut prendre la forme d'un entraînement à l'acuité tactile (discrimination de 2 points, de formes, de matières), à la localisation d'un stimulus, voire une combinaison des deux paramètres. Pour l'allodynie, des démarches de désensibilisation ou d'habituation existent (Coggins et al., 2023; Packham et al., 2018; Schmid et al., 2017). Voir figure 9 pour un exemple.

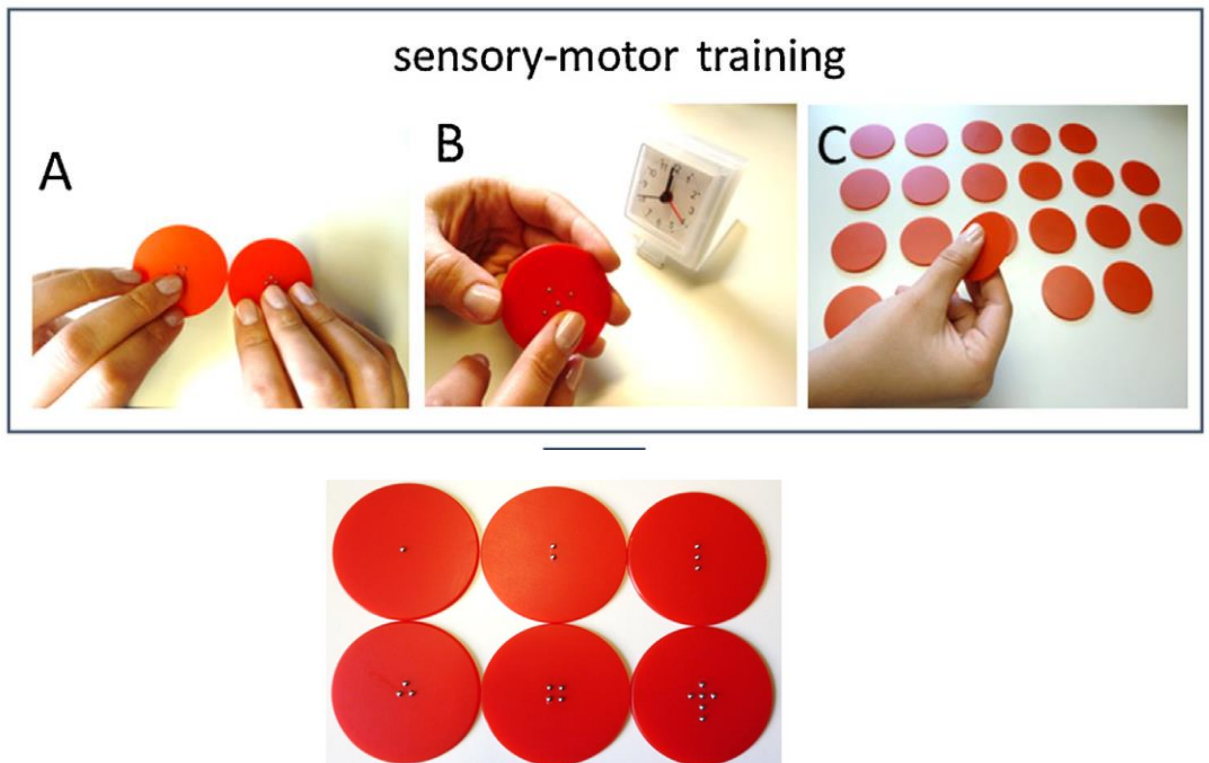


Figure 9 : exemple d'entraînement sensoriel de type reconnaissance de forme (modalité A : bimanuelle, B : épreuve chronométrée, C : jeux de mémoire) ; extrait de *Schmid, A et al. (2017)*.

L'ensemble des approches thérapeutiques est large. Pour une revue détaillée, voir (Harden et al., 2022; Saed et al., 2023; Shafiee et al., 2023; Smart et al., 2022).

Il est intéressant de noter le changement de perspective de la rééducation qui est passée d'un principe général de « non-douleur » à un modèle d'exposition (graduelle, au mouvement, voire à la douleur) éclairé par les neurosciences de la douleur (Pons et al., 2018).

LA PERCEPTION DU CORPS

Historiquement, le fait que les perceptions corporelles soient un reflet exact du monde extérieur était une évidence (MacIntyre et al., 2022), et cette croyance est encore répandue dans la population générale. Cependant, les preuves récentes examinant ce postulat suggèrent que la perception est un processus adaptatif, en construction entre le corps et l'environnement (MacIntyre et al., 2022). La représentation et la perception de notre propre corps est à la fois unique, complexe et différente. Dans la vie de tous les jours, et plus spécifiquement dans le contexte de douleurs, la perception de notre corps (dont sa taille et sa forme) peut ne pas refléter son aspect réel. De la personne ayant la sensation que le côté de son visage est gonflé après une anesthésie chez le dentiste à la personne fatiguée ayant la sensation que son corps est lourd jusqu'à la personne atteinte de SDRC ayant la sensation que sa main est plus grosse, tout le monde peut expérimenter les modifications de la perception de son corps, à plus au moins long terme.

La relation de la perception du corps et de la douleur est également un sujet complexe, mobilisant différentes disciplines. La douleur en elle-même est une expérience impliquant le corps : elle provient d'informations sensorielles ayant pour origine des récepteurs corporels, elle est ressentie dans une partie spécifique du corps (Haggard et al., 2013) et peut être considérée comme ayant la fonction de le protéger (Lotze & Moseley, 2015). Ceci implique une relation et des mécanismes spécifiques.

La première difficulté dans l'exploration de la perception du corps réside dans les concepts utilisés et la taxonomie. Appuyé sur des observations cliniques, ce sujet a été exploré initialement par deux disciplines : la neurophysiologie et la psychologie (Graziano & Botvinick, 2002). A ces champs se sont rajoutés la neurologie, la psychiatrie, la médecine de la douleur, la réadaptation, la philosophie ou encore la robotique. Les connaissances ont également été enrichies par l'avancée des neurosciences, des sciences cognitives et de l'imagerie cérébrale. Ceci ajouté à la multitude de cas rapportés, il est maintenant largement accepté que la représentation du corps est composée de plusieurs entités. Plusieurs auteurs ont donc proposé des modèles pour essayer d'expliquer l'expérience complexe qu'est la représentation de notre corps.

Cette partie va succinctement revenir sur les grands modèles et taxonomies pour définir ce qui va servir de cadre. La partie suivante présentera les données en lien avec le SDRC.

En 1911, Head et Holmes (neurologues anglais) ont été les premiers à séparer des éléments distincts parmi les processus impliqués dans la perception du corps après des observations de patients atteints de lésions de la moëlle épinière, du tronc cérébral, du

thalamus ou du cortex (Osinski & Devos, 2017). Ils ont décrit le « postural schemata » (position du corps pendant et après le mouvement), le « surface schema » (localisation d'un stimulus cutané sur la surface du corps) et le « visual image » (représentation consciente du corps) (N. P. Holmes & Spence, 2004). Le mot schéma sous-entend un modèle organisé, un standard auquel on peut comparer les changements (Jeannerod, 2010). La représentation du corps serait donc composée d'entités distinctes, séparées dans leur fonction et leur localisation cérébrale.

Ces observations d'une représentation fragmentée du corps ont été confirmées notamment par des observations cliniques et sont largement reprises encore aujourd'hui (Rode et al., 2010). En plus de la terminologie à proprement parler, les principales variations autour de ces schémas décrits résident dans leurs interactions (entre elles et avec d'autres systèmes), leurs variabilités, l'aspect conscient/inconscient et court/long terme.

Dijkerman et de Haan (2007) proposent un modèle dissociant action et perception, avec deux voies neuronales distinctes qui agissent en se coordonnant. Au moins deux représentations définissent la représentation du corps, l'image du corps (body image ; la modalité perceptive, le « quoi ») et le schéma du corps (body schema ; la modalité du « comment » orientée vers l'action). L'image du corps y est décrite comme est une représentation plus stable, interne et le schéma corporel est défini comme une représentation dynamique des différentes parties du corps qui peut être utilisé pour des actions sensorimotrices (Dijkerman & de Haan, 2007).

Frédérique De Vignemont (philosophe) et Victor Pitron (psychiatre) proposent également, à partir de la distinction entre schéma du corps et image du corps, une représentation du corps orientée vers l'action et l'autre orientée vers la perception. Ces deux entités fonctionnellement distinctes ont une construction dépendante de leurs interactions (Pitron et al., 2018; Pitron & De Vignemont, 2017). Dans ce modèle (figure 10), le schéma corporel est construit en premier, à partir de signaux multisensoriels ainsi que de connaissances et d'expertises motrices antérieures (*priors*). Il peut à son tour servir de précédent pour la construction de l'image du corps avec des facteurs affectifs, des attentes sociales et des signaux multisensoriels, en particulier visuels. Les deux entités peuvent être perturbées indépendamment (Pitron et al., 2018).

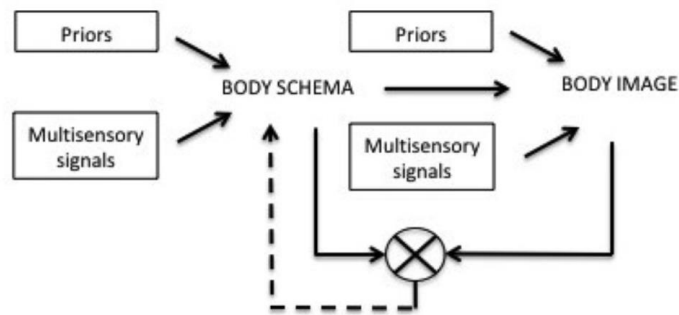


Figure 10 : modèle sériel des interactions entre schéma corporel et image du corps, extrait de Pitron, V., Alsmith, A., & De Vignemont, F. (2018).

Schwoebel et Coslett (2005) décrivent 3 types distincts de représentation du corps : le *schéma corporel*, la *body structural description* (carte topographique définissant les limites du corps et ses relations proches) et l'image du corps (ou *body semantics*) (représentation liée à la sémantique et au langage qui inclut les parties du corps, leurs fonctions et les outils).

Marc Jeannerod y ajoute le « sens d'être soi » où l'image du corps fait partie de la représentation qu'un sujet a de lui-même. Le fait de se sentir auteur de ses actions (agentivité) et de se les attribuer (appartenance) renforce le sens de soi (Jeannerod, 2010).

L'image du corps définie par Martin Lotze (neurologue) et Graham Lorimer Moseley (physiothérapeute), tous les deux neuroscientifiques, est large et englobe plusieurs notions (Lotze & Moseley, 2007). Ils la définissent comme "the way one's body feels to its owner"/ la façon dont le corps est ressenti par son propriétaire. Ce processus labile est conscient, maintenu par des input tactiles, visuels et proprioceptifs et peut être modulé par les facteurs psychosociaux, les croyances ou la mémoire.

Les auteurs s'accordent sur le fait qu'il n'y a pas un seul système de représentation du corps (Pitron & De Vignemont, 2017), qu'il soit divisé en deux ou en trois entités. On peut retenir que la distinction action/perception se retrouve et que les deux termes les plus souvent rencontrés sont donc image du corps/schéma corporel (body image/body schema). Bien qu'ils aient été décrits comme deux voies distinctes, plusieurs auteurs les utilisent de manière indifférenciée dans la littérature spécialisée dans la douleur.

La représentation de notre corps (body representation) est formée par le schéma corporel et l'image du corps (voir ci-après). Elle est également appelée **perception du corps** (body perception) dans la littérature spécialisée dans le SDRC (Halicka, Vittersø, Proulx, et al., 2020;

Lewis et al., 2021). A l'instar des auteurs cités, ces deux termes seront utilisés ici pour faire référence au processus « of how we perceive our body » (Lewis & Schweinhardt, 2012).

La plupart des études s'intéressant à la douleur ou le SDRC agrègent perception du corps et schéma corporel. D'autres vont utiliser préférentiellement le terme image du corps, qui correspondrait à la perception du corps telle qu'elle a été définie plus haut. Les études d'imagerie cérébrales montrent que la représentation du corps implique un vaste réseau neuronal dans les aires des lobes occipitaux, pariétaux, frontaux et temporaux (Di Vita et al., 2016).

Le schéma corporel (Body schema)

Le schéma corporel est l'entité renfermant une représentation « on line » du corps , inconsciente, dynamique , sensorimotrice basée sur les positions relatives du corps qui interagit avec des systèmes moteurs pour générer et guider l'action et la posture (Biran et al., 2022; Filbrich et al., 2023; Schwoebel et al., 2001).

Il implique un sens continu de notre posture et de la position de nos membres (Peelen & Downing, 2007). La mise à jour du schéma corporel dépend largement des informations somatosensorielles (proprioceptives), tactiles et visuelles (Peelen & Downing, 2007; Schulte-Goecking et al., 2020). Il n'est cependant pas simplement composé de la proprioception mais implique la combinaison des informations proprioceptives avec une construction de la structure du corps. Ainsi, nous sommes plus précis dans l'évaluation de l'orientation dans l'espace d'un membre plutôt que dans l'estimation de la mesure angulaire d'une articulation (Graziano & Botvinick, 2002). Dans le phénomène du membre fantôme, le membre concerné ainsi que sa position dans l'espace sont toujours ressentis (Ramachandran & Rogers-Ramachandran, 2000). Ceci implique que la représentation centrale du membre soit maintenue.

Il existerait un schéma corporel originel ; en effet, les enfants avec une aplasie congénitale d'un membre font l'expérience du membre fantôme à la place du membre absent, suggérant l'existence d'une représentation corticale du membre innée et stable (Graziano & Botvinick, 2002; Moayedi et al., 2021). Des cas emblématiques de sujets souffrant d'une atteinte proprioceptive sans atteinte de la sensibilité superficielle ont été décrits (Head et Holmes, 1911). Ces personnes percevaient être touchées, pouvaient l'indiquer sur un dessin mais ne parvenaient pas à venir toucher l'endroit stimulé sur leur propre corps. Ceci suggère que l'atteinte du schéma corporel perturbe l'intégration de la perception du corps.

Les études d'imagerie cérébrales ont montré qu'il existe une voie connectant le thalamus, le cortex somatosensoriel secondaire et le cortex pariétal postérieur correspondant au schéma corporel (Dijkerman et de Haan, 2007). Une revue systématique indique que le schéma corporel activerait plus les aires motrices primaires et l'aire extrastrée du corps (faisant partie du cortex visuel) (Di Vita et al., 2016). Les informations motrices et la reconnaissance des parties du corps seraient fondamentales à la construction du schéma corporel.

Les illusions sensorielles sont un autre moyen d'explorer le schéma corporel. Parmi elles, l'illusion de la main en plastique (*Rubber hand illusion*) est la plus étudiée (Graziano & Botvinick, 2002). Dans cette manipulation multisensorielle, une main du sujet est dissimulée alors qu'une main en plastique est présentée à la place. La main en plastique et le membre sont touchés de manière synchrone, le sujet regardant la main en plastique (voir figure 11).

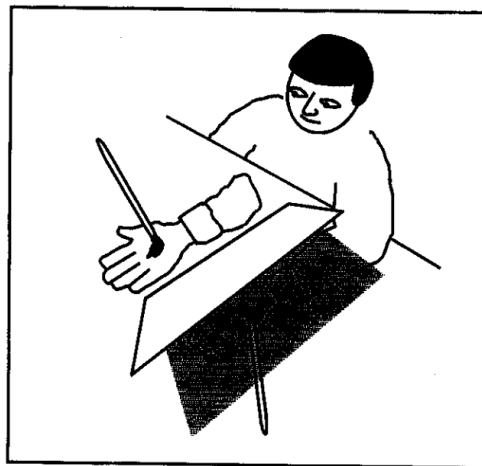


Figure 11 : Illustration de la Rubber Hand Illusion, Tiré de Graziano M, Botvinick M. 2002.

Ceci induit la perception par le sujet que la main en plastique lui appartient (feeling of ownership). Dans cette illusion multisensorielle, la congruence temporelle et spatiale entre la perception visuelle (voir la main en plastique être touchée) et les informations somatosensorielles (sentir sa main être touchée) contribuent significativement au sens de la position et au sentiment d'appartenance du membres (Peelen & Downing, 2007). Ceci se retrouve même avec les informations proprioceptives incongruentes (la position de la main du sujet est différente de celle de la main en plastique). Des études de neuroimagerie (IRMf) montrent l'activation des aires cérébelleuses, pariétales, et du cortex prémoteur (bilatéralement) (Ehrsson et al., 2005).

L'image du corps (body image)

L'image du corps est définie comme un « système de perceptions, parfois conscientes, d'attitudes, de croyances se rapportant à son propre corps » (Gallagher, 1986).

Contrairement au schéma corporel, voie tournée vers l'action, l'image du corps serait le côté perceptif. L'image du corps est considérée comme facilement manipulable par certains auteurs, étant modulée par la douleur, les croyances personnelles, les changements physiques et les facteurs psychosociaux (dépression, anxiété, traumatismes physiques et émotionnels) (Schulte-Goecking et al., 2020).

Elle est composée d'un aspect lexical (nommer les parties du corps, leurs relations entre elles et leur utilisation), d'une carte visuo-spatiale du corps (forme, limites) ainsi qu'une représentation de la superficie du corps (localisation des stimuli) (Medina & Coslett, 2010; Schwoebel & Coslett, 2005).

Le sentiment d'appartenance est considéré comme faisant partie de l'image du corps (Brun et al., 2019)(Longo et al 2009). L'image du corps est également au centre de troubles psychiatriques comme la dysmorphobolie (body dysmorphic disorder) (Sündermann et al., 2020).

Sur le plan neurophysiologique, la construction de l'image du corps semble impliquer principalement le cortex somatosensoriel secondaire (SII), le cortex pariétal antérieur et l'insula (Dijkerman et de Haan, 2007). Di Vita et al (2016) rapportent que cette représentation du corps non orientée vers l'action active également le cortex somatosensoriel primaire et le gyrus supramarginal. Les informations sensorielles et l'intégration d'informations du référentiel égocentré seraient essentielles à la construction de cette partie de la représentation du corps (Di Vita et al., 2016). Le cortex prémoteur serait un centre de convergence des informations visuelles de l'espace autour du corps et tactiles pour guider l'action (Graziano & Botvinick, 2002).

L'activité du cortex insulaire serait principalement en lien avec l'aspect émotionnel de l'image du corps, l'activité du cortex pariétal se rapporterait avec l'aspect de la forme du corps (Dijkerman et de Haan, 2007).

La perception du corps est une entité complexe, changeante, influencée par les informations somatosensorielles, proprioceptives, motrices ainsi qu'émotionnelles. Le schéma corporel et l'image du corps (formant le substrat de la perception du corps) interagissent continuellement.

Les définitions et les concepts ne sont pas consensuels voire sont parfois contradictoires. Dans ce travail, les **troubles de la perception du corps** sont définis comme à la fois des altérations de la représentation sensorimotrice (changements de la perception de la forme et de la taille du membre, de la représentation proprioceptive ou posturale) et de la perception consciente du membre (aversion de l'apparence, sensation de non-appartenance) (Lewis et al., 2021).

LES TROUBLES DE LA PERCEPTION DU CORPS DANS LE SDRC

Maintenant reconnu comme un aspect typique de la symptomatologie du SDRC, les troubles de la perception du corps dans le SDRC ont été décrits initialement par Galer et al (1995).

La série de cas uniques décrit les symptômes de 11 patients présentant de sévères troubles moteurs et d'un trouble qualifié de « pseudo-négligence neurologique » (B. Galer et al., 1995). Des signes de « négligence motrice » tels que le délai à l'initiation du mouvement, la lenteur ou les amplitudes réduites étaient retrouvés à l'examen. Les patients rapportaient des sensations que leur membre était « déconnecté » de leur conscience, se référant à leur membre comme étranger (« il » ou « elle » ou « ça », « plus une partie de moi »), avaient le besoin de se concentrer pour pouvoir bouger leur main. Les auteurs, en précisant bien que les troubles étaient différents de ceux observés en neurologie centrale comme dans l'hémiplégie après Accident Vasculaire Cérébral, ont proposé qu'ils aient une origine supraspinale. Ils introduisent ainsi le « syndrome de pseudo-négligence » (**neglect-like syndrome**). On peut noter que les auteurs ont rapporté des difficultés à publier pendant plusieurs années ce premier article à cause de l'incrédulité des relecteurs (B. S. Galer et al., 2013).

En 1999, Galer et Jensen proposent de déterminer la fréquence et la nature des symptômes avec une enquête par questionnaire envoyé par courrier aux membres de la RSD Association (association de patients aux Etats-Unis). Ils obtiennent 224 réponses soit 10% de réponses. Le questionnaire est le « Neurobehavioral Questionnaire » (figure 12). Elaboré par Galer grâce à son expérience clinique, le questionnaire comporte 5 déclarations, auxquelles le patient doit répondre si elles sont vraies.

IV. CHECK ALL of the following statements that are TRUE:

1. ___If I don't focus my attention on my painful limb it would lie still, like dead weight.
2. ___My painful limb feels as though it is *not* part of the rest of my body.
3. ___I need to focus all of my attention on my painful limb to make it move the way I want it to.
4. ___My painful limb sometimes moves involuntarily, without my control.
5. ___My painful limb feels dead to me.

Traduction personnelle

1. Si je ne me concentre pas sur mon membre douloureux, il reste sans bouger, comme un poids mort
2. Je ressens mon membre douloureux comme s'il ne faisait pas partie de mon corps
3. J'ai besoin de concentrer mon attention sur mon membre douloureux pour le bouger comme je le souhaite
4. Mon membre douloureux bouge parfois involontairement, sans que je le contrôle
5. Mon membre douloureux est comme mort pour moi

Figure 12 : Neurobehavioral Questionnaire et sa traduction en français.,
extrait de *Galer, B. S., & Jensen, M. (1999)*.

Les auteurs considèrent que le syndrome de pseudo-négligence est composé de 3 dimensions : des symptômes de négligence motrice (évalués par les questions 1 et 3), des symptômes de négligence cognitive (évalués par les questions 2 et 5) et la présence de mouvements involontaires (question 4).

Les patients interrogés rapportent de la peur, de la honte et décrivent ces symptômes comme bizarres, inhabituels et difficiles à décrire. Ils rapportent que les professionnels de santé écartaient leurs expériences, les emmenant à ne plus en parler et à se remettre en question. Avec cette enquête, Galer et Jensen ont trouvé que 84% des personnes ayant répondu rapportaient au moins un symptôme de pseudo-négligence, argumentant pour leur prise en compte par les professionnels de santé et leur évaluation (1999). En 2000, ils rapportent que 64% des patients (31) interrogés sur leurs symptômes et l'évolution de ces symptômes rapportent des sensations de membre « déconnecté » parmi les symptômes classiques comme la douleur ou le changement de température (B. S. Galer et al., 2000).

Depuis ces premiers articles, l'intérêt pour ce sujet n'a fait que grandir.

Schwoebel et al. (2001), évaluent le schéma corporel de 13 participants atteints de SDRC par une tâche de latéralité (LLRT) où des images de main sont présentées dans quatre orientations différentes (figure 13). Ils retrouvent des temps de réaction plus longs dans la condition expérimentale où la main est présentée avec une rotation de 180° quand il s'agit de la main atteinte, contrairement aux contrôles sains (figure 14).

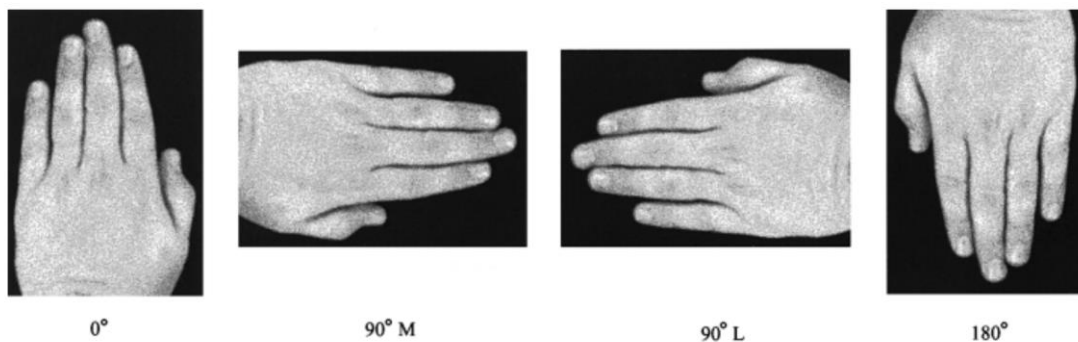


Figure 13 : Exemple d'images de mains gauches utilisés lors d'une tâche de latéralité, paume vers le bas, avec quatre orientations (0° ,90° médial, 90°latéral et 180°), *extrait de Schwobel, et al. (2001)*.

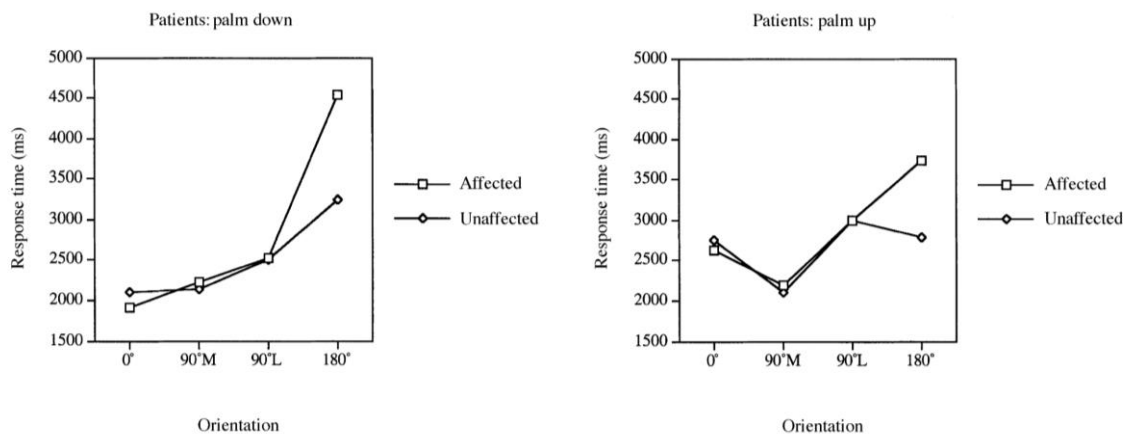


Figure 14 : Moyenne des réponses pour la tâche de latéralité pour le membre atteint et non-atteint de patients atteints de SDRC pour les quatre orientations (vues paume vers le bas et paume vers le haut) (*Schwobel, et al. (2001)*).

Ces données mettent en lumière un schéma corporel perturbé et une influence de la douleur. S'ils citent les travaux de Galer, ils ne font pas de lien avec le syndrome de pseudo-négligence décrit par ces derniers, notant les différences méthodologiques (observation de mouvements chez Galer, imagerie motrice implicite dans leur étude). De la même manière, Moseley (2004c) évalue également la tâche de latéralité chez 18 participants atteints de SDRC et propose une hypothèse d'effet de pseudo-négligence due à la non-utilisation ou à la réponse protectrice due à la douleur et à son anticipation. L'année suivante, il emploie le terme de « perturbation

de l'image du corps » en faisant référence au fait que les patients évalués percevaient leur membre comme plus large qu'il ne l'était en réalité (G. L. Moseley, 2005). Förderreuther et al. (2004) explorent plus en avant les symptômes de négligence et de perception du corps avec plusieurs mesures de perception du corps, de sensibilité et d'espace (le sentiment d'appartenance, le test de bissection de ligne, l'extinction sensorielle et l'identification de doigts). 54% des participants ont rapporté trouver leur main « étrangère » ou « bizarre » ou « la sensation que quelqu'un a cousu la main d'une autre personne » etc. Ces symptômes étaient plus présents chez les patients ayant des symptômes depuis plus longtemps. Ils sont les premiers à proposer l'emploi du terme de « perturbation de la perception du corps » (**body perception disturbances**) à la place de « syndrome de pseudo-négligence » proposé par Galer et al.(1995), les arguments en faveur d'une négligence centrale ne soutenant pas l'hypothèse. En effet, les test de bissection de ligne et le fait que les patients atteints de SDRC soient conscients de leur sensation de non-appartenance ne correspond pas à ce qui est observé en neurologie centrale(Förderreuther et al., 2004) . Ils proposent également de relier ces troubles à une dysfonction du schéma corporel qui pourrait être en lien avec une altération de la représentation corticale du membre atteint.

Frettlöh et al. (2006) essaient de déterminer si ces symptômes sont spécifiques au SDRC en évaluant 123 patients atteints de SDRC (avec le Neurobehavioral Questionnaire de Galer, adapté avec une échelle de Likert en 6 points) et un groupe contrôle composé de 117 participants atteints de douleurs des membres d'une autre origine (arthrose, lésion nerveuse périphérique, polyneuropathie, bursite ou enthésopathie). Les participants atteints de SDRC rapportent plus de symptômes de troubles de la perception du corps (1/3 sont d'accord avec tous les items soit deux fois plus que le groupe contrôle et 90% sont d'accord avec au moins un item). Ceci confirme la présence fréquente de troubles de la perception du corps dans le SDRC, plus intensément et fréquemment que dans une population douloureuse non-SDRC. Comme Förderreuther avant eux, Frettlöh et al (2006) argumentent pour l'emploi du terme « troubles de la perception du corps » et pour l'intégration de ces symptômes comme manifestation clinique typique du SDRC.

Lewis et al. (2007) ont cherché à caractériser ces troubles en recueillant l'expérience des patients dans des entretiens. Plusieurs thèmes émergent : les sentiments hostiles (de la frustration au dégoût, à la répulsion voire à la haine), la dissociation (sentiment de détachement jusqu'à l'envie de se séparer du membre avec la sensation qu'il est détaché du corps), les différences entre ce qui est apparent et ce qui est ressenti (discordances entre la température, la taille, la sensation de pression), la conscience de la position du membre et l'attention portée au membre. Quand il leur est demandé de fermer les yeux et de décrire une image mentale de leur membre, les sujets décrivent des distorsions avec des formes, tailles différentes, des parties manquantes,

A partir de ces données qualitatives, les auteurs ont élaboré l'échelle de Bath des troubles de la perception du corps dans le SDRC (Bath CRPS BPD Scale) (Lewis & McCabe, 2010) afin de les quantifier.

Depuis cette époque, les troubles de la perception du corps ont pris une part plus importante et ne sont plus remis en cause en tant que symptôme typique du SDRC. A l'heure actuelle, ils font partie des recommandations (Goebel, 2018) et standards européens (Goebel et al., 2019) : les patients doivent recevoir des informations sur les signes et symptômes, y compris les troubles de la perception du corps (standard 8).

Standard 8: Patients, and where appropriate their relatives and carers must receive adequate information soon after diagnosis on (a) CRPS, (b) its causation (including the limits of current scientific knowledge), (c) its natural course, (d) signs and symptoms, including body perception abnormalities, (e) typical outcomes and (f) treatment options. Provision of information is by all therapeutic disciplines and must be repeated as appropriate.

La littérature spécialisée dans la douleur s'est tournée vers la caractérisation des troubles, leurs corrélations avec d'autres symptômes ou données cliniques et leur traitement. La physiopathologie de ces troubles occupe également un pan de recherche.

Caractérisation des troubles de la perception du corps dans le SDRC

Les symptômes liés au SDRC sont présents habituellement dans les premiers jours voire les premières semaines (Harnik et al., 2023). Les troubles de la perception du corps (TPC) semblent être également présents dès les premiers jours (Lewis & Schweinhardt, 2012). Ceci a été peu exploré et reste à préciser. Les TPC semblent donc être un symptôme fréquent dans le SDRC (Frettlöh et al., 2006; B. S. Galer et al., 2000). Les TPC, évalués par le questionnaire de Galer, sont aussi retrouvés dans d'autres pathologies douloureuses chroniques (douleurs de membre d'origine arthrosique ou neuropathique et migraines), de façon moins intense et moins fréquente (Frettlöh et al., 2006; Michal et al., 2016).

Leur description se base sur les données de la recherche qualitative. Les auteurs utilisent la définition des symptômes décrits par Lewis et al. ou la division entre symptômes moteurs et cognitifs de Galer et al. En revanche, ils rapportent ces symptômes de manière unanime.

Les TPC ont été corrélés à l'intensité de la douleur dans le SDRC ((Kolb et al., 2012; Lewis & Schweinhardt, 2012; Schulte-Goecking et al., 2020; Vittersø et al., 2021), à la dépression, à l'anxiété, au stress, à la qualité de vie (Schulte-Goecking et al., 2020), à l'invalidité et à la peur du mouvement (Kolb et al., 2012; Vittersø et al., 2021). Ils n'ont pas été corrélés avec la durée des symptômes (Kolb et al., 2012; Schulte-Goecking et al., 2020)

L'item 7 de l'échelle de Bath demande au sujet de produire une image mentale (ou visualisation) de son membre (« Les yeux fermés, décrivez une image mentale des parties de votre corps, affectées et non affectées (dessin réalisé par l'évaluateur lors de la description du patient puis vérifié par le patient). » voir annexe 5). Ces visualisations (imagerie motrice explicite) sont considérées comme une façon d'accéder à la représentation perturbée du membre (Tajadura-Jiménez et al., 2017). Les dessins peuvent être accompagnés de descriptifs détaillés des perceptions visuelles et des sensations du membre atteint. Voir figure 9 pour des exemples de dessins et de leurs descriptions.

Il est intéressant de noter que les dessins montrent des perturbations qui ne se limitent pas à la localisation au membre atteint et qui peuvent affecter d'autres sens sans trouble organique avéré (ex : la vision « je ne vois pas bien avec mon œil gauche »).

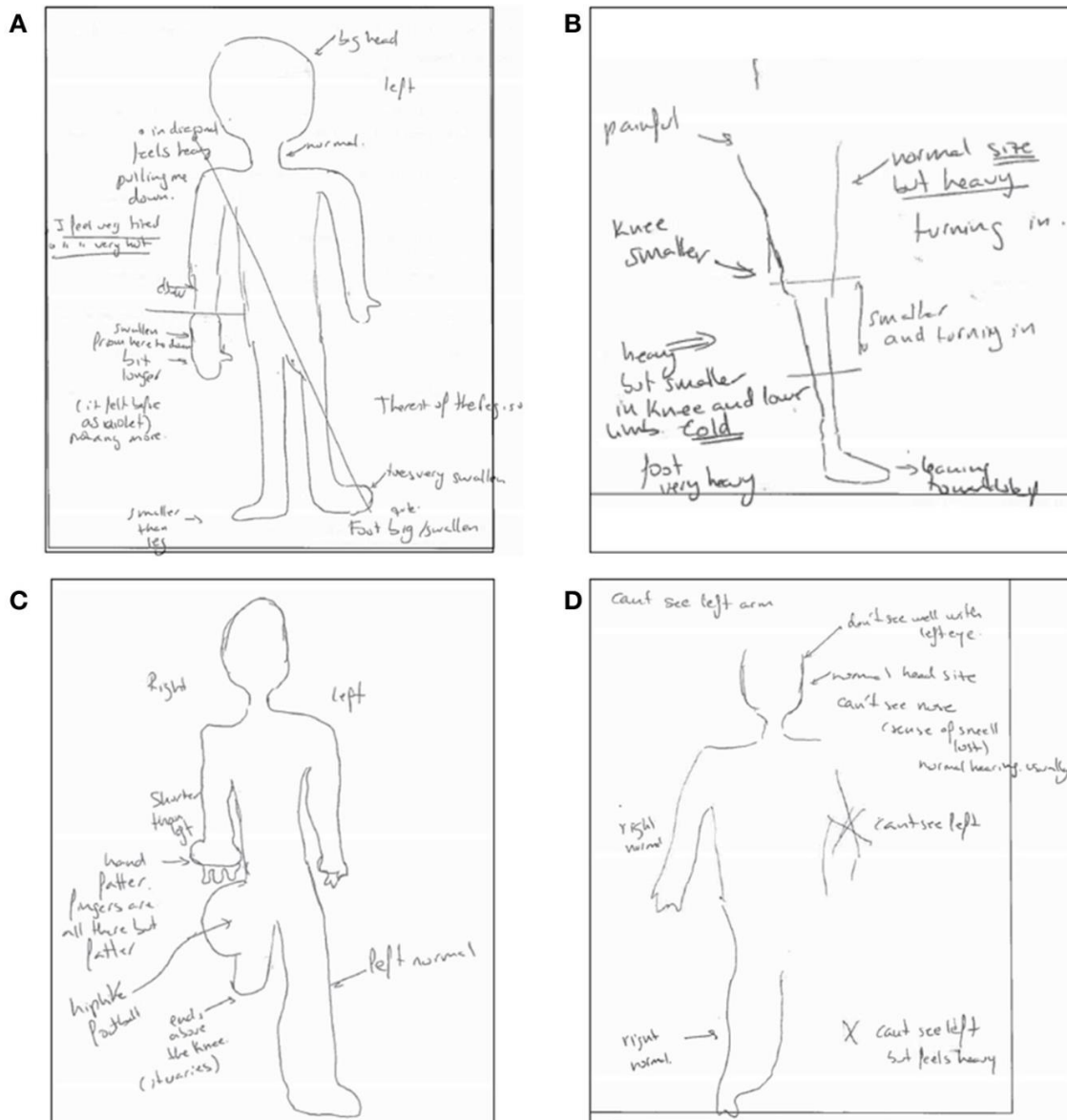


Figure 15 : exemples de dessins et des descriptions verbales de sujets atteints de SDRC visualisant leur corps les yeux fermés. A) « le pied est gros et gonflé, l’orteil est très gonflé, le reste de la jambe est ok » B) « douloureux » « lourd mais plus petit du genou et de la jambe, tourne vers l’intérieur et froid » « le pied est de taille normale mais lourd » C) « plus petit qu’à gauche, main plus grosse, les doigts sont là mais plus gros », « finie au niveau du genou » D) « je ne peux pas voir le bras gauche », « je ne vois pas bien avec mon œil gauche », « je ne vois pas la jambe gauche mais je la sens lourde ». *extrait de Tajadura-Jiménez (2017)*

Parmi les perturbations relevées, les patients atteints de SDRC tendent à surestimer la taille de leur main (G. L. Moseley, 2005; Peltz et al., 2011). Cette surestimation est corrélée avec la durée des symptômes, le score de négligence (Neurobehavioral questionnaire adapté) et la diminution de l’acuité tactile (augmentation du seuil de TPD) (Peltz et al., 2011).

Parmi les troubles associés aux troubles de la perception du corps, au sens ici de schéma corporel, on retrouve les altérations de la **proprioception** (sens de la position et du mouvement). Les patients avec un SDRC ont des altérations du sens de la position des articulations (statesthésie). Ils ont tendance à surestimer la position angulaire de leur poignet atteint et non-atteint dans des mouvements passifs et actifs, les mouvements passifs engendrant le plus d'erreurs. Ces altérations ont été associées à la sévérité des déficits moteurs (Bank et al., 2013; Brun et al., 2019). Ces résultats sont en accord avec ceux d'une étude précédente où les sujets atteints de SDRC étaient significativement moins précis bilatéralement par rapport à des sujets contrôles sains lors d'exercices où ils devaient positionner leurs membres supérieurs suivant des positions horizontales prédéterminées (position des aiguilles sur une horloge). Ces sujets décrivaient des images mentales déformées de leur membre (Lewis et al., 2010).

Brun et al. (2019) ont exploré la **kinesthésie** (sens du mouvement) chez 13 participants atteints de SDRC, comparés à des sujets sains. Ils ont identifié une altération du sens de la position et du mouvement chez les participants atteints de SDRC comparé au groupe contrôle (plus d'erreurs, vitesse plus lente). Ces altérations étaient associées entre elles mais pas avec les troubles de la perception du corps, évalués par l'échelle de Bath.

Le **Test de reconnaissance de latéralité** (Limb Laterality Recognition test **LLRT**) est une tâche d'**imagerie motrice implicite**, typiquement utilisée comme mesure du schéma du corps (Filbrich et al., 2023; Halicka, Vittersø, Proulx, et al., 2020).

Durant ce test, l'évaluateur présente des images du membre concerné (main ou pied, voir figure 13 plus haut) au sujet qui doit déterminer, le plus rapidement possible, s'il s'agit d'un membre gauche ou droit (Parsons, 1987b). Pour ce faire, le sujet compare l'image présentée à la représentation mentale de son membre et l'oriente de façon biomécaniquement plausible pour la faire correspondre (Parsons, 1994). Les images présentent des membres dans différentes positions, à différents angles de rotation. Les mesures de performance enregistrées sont les temps de réaction (RT) et le taux de bonnes réponses. Des logiciels faits-maison, des banques d'images numériques ou papier ou des applications mobiles peuvent être utilisées (le groupe NOi a développé l'application Recognize™, utilisée en recherche et en clinique).

Dans le SDRC, la **LLRT** semble présenter des déficits: une augmentation des RT pour la main atteinte par rapport à des volontaires sains est retrouvée (Bultitude et al., 2017; G. L. Moseley, 2004c; Reinersmann et al., 2010; Schwoebel et al., 2001; Wittayer et al., 2018). Il n'est pas retrouvé d'effet de latéralité chez les sujets sains. Cette observation suggère une difficulté des patients atteints de SDRC à manipuler la représentation corticale (*cortical representation*) de leur membre atteint (Filbrich et al., 2023; G. L. Moseley, 2004c).

Cependant, les données ne sont pas aussi claires : certaines études ont montré une augmentation des temps de réaction en bilatéral (Filbrich et al., 2023; Reinersmann et al., 2010; Wittayer et al., 2018) ou pas de différence avec des sujets sains (Breimhorst et al., 2018; Reinersmann et al., 2012). Une hypothèse explicative à cette divergence est notamment la prise en compte de la contrainte biomécanique (*implicit awkwardness of stimulus orientation* (Parsons, 1987b, 1994)) ou l'utilisation d'une stratégie d'imagerie visuelle à la place d'une imagerie motrice. L'imagerie visuelle (visual imagery) est une forme différente d'imagerie où la partie du corps est traitée comme un objet et ne stimule pas une action motrice (Filbrich et al., 2023). Les auteurs proposent l'hypothèse que les patients puissent avoir recours à l'imagerie visuelle pour compenser leurs difficultés à recruter la représentation de leur membre atteint ou bien pour éviter la douleur. L'évaluation des troubles de la perception du corps par l'échelle de Bath est envisagée pour explorer cette piste. De même, un mouvement qui s'écarte de la ligne médiale du corps est généralement jugé plus lent qu'un mouvement qui s'en rapproche (par exemple, une rotation latérale sera plus lente qu'une rotation médiale). Cet effet, appelé « effet MOLA » (Medial-Over-Lateral-Advantage effect) (Filbrich et al., 2023) peut également introduire un biais dans l'analyse des RT. Ainsi, les images utilisées ne présentaient pas de fortes rotations, ce qui facilite l'imagerie visuelle et réduit la possibilité d'avoir recours à de l'imagerie motrice (Breimhorst et al., 2018; Reinersmann et al., 2012). De plus, les RT des sujets sains du groupe contrôle étaient plus élevés (effet de l'âge ?) ce qui ne permettait pas à l'analyse statistique de fournir un résultat significatif alors que les RT des sujets atteints de SDRC étaient comparables à l'étude précédente qui concluait avec des résultats positifs (Reinersmann et al., 2010).

Explorant l'influence de l'espace, Reid et al. (2016) ont montré des RT plus grands quand les images étaient présentées du côté non-atteint par rapport à l'autre côté. Ils ne retrouvent pas cette différence quand les sujets ont évalué l'orientation de lettres.

Imagerie motrice explicite

L'imagerie motrice explicite ou mouvements imaginés consiste à imaginer un mouvement sans le réaliser. Elle peut prendre différentes formes : demander au sujet de visualiser son membre puis de bouger cette image mentale, demander au sujet de reproduire les positions d'une image en visualisant l'image de son membre ou demander au sujet de bouger l'image mentale de son membre suivant des séquences motrices prédéfinies (Barde-Cabusson & Osinski, 2017).

Le temps de réalisation du mouvement imaginé est un indicateur de la bonne réalisation de l'imagerie motrice : le mouvement imaginé et son pendant exécuté doivent prendre le même

temps (Decety & Jeannerod, 1995). Ceci ne peut ne plus être respecté si le mouvement se complexifie ou s'il existe une altération du schéma corporel.

Le point de vue de l'imagerie peut également influencer les performances du test. L'imagerie est possible à la première personne (« imaginez que la main que vous voyez est la vôtre ») ou à la troisième personne (la main imaginée est celle d'une autre personne). Le point de vue à la troisième personne augmente le RT (*3) lorsque les sujets ont les mains posées devant eux et à l'inverse, améliore les RT quand les sujets ont les mains dans le dos chez des sujets sains (Sirigu & Duhamel, 2001).

L'imagerie motrice explicite est considérée comme un accès conscient à la préparation motrice (Decety, 1996). Les études d'imagerie cérébrale montrent qu'elle recrute les mêmes zones cérébrales que celles activées lors de la réalisation d'un mouvement, avec une plus faible intensité (Guillot et al., 2009; Guillot & Collet, 2005). D'autres auteurs nuancent ce propos en parlant de « réseaux neuronaux distincts qui se superposent » (Raffin et al., 2012). Par exemple, M1 (cortex moteur primaire) est peu ou pas activé durant l'imagerie motrice explicite par rapport à au mouvement exécuté.

La performance mesurée dans cette tâche peut être la capacité du sujet à la réaliser. Cela peut se mesurer par auto-questionnaires (exemple : le Kinaesthetic and Visual Imagery Questionnaire) (Gäumann et al., 2021) .

Dans le SDRC, une étude de cas unique (G. L. Moseley, 2004b) et une étude contrôlée (G. L. Moseley, Zalucki, et al., 2008)) rapportent une augmentation transitoire de la douleur et de l'œdème de la main atteinte par un SDRC après une tâche d'imagerie motrice explicite. Lors de cette tâche, des photos de mains dans différentes positions sont présentées aux patients qui devaient imaginer placer leur membre atteint dans la même position.

Modifications de l'apparence par les illusions corporelles

Il existe des preuves reliant l'aspect du membre sur la douleur et les troubles de la perception du corps. Dans une étude de 2018, les participants atteints de SDRC effectuaient des séries de mouvements en voyant la taille de leur main modifiée (en regardant leur membre à travers un dispositif oculaire qui ne modifie pas ou augmente ou réduit la taille de la main). Dans la condition où la main est plus petite, les participants rapportaient une réduction de la douleur et du gonflement en regardant leur main pendant les mouvements. A l'inverse, certains participants n'ont pas pu terminer la séquence de mouvements dans la condition du membre grossi à cause de la douleur provoquée (G. L. Moseley, Parsons, et al., 2008).

Lewis 2021(Lewis et al., 2021) ont réunis 45 sujets avec SDRC (membre supérieur, SDRC réfractaire) et ont étudié les effets de la modification de l'apparence de la main atteinte en réalité virtuelle sur la douleur et les TPC. Une vidéo de la main atteinte est projetée de

façon à ce qu'elle apparaisse dans la même position que la main réelle. L'image est modifiée pour correspondre à l'apparence désirée décrite spécifiquement par le participant (longueur des doigts, taille de la main, couleur,...) (figure 16). Après une exposition brève (1 minute répétée 5 fois sur une période d'un mois), ils ont montré une réduction des TPC et de la douleur. Les effets étaient maintenus sur le moyen terme : réduction de 1.2 points sur une échelle numérique de 0 à 10 évaluée 2 semaines après l'intervention. Les auteurs ne relèvent pas d'effet sur le sentiment d'appartenance. Les changements de TPC ne se maintiennent pas dans le temps et l'intensité de la douleur, bien que significative, n'atteint pas le seuil de pertinence clinique.

Cependant, la rapidité du changement, la facilité et la spécificité des changements désirés de l'apparence de leurs mains décrites par les participants ouvrent des perspectives en clinique et en recherche.

Ceci permettait, rapidement, de normaliser les troubles de la perception du corps et de réduire la douleur à court terme

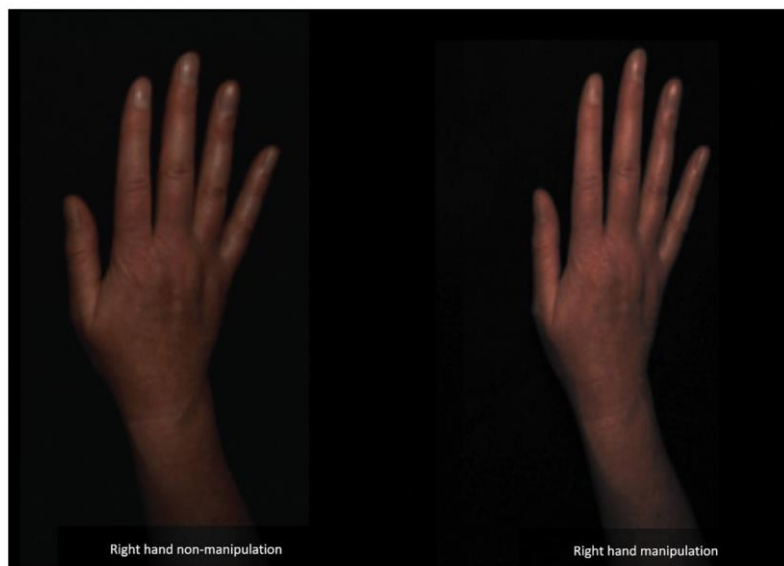


Figure 16 : Exemple de modification de l'aspect de la main atteinte, *extrait de Lewis, J. S., (2021).*

Troubles de la perception du corps dans l'espace

Des données, souvent contradictoires, indiquent une perturbation de la perception spatiale des personnes atteintes de SDR. Ceci peut impliquer l'espace personnel (espace occupé par le corps), péri personnel (espace immédiat autour du corps permettant la manipulation

d'objets) ou extrapersonnel (espace dans lequel les objets sont atteints par des mouvements) (Legrain et al., 2012).

Le test de bissection de ligne évalue la représentation de l'espace péripersonnel (l'espace dans lequel nous pouvons agir directement avec notre corps) (Osinski & Devos, 2017). Il existe plusieurs variantes de ce test (demander au sujet de pointer le milieu de son corps ou de pointer le milieu d'un objet) et plusieurs conditions expérimentales (milieu sombre).

Le test **Visual Subjective Body Midline** est un test où le sujet dirige un point rouge jusqu'au milieu du corps sur un écran placé en face de lui. Les résultats de différentes études retrouvent le milieu décalé vers le côté atteint (Sumitani et al., 2007), pas décalé (Kolb et al., 2012) ou décalé vers la gauche (Reinersmann et al., 2012).

Le **Visual Straight Ahead judgments** (VSA) demande au participant d'indiquer quand une cible ou un objet passe un point au milieu de son corps ; ce test, réalisé dans la pénombre, est censé refléter des changements dans la représentation de l'espace péripersonnel et du milieu du corps (Vittersø et al., 2021). Les patients avec SDRC ont montré avoir un biais côté atteint pour la plupart des études (Sumitani et al., 2007), mais certaines ont montré un biais vers le côté gauche (Reinersmann et al., 2012) ou pas de biais (Wittayer et al., 2018).

Le **Manual straight ahead** (MSA) est un test où le sujet doit pointer directement devant lui le milieu de son corps, sans retour visuel de sa main. Cette tâche, en milieu sombre, est censée refléter le référentiel égocentrique de représentation de l'espace ainsi que la proprioception du membre. Vittersø et al. (2021) n'ont pas trouvé d'argument en faveur d'un biais lors du MSA ou de VSA chez des participants atteints de SDRC par rapport à des contrôles. Verfaillie et al. (2021) ont montré que les patients atteints de SDRC faisaient plus d'erreurs par rapport à un groupe contrôle sain, sans déviation significative.

Troubles de la sensibilité

Les tests des fonctions de la sensibilité évaluent la représentation de la superficie du corps. Les seuils de détection des stimuli (sensibilité tactile) ou d'acuité tactile sont des tests standardisés, notamment dans le cadre des Quantitative Sensory Testing (QST).

Le test de discrimination des deux points (Two-point discrimination test, TPD) permet d'évaluer l'acuité tactile (figure 17). Il s'agit d'appliquer deux stimuli tactiles simultanément sur la peau du sujet et de mesurer la distance à laquelle il détecte la présence des deux stimuli (seuil de détection) (Osinski & Devos, 2017).



Figure 17 : exemple de matériel pour le test de discrimination des deux points, *extrait de (Coggins et al., 2023).*

L'acuité tactile est significativement diminuée chez les sujets atteints de SDRC par rapport à des sujets sains (Lewis & Schweinhardt, 2012; McCabe et al., 2003, 2003; L. G. Moseley, 2008; Peltz et al., 2011; Pleger et al., 2005).

Les déficits d'acuité tactile ont été corrélés aux TPC (évalués par l'échelle de Bath) (Lewis & Schweinhardt, 2012; Mibu et al., 2020) et à l'intensité de la douleur (Pleger et al., 2005) bien que ces résultats ne soient pas retrouvés dans d'autres études (Lewis & Schweinhardt, 2012). Moseley et al. (2009) retrouvent des seuils de détection de la vibration plus grands côté atteint (test réalisé l'absence de la vision du membre) (10 patients; pas de contrôles).

Troubles de la sensibilité définis spatialement

La tâche de jugement d'ordre (Temporal Order Judgment Task (**TOJ**)) évalue la représentation de l'espace plus ou moins proche du corps avec des stimuli extracorporels (auditifs ou visuels) ou corporels (toucher, vibration, nociception). Les deux stimuli sont placés chacun dans un hémichamp et les participants doivent indiquer leur ordre d'apparition ou bien quand ils apparaissent ensemble (Point of Subjective Simultaneity) (Osinski & Devos, 2017) (figure 18).

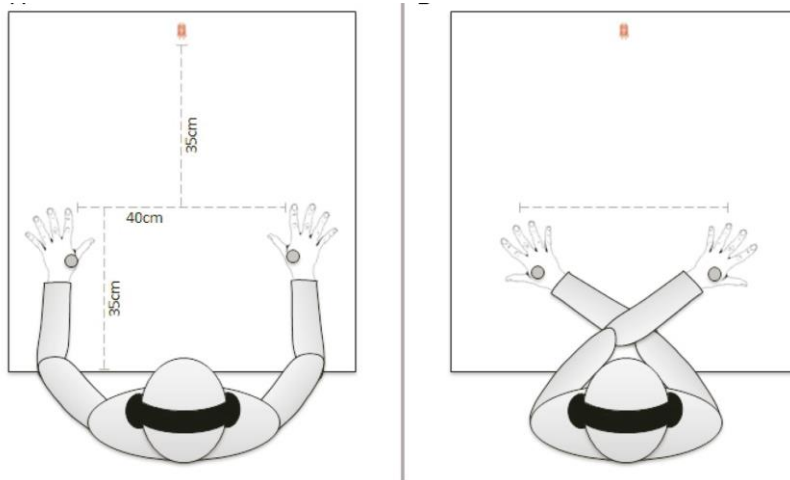


Figure 18 : dispositif de tâche de jugement d'ordre avec stimulation vibrotactile dans les conditions mains décroisées et mains croisées, (De Paepe et al., 2020)

Mains décroisées, les patients atteints de SDRC priorisent le stimulus côté non-affecté. En effet, pour que les stimuli soient perçus en même temps, il faut que celui côté affecté soit 25ms plus tôt. Les mains croisées, on observe l'effet inverse : les participants priorisent le membre affecté (le stimulus membre non affecté doit être 18ms plus tôt pour qu'ils soient perçus comme simultanés)(De Paepe et al., 2020; G. L. Moseley et al., 2009). Reid et al. (2016) retrouvent également un biais vers le côté pour les stimuli tactiles mais pas pour les stimuli auditifs. Le déficit d'intégration des informations tactiles semble donc être influencé par l'espace dans lequel le membre atteint réside plutôt que par le membre en lui-même. Des effets sur la température du membre ont également été relevés avec des baisses de la température dans l'espace côté atteint. Ces résultats sont retrouvés dans la population saine et durant la *rubber hand illusion* (G. L. Moseley, Zalucki, et al., 2008). L'étude n'a pas montré de lien avec les troubles de la perception du corps évalués avec questionnaire de Galer.

Ces résultats suggèrent que les changements ne sont pas seulement sensori-moteurs mais impliquent l'espace personnel également.

Visual Temporal Order Judgement task : dans cette tâche, les stimuli sont visuels et les patients doivent déterminer l'ordre des stimuli. Les patients atteints de SDRC présentaient un biais visuo-spatial vers le côté non-affecté seulement pour le stimulus visuel (c'est-à dire que le stimulus côté affecté devait apparaître plus tôt pour être perçu comme simultané) Ceci montrant une intégration plus lente côté atteint (Bultitude et al., 2017; Filbrich et al., 2017). On peut noter que Filbrich et al. (2017) ont trouvé un biais d'attention visuospatial vers le côté non-affecté seulement si le stimulus était présenté proche du membre affecté, au sein de l'espace péripersonnel. Bultitude et al. (2017) ont trouvé que l'ampleur du biais était prédit par les troubles de la perception du corps mesurés par l'échelle de Bath.

En revanche, plusieurs études ne retrouvent pas de biais visuo-spatial (Christophe et al., 2016; De Paepe et al., 2020; Halicka, Vittersø, McCullough, et al., 2020).

Une hypothèse proposée à ces différences est l'implication des troubles de la représentation du corps dans la présence de biais.

Reid et al. (2016) ont trouvé que les participants atteints de SDRC présentaient un biais d'attention visuospatial vers le côté non-atteint seulement quand des informations corporelles étaient impliquées (stimulation tactile vs auditive ; images de parties du corps ou d'objets). En effet, les RT dans la LLRT étaient augmentées quand les images étaient présentées dans l'espace du membre atteint et les RT étaient normales quand les images étaient présentées dans l'espace du côté non-atteint. Les auteurs proposent l'hypothèse que les patients atteints de SDRC ne présentent pas de déficit d'intégration spatiale en tant que tel mais qu'ils présentent un déficit d'intégration spatiale en rapport avec la représentation du corps. Ils définissent ainsi la négligence somatospatiale (« somatospatial inattention or neglect »).

Afin d'augmenter la possibilité d'engager des processus impliqués dans la représentation du corps, Ten Brink et al. (2021) proposent de s'assurer que : les stimuli soient administrés près du membre atteint (ou dans l'espace péri-personnel), d'utiliser des stimuli utilisant des parties du corps (plutôt que des stimuli neutres comme des objets) et de s'assurer que les tâches demandent d'utiliser l'imagerie motrice (et pas une stratégie alternative comme l'imagerie visuelle) avec des postures suffisamment complexes. Ces auteurs ne retrouvent pas de biais d'attention visuo-spatiale vers le côté non-atteint pour les atteintes du membre supérieur. Au sein du groupe de patients atteints de SDRC au membre inférieur, ils trouvent que les sujets ayant des troubles de la perception du corps plus importants (mesurés avec l'échelle de Bath) présentaient un biais visuospatial vers le côté non atteint plus important (mesuré par la tâche de jugement temporel), seulement pour la condition dans l'espace péri-personnel.

Malgré ces résultats incohérents, la présence de biais visuospatial chez les personnes atteintes de SDRC, corrélé à l'intensité de la douleur et/ou aux troubles de la perception du corps reste une hypothèse à tester. Ten Brink et al. (2021) suggèrent que ces manifestations soient des cas rares.

Troubles moteurs

Une analyse cinématique de la tâche de *finger tapping* a évalué les caractéristiques motrices du mouvement (mouvements d'opposition pouce/index le plus rapidement et le plus largement possible pendant 15 secondes), dont l'amplitude, la vitesse, la régularité du mouvement. Les mouvements étaient effectués devant le corps, à peu près « au milieu » (figure 19). Les performances (vitesse, fréquence) sont largement altérées chez les personnes atteintes de

SDRC comparés aux groupes contrôles du côté atteint (volontaires sains et personnes atteintes de la maladie de Parkinson) et du côté non atteint (par rapport au groupe contrôle sain) (Schilder et al., 2012). Sans trouver de relation entre la douleur et les paramètres cinétiques, les auteurs proposent que des changements des paramètres sensoriels et de l'intégration sensori-motrice engageant des perturbations de la perception du corps soient impliqués.

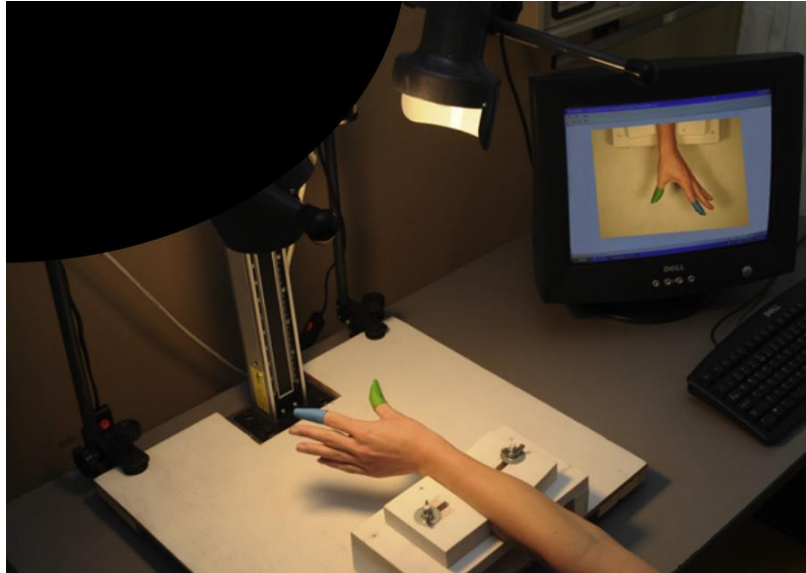


Figure 19 : montage expérimental de la tâche de finger tapping, (Schilder et al. (2012)).

Certains auteurs suggèrent une relation avec le « motor-neglect » (mouvements incontrôlés, difficultés à initier le mouvement), et soulignent que la sous-utilisation d'un membre ne peut pas être totalement attribuée à des déficits sensoriels ou moteurs (Punt et al., 2013; Vittersø et al., 2021)

Troubles moteurs définis spatialement

Reid et al. (2018) ont testé les performances motrices selon la position dans l'espace (somatospatial neglect) Au test du dessin de cercle les yeux fermés, les participants atteints de SDRC dérivait avec le côté atteint vers le côté non-atteint. Les performances à un test de coordination motrice du membre supérieur (appuyer sur des boutons) étaient altérées quand effectuées dans l'espace côté atteint.

Ces résultats non pas été retrouvés par De Paepe et al. (2020).

Autres troubles définis spatialement

Comme évoqué plus haut, le fait de croiser les mains (et donc de placer la main atteinte hors de son espace) peut augmenter la température de la peau, baisser l'intensité de la douleur

(effet petit mais significatif statistiquement) et augmenter la sensation d'appartenance du membre (G. L. Moseley et al., 2012).

Autres troubles sensoriels

De manière anecdotique, d'autres sens ont été explorés en rapport avec les troubles de la perception du corps.

Tajadura-Jiménez et al. (2017) ont conduit une étude préliminaire (sans groupe contrôle) explorant la modification de la représentation du corps de sujets atteints de SDRC principalement au membre inférieur (description d'une visualisation mentale de leur corps) exposés à une modification du son de leur marche (pas de son, son atténué ou amplifié). Les sujets expriment des modifications de la perception de leur membre, avec des effets non prédictibles (dimensions du membre modifiée, changement de la douleur, émotions envers le membre). Il semble que le type de trouble de la perception (membre perçu comme plus gros/plus petit/pas visualisable) influence cet effet.

Il existe donc une littérature récente, avec beaucoup de résultats contradictoires. Nombre de répliques ont échoué et les hypothèses s'affinent. En effet, l'effet de la durée des symptômes, du sous-type chaud/froid, de la localisation au membre supérieur ou inférieur, de la complexité de la tâche demandée, de l'espace dans lequel le test est effectué, de la vision impliquée (et bien sûr la taille des échantillons recrutés), restent à être précisés.

De manière générale, les troubles de la perception du corps sont retrouvés au travers de la littérature de manière homogène, mesurés par différents moyens. En revanche, si les perturbations tactiles et motrices semblent se retrouver de manière plus cohérente, les biais d'attention visuospatiaux semblent être rares et anecdotiques. Néanmoins, l'hypothèse d'un mécanisme supra-spinal est actuellement largement partagée.

Afin d'explorer les relations entre les troubles de la perception du corps avec les paramètres cliniques, il faut pouvoir les mesurer. Il existe plusieurs façons d'évaluer la perception du corps et les troubles qui en découlent comme vus dans les études décrites ici. La question se pose donc de savoir si ces évaluations sont performantes, c'est-à-dire possèdent des propriétés psychométriques suffisantes pour permettre une évaluation fiable. Il n'existait pas dans la littérature d'articles de synthèse permettant de déterminer quels sont les outils de mesure existant, quelles sont leurs propriétés psychométriques afin de déterminer

quels outils utiliser en recherche et en clinique. Ceci est l'objectif de la revue systématique présentée ci-après.

Etude 1 : revue systématique

Acapo, S., Osinski, T., Rulleau, T., Dupeyron, A., & Nizard, J. (2022). Assessment of body perception disturbances in complex regional pain syndrome: A systematic review using the COSMIN guideline. *European Journal of Pain*, *ejp.2032*. <https://doi.org/10.1002/ejp.2032>

REVIEW ARTICLE

Assessment of body perception disturbances in complex regional pain syndrome: A systematic review using the COSMIN guideline

Sessi Acapo¹  | Thomas Osinski^{2,3}  | Thomas Rulleau⁴  | Arnaud Dupeyron^{5,6}  | Julien Nizard^{1,7} 

¹EA 4391 Excitabilité Nerveuse et Thérapeutique, Université Paris Est, Créteil, France

²UR 20201 ERPHAN, Université Versailles Saint Quentin, Garches, France

³IFMK, Fondation EFOM Boris Dolto, Paris, France

⁴Nantes University Hospital, Nantes, France

⁵Physical Medicine and Rehabilitation Department, CHU Nîmes, University of Montpellier, Nîmes, France

⁶EuroMov Digital Health in Motion, University of Montpellier, IMT Mines Ales, Montpellier, France

⁷UIC 22 Multidisciplinary Pain, Palliative and Supportive Care Department, Nantes University Hospital, Nantes, France

Correspondence

Sessi Acapo, 5 rue Nina Simone, 44000 Nantes, France.

Email: sessi.acapo@gmail.com

Funding information

This research did not receive any specific grant from funding agencies in the public, commercial or not-for-profit sectors.

Abstract

Objective: To conduct a systematic review to identify which tools are being used to assess body perception disturbances in Complex Regional Pain Syndrome (CRPS) and to provide an evidence-based recommendation in the selection of an assessment tool, based on measurement properties.

Databases and data treatment: Five electronic databases (EMBASE, Pubmed, PsycInfo, Science Direct and Web of Science) were searched for English or French written articles, with no time restrictions. All original articles using a body perception assessment tool with adult patients with CRPS were selected, regardless of their design (controlled trials, single case, qualitative study). Two investigators screened abstracts, selected full articles and extracted data independently.

Results: Thirty-eight full-text papers were obtained and three main methods to evaluate body perception disturbances were identified: The Bath Body Perception Disturbance Scale, the Neglect-like Symptoms questionnaire adapted from Galer and the patient's body perception description. No full psychometric assessments were found. The Limb Laterality Recognition Task was also used in conjunction with another method.

Conclusions: Three main assessment methods for CRPS body perception disturbances are currently used. Full psychometric evaluation has not been completed for any of the assessment methods. As a consequence, we could not fully apply the COSMIN guideline. To date, there is no agreement concerning the use of a specific questionnaire or scale. The results indicate a need for further research such as psychometric properties of these questionnaires.

Significance: This systematic review identified body perception disturbances assessment methods and their the psychometric properties in order to provide help and guidance to researchers and clinicians to investigate those clinical features.

1 | INTRODUCTION

Complex Regional Pain Syndrome (CRPS) is a chronic pain condition characterized by spontaneous and evoked pain disproportionate in magnitude or duration to the initial lesions that usually occur in a distal extremity (Bruehl, 2015). It displays a combination of pain, vascular, trophic, autonomic and motor abnormalities as well as sensory disorders such as altered body perceptions (Lotze & Moseley, 2007).

Body perception can be defined as ‘the process of how we perceive our bodies’ (Lewis & Schweinhardt, 2012). It involves complex interactions between proprioceptive, vestibular, somatosensory and visual inputs interrelating with motor systems (Schwoebel et al., 2001).

Body perception disturbances in CRPS are defined as ‘the individual’s perceived alteration of their CRPS affected body part while regarding the remainder of their body as normal’ (Lewis & McCabe, 2010). Patients with CRPS report that they pay little attention to their affected limb, describing it as it was not part of their body (Lewis et al., 2007). They tend to perceive that it is distorted in shape or size (Lewis & Schweinhardt, 2012), usually larger than it actually is (Moseley, 2005). They typically report difficulties recognizing their affected limb (Moseley, 2004a, Moseley, 2004b, Moseley, 2004c) and are not aware of its position or orientation (Moseley, 2005; Peltz et al., 2011).

First described by Galer et al. (Galer et al., 1995), the term ‘neglect-like’ symptoms were previously attached to such clinical observations, referring to its striking similarity with post-stroke neglect. Gradually, the term ‘neglect-like’ was replaced by ‘body perception disturbances’, to clearly differentiate it from neglect after stroke (Forderreuther et al., 2004; Lewis et al., 2007; Michal et al., 2017).

BPD in CRPS has been reported in many studies (Lewis et al., 2007; Moseley, 2005; Peltz et al., 2011), together with their potential role in persistent pain phenomena. They have been increasingly acknowledged as a feature of CRPS, as the majority of patients with CRPS report disturbances in body perception (ranging from 54% (Forderreuther et al., 2004) to 72% (Michal et al., 2017) and 84% for the presence of at least one symptom (Galer & Jensen, 1999)). Several studies have confirmed that body perception disturbances are more prevalent and more severe in CRPS (Frettlöh et al., 2006; Michal et al., 2017; Wittayer et al., 2018) compared with other chronic limb pain.

A body of evidence provided by brain imaging studies suggested that cortical reorganization occurs in CRPS, in particular, in areas involved in sensorimotor functions, pain perception and body schema (Di Pietro et al., 2013;

Lewis & McCabe, 2010; Maihofner et al., 2003; Pleger et al., 2014). This evidence suggests a close relationship between disrupted cortical limb representation and perception disturbances of the affected limb (Moseley, 2005; Peltz et al., 2011). These changes seem to be related to pain and correlate with body image, but there is no evidence that they cause or are caused by pain (Bruehl, 2015). Schwoebel et al. (2001) were the first to indicate a link between the degree of body schema disturbance and the intensity of pain and those results were confirmed in other studies (Lewis & Schweinhardt, 2012). They interpreted their findings as a disruption in body representation. The specificity of these symptoms for CRPS remains uncertain. However, while reorganization of the somatosensory cortex often appears to be associated with persistent CRPS, these results were recently questioned. FMRI studies did not confirm these findings (Di Pietro et al., 2015; Mancini et al., 2019), compelling us to review the mechanism hypotheses.

BPD is thought to ‘interfere with the ability to process information coming from the limb and the space around it’ (Bultitude et al., 2017). Research exploring sensory modalities and changes in perception involving motor impairments (Reid et al., 2018), somatospatial inattention (Reid et al., 2016) confined to bodily representation and sensorimotor disturbances with impaired self-localisation (Bellan et al., 2021) have flourished in the last years, allowing a better understanding of CRPS and BPD. As an example, Bultitude et al. (2017) pointed out that general attention bias was predicted by BPD scores. Illusions are another way to explore body awareness and its underlying processes, such as the Disappearing Hand Trick (Bellan et al., 2021), the rubber hand illusion (Reinersmann et al., 2013) or a visuotactile illusion which only creates pain in patients with CRPS (dysinchoria) (Acerra & Lorimer Moseley, 2005; Krämer et al., 2008).

The results are still conflicting: some studies support the hypotheses of neglect similar to neglect after stroke while others do not (Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, & Bultitude, 2021; Halicka et al., 2020; Kolb et al., 2012; Reid et al., 2016; Wittayer et al., 2018).

Despite those observations, the mechanisms underlying body perception disturbances and their implications on CRPS development and severity are not fully understood.

Body perception disturbances are acknowledged as an important clinical feature in patients with CRPS. In clinical practice, patients tended to keep to themselves those perceptions and feelings, out of fear of being considered mentally ill (Galer & Jensen, 1999; Lewis & McCabe, 2010). Since then, awareness has risen and clinicians have increasingly been encouraged to explore body perception disturbances among the signs and symptoms of CRPS and

to inform patients about them, as in the recent European Pain Federation task force standards (Goebel et al., 2019). The standards state that patients ‘must receive adequate information soon after diagnosis on [...] (iv) signs and symptoms, including body perception abnormalities’ (Goebel et al., 2019). Gillespie et al. (2016) in an audit aiming at identifying factors for the development of CRPS after distal radius fracture, recommend ‘picking up verbal and visual clues from the patient earlier, [...] such as neglect of limb’.

Several authors now recommend considering body perception disturbances in the diagnostic (Forderreuther et al., 2004; Osumi et al., 2015) or as a rehabilitation target (Boesch et al., 2016; Moseley Moseley, 2004a, Moseley, 2004b, Moseley, 2004c).

Questionnaires are used to assess BPD in CRPS, but there is a lack of a comprehensive summary of available assessment methods and critical appraisal including psychometric properties.

Thus, this systematic review was designed to identify body perception disturbances assessment tools used for CRPS and summarize their measurement properties with potential gaps in knowledge. It aims to provide an evidence-based recommendation to select an assessment method to be used by clinicians and researchers.

2 | LITERATURE SEARCH METHODS

The study protocol was registered on PROPERO (International Prospective Register of Systematic review, CRD42018089652). The review was reported in accordance with the PRISMA statement (Moher et al., 2015) (Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses) (see checklist attached in additional file). The COSMIN (Consensus-based Standards for the selection of health Measurement Instruments) guideline for a systematic review of patient-reported outcome measures (PROM) (Mokkink et al., 2016; Prinsen et al., 2016) was used to assess measurement properties, report findings and draw a conclusion.

2.1 | Data sources and searches

In order to identify all body perception disturbances assessment tools, a systematic search was performed in PubMed, EMBASE, Science Direct, PsycInfo and Web of Science (no limitation for publication period, up to November 2020). References were hand-searched for all relevant articles to identify studies that could have been missed by the initial search. The Cochrane Database of

Systematic Reviews and PROSPERO were checked for other systematic reviews.

All search terms are listed in [Box 1](#).

2.2 | Study selection

Studies were eligible for inclusion if they were available in English or French if they recruited adult participants with CRPS type I or II (Budapest criteria or alternate diagnostic criteria before 2000, no restrictions regarding disease duration), and if they assessed body perception disturbances.

No restrictions on experimental study design were applied, as the intention was to capture all body perception disturbances measures used for CRPS.

2.2.1 | Identifying outcome measures: a definition of body perception disturbances

Body perception disturbances referred to sensory disturbances that are reported regarding the affected limb such as the feeling of foreignness, strangeness, distortion or

BOX 1 Search terms and Pubmed equation

Complex regional pain syndrome	Complex regional pain syndrome* Regional pain syndrome* Reflex sympathetic dystrophy Algodystrophy Causalgia Sudeck* atrophy Sudeck* Shoulder hand syndrome* Post-traumatic pain syndrome Algoneurodystrophy Reflex neurovascular dystrophy Post-traumatic angiospasm CRPS CRPS type 1 CRPS type 2 CRPS type I CRPS type II CRPS 1 CRPS 2 CRPS I CRPS II
Body perception disturbances	Body perception disturbances Somatosensory disorders Body image Neglect-like syndrome Perceptual disorders

Note: (('Complex regional Pain Syndromes'[MesH]) AND ('Somatosensory Disorders'[MesH] OR 'Perceptual Disorders'[MesH] OR 'Body Image'[MesH] OR 'neglect like syndrome')).

differences in shape, size, length, heaviness, etc. They can also be directly mentioned as neglect-like symptoms or body perception disturbances.

2.3 | Study inclusion

Two investigators independently screened the titles and abstracts from the search results and included studies meeting the inclusion criteria. When disagreement was not resolved through discussion, a third investigator was involved to reach a consensus. The same process was then used for full-text selection.

2.4 | Data extraction

Data extraction forms were used to extract the following data: author, date, study design, demographics of participants (age, gender), CRPS diagnostic criteria, CRPS duration, objectives of the study, type of intervention and type of BPD assessment.

2.5 | Identifying and assessing of quality of the PROM(s)

The 10-step procedure for conducting a systematic review of PROM was followed (Prinsen et al., 2016).

Studies were selected for this part after full-text reading. Studies reporting the development of a PROM, the

evaluation of one or more measurement properties or of the interpretability of the PROM were included. A hand search was performed to identify missing studies, without any language restriction.

Two authors independently assessed the selected studies through the COSMIN Risk of Bias checklist, using available spreadsheets. Based on the COSMIN taxonomy, the measurement properties were divided into three domains: reliability, validity and responsiveness. Then, the results of each study were summarized, and the quality of the evidence was graded using the GRADE approach.

3 | RESULTS

3.1 | Identifying assessment methods: Study selection and characteristics

A total of 863 studies were identified by the databases search. After the selection process, 38 studies were included in the final overview. See [Figure 1](#) for details (flow chart).

As expected, the selected studies incorporated a broad range of study designs, including cohorts, case-control studies, case reports, qualitative studies, cross-sectional studies, observational studies, mixed method studies and translation/cross-cultural adaptation studies. See [Appendix S1](#) for a list of the assessment methods identified in selected studies and [Appendix S2](#) for the complete list of included studies.

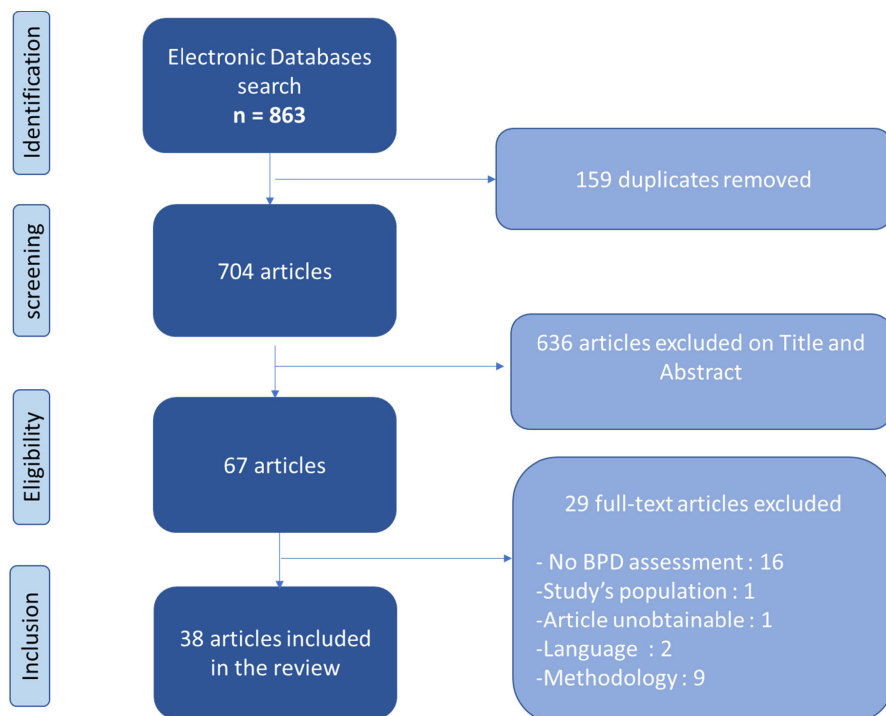


FIGURE 1 Flow chart.

For the assessment of the PROM quality, five studies were included (Brink, Antonia, & Bultitude, 2021; Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, & Bultitude, 2021; Lewis & Schweinhardt, 2012; Mibu et al., 2020; Tschopp et al., 2018).

3.2 | Characteristics of body perception disturbances assessment tools

The search identified nine different methods to assess BPD, used as a stand-alone or in the association. Three tools were specifically designed to assess BPD in CRPS: the Neglect-Like Symptoms Questionnaire (NLSQ) by Galer et al. (Galer & Jensen, 1999) (found in three articles), its adaptation by Frettlöh et al. (2006) (in 12 articles) and the Bath Body Perception Disturbance Scale (Bath BPD-S) (in 14 articles).

Other methods were used, such as the patient's body perception verbal description in 11 articles (including the use of mental imagery in four articles), or drawings in two articles. The Limb Laterality Recognition Task (LLRT) was used in complement to another method in eight articles. A few studies used a subjective visual midline bisection (four articles), a hand size self-evaluation (two articles) and a somatosensory task (finger identification or stimuli localization in five articles).

The majority of these assessment methods are Patient Reported Outcome Measures (PROM). The performance-based outcome measures, such as the LLRT, are systematically used in association with a PROM or a qualitative assessment (Table 1).

3.3 | The neglect-like symptoms questionnaire or Neurobehavioral questionnaire

(Galer & Jensen, 1999) This questionnaire was developed based on Galer's personal clinical experience with CRPS-I patients including previous research (Galer et al., 1995). It was then part of a patient's survey mailed to patients with CRPS in order to determine the frequency of neglect symptoms among them (242 patients, 10% response rate).

The questionnaire comprises five statements. Patients are asked to check each true statement about their affected limb. Two statements assess the presence of motor neglect symptoms: 'If I don't focus my attention on my painful limb, it would lie still, like dead weight' and 'I need to focus all of my attention on my painful limb to make it move the way I want it to'. Two other statements assess the presence of cognitive neglect: 'My painful limb feels as though it is not part of my body' and 'My painful limb

feels dead to me'. A fifth statement assesses the presence of involuntary movements: 'My painful limb sometimes moves involuntarily, without my control'. The expected answer is dichotomous (true or false). The completion is quick and does not require extra material.

It recently has been explored in a study comparing neglect-like symptoms between people with CRPS and other chronic limb pain (online survey). Two components were identified within the questionnaire: motor and cognitive neglect-like symptoms (items 1-2-3-4) and involuntary movements (item 4) (Brink, Antonia, & Bultitude, 2021). The internal consistency of the motor and cognitive neglect-like symptoms component was found acceptable (Cronbach's alpha 0.76) (see Table 2).

3.3.1 | The neglect-like symptoms questionnaire adapted by Frettlöh et al.

Frettlöh et al. (2006) translated into German the five-neglect-like items of the Neglect-like Symptoms questionnaire by Galer and Jensen (1999) and expanded the dichotomous options to a 6-point Likert-scale (1 = never, 6 = always), to perform a quantitative assessment of the reported symptoms. The neglect-like total score is obtained by adding the five items and calculating arithmetic mean.

The authors recommend the use of the mean neglect-like score ≥ 5 as an additional criterion to confirm the diagnosis of CRPS (sensitivity 21.1%, specificity 90.6%).

3.3.2 | The bath CRPS body perception disturbance scale

(Lewis & McCabe, 2010) The Bath CRPS BPD Scale aims at providing a comprehensive assessment of BPD disturbances. It was developed through previous research and a series of semi-structured interviews (Lewis et al., 2007), articulated around six themes: hostile feelings, the spectrum of dissociation, the disparity between what is apparent and what is felt, the distorted mental image of the affected part, awareness of limb position and conscious attention.

This 7-item measure covers the following aspects: a sense of ownership (1); limb position awareness (2); attention paid to the limb (3); emotional feelings towards the limb (4); perceptual disparities in size, temperature, pressure and weight (compared with the unaffected limb) (5); desire to amputate the limb (6a and 6b) and mental representation of the limb (7). Items 1-4 and 6b rate individual aspects of BPD on a 0-10 scale. In item 7, the clinician asks the patient to visualize a mental picture of their

TABLE 1 Summary of the measurement properties

	Language	Population characteristics (age, gender)	Number of questions	Psychometric evaluation	Diagnostic tool/ cut-off	Ability to detect change/ MCID	Internal consistency	Reliability
The Neglect-Like Symptoms questionnaire or Neurobehavioral questionnaire (Galer & Jensen, 1999)	English	242 CRPS I	5 (true/false)	No evaluation	—	—	—	—
The Neglect-Like Questionnaire adapted by Frettlöh et al. (2006)	German	123 CRPS 117 chronic limb pain	5 (6 pt response scale)	Yes	score ≥ 5 (low sensitivity, but specificity 90.6%)	—	Cronbach's alpha = 0.86	—
Neurobehavioral questionnaire (Brink, Antonia, & Bultitude, 2021)	English	335 CRPS 407 other chronic pain	5 (true/false)	Yes	—	—	Cronbach's alpha = 0.76 (motor and cognitive component)	—
The Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale (Bath CRPS BPD Scale) (Lewis & Schweinhardt, 2012; Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, and Bultitude (2021))	English	22 (15 W, 7 M; 50.6 yo) 22 healthy controls matched 114 (93 W; 46.06 years)/ healthy matched controls	6 + drawing (10 pt scale, true/false) Revised version 5 + drawing	Yes	Higher scores represent greater body perception disturbance	—	Cronbach's alpha 0.66–0.73	Cohen's kappa 0.87-

TABLE 2 Measurement properties of the included studies for the COSMIN checklist

	Language	CRPS population characteristics (gender, age [mean])	Internal consistency	Cross-cultural validity	Reliability	Remaining measurement properties	Concurrent validity
Bath CRPS body perception disturbance scale	Lewis and Schweinhardt (2012)	22 (15 W, 50.6 years)	Cronbach's alpha 0.66	—	Cohen's kappa 0.87	—	—
	Mibu et al. (2020)	22 (14 W, 46 years)	Cronbach's alpha 0.73	+	—	—	TPD ratio ($r = 0.65$) TSK ($r = 0.51$)
	Tschopp et al. (2018)	56 (49 W; 50.9 years) (28 acute/28 stable)	Cronbach's alpha 0.92	+	ICC 0.85	SDC 10	EuroQol-5D ($\rho = 0.16$) NRS($\rho = -0.19$)
	Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, and Bultitude (2021)	114 (93 W; 46.06 years)	Cronbach's alpha 0.73 Cronbach's alpha 0.73 ^a	—	—	—	Pain intensity ^a ($R^2 = 0.17$), TSK ($R^2 = 0.18$), Depression ^a ($R^2 = 0.33$), upper limb disability ^a ($r = 0.85$)
Neurobehavioral Questionnaire	Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, and Bultitude (2021)	335 (297 W; 46.64 years)	Cronbach's alpha 0.76 (Item 1-2-3-5)	—	—	—	—

Abbreviations: TPD, two-points discrimination threshold; TSK, Tampa Scale for Kinesiophobia; NRS, Numeric Rating Scale; +, sufficient (Prinsen et al., 2016).

^aRevised version of the Bath BPD Scale (i.e. excluding item 3).

affecting limb with his eyes closed. The clinician draws a pencil line picture of both limbs as the patient describes his mental image. A textual description can be added. The drawing can be assessed and amended by the patient. The drawing is graded on a three-point scale (no distortion = 0, distortion = 1, severe distortion = 2). The rating 'severe distortion' is given if one or more parts of the limb are missing.

This scale is scored from 0 to 57, higher scores represent greater body perception disturbance. It takes longer to complete compared to the Neglect-Like Symptoms Questionnaire and requires the presence of a clinician for the drawing task.

In an early study, the scale was shown to have adequate internal consistency and inter-rater reliability (Cronbach's alpha 0.66, Cohen's kappa 0.87) (Lewis & Schweinhardt, 2012). A recent validation study (Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, & Bultitude, 2021) proposed a revised version of the scale, excluding the item on attention (item 3). The internal consistency of the original and this revised version was found acceptable (Cronbach's alpha >0.7). They also explored known group validity, construct validity and associations with demographics and clinical characteristics. It was translated and adapted into Japanese and German (Mibu et al., 2020; Tschopp et al., 2018). All those studies found also acceptable internal consistency (Cronbach's alpha >0.7). [Table 2](#) provides a summary of the measurement properties of these tools.

3.3.3 | Other methods

The LLRT is an implicit motor imagery task of recognizing the laterality of the image of a limb as either left or right (Parsons, 1987; Parsons et al., 1995; Schwoebel et al., 2001). Either a homemade software program, pictures or the Recognize[®] software program can be used. Pictures of limbs are randomly presented and subjects are asked to decide whether it is a left or a right limb. Reaction time (in milliseconds) and response accuracy are recorded.

Patients can be asked to describe their limb through direct questions (e.g. about limb ownership, 'how strong is your sense of ownership over your affected limb?' [Bean et al., 2015]). With their eyes closed, patients can be asked to visualize and describe how their limb appears (Bultitude & Rafal, 2010; McCabe et al., 2003; Osumi et al., 2015). The clinician can draw or write the kind of distortions that the patient describes (asymmetry in size, length, heaviness, colour, shape, missing parts, etc.). Similarly, a line drawing can be provided and the patient adds what he senses to the drawing (Hirakawa et al., 2020). Software and virtual

avatars are also used (Turton et al., 2013). It is similar to item 7 of the Bath BPD-S but has been used on its own.

Patients can also report feelings towards the limb (hostile, foreignness, sense of ownership) by answering an open question or spontaneously (Bean et al., 2015; Forderreuther et al., 2004). The evaluator can also ask patients to evaluate their hand size (on a series of photographs) (Moseley, 2005; Tajadura-Jiménez et al., 2017), localize a tactile stimulus or identify which finger is being touched (Trojan et al., 2019). Those methods are considered by authors as part of body perception disturbances evaluation.

Although data are available for other populations, no psychometric evaluation was found for these methods for patients with CRPS.

3.4 | PROM selection, quality assessment and data synthesis (COSMIN)

No studies evaluating PROM development were included. The NLS was developed 'based on the senior author personal clinical experience with CRPS patients' (Galer & Jensen, 1999) and its development procedure or testing was not reported. Similarly, the Bath BPS-S was based on 'previous' qualitative research and has been 'developed clinically' (Lewis et al., 2007; Lewis & McCabe, 2010). Frettlöh et al. (2006) did not report on their translation method and the NLSQ was used as an outcome measurement. As a result, according to the COSMIN guideline, it was not included.

Four studies were selected, three of them concerning the Bath BPD scale, two of which being translations and cross-cultural validations (Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, & Bultitude, 2021; Mibu et al., 2020; Tschopp et al., 2018). In the fourth study selected, Brink, Antonia, and Bultitude (2021) conducted an online survey in order to, among other things, identify components and assess the internal consistency of the Neurobehavioral Questionnaire.

The included articles investigated five measurement properties: internal consistency, reliability, measurement error, construct validity and cross-cultural validity. Responsiveness and structural validity still need to be completed. ~~Studies on the Bath BPD Scale and its translations~~ do not provide the multiple ratings that would have allowed us to compile evidence, as each version is considered separately (Prinsen et al., 2016). As a result, the level of evidence was rated as unknown.

Measurement properties of the included studies are summarized in [Table 2](#) and the quality of studies according to the COSMIN Risk of Bias Checklist in [Appendix S3](#).

4 | DISCUSSION

The scope of this review is to provide BPD assessment tools in CRPS to be used as outcome measures in clinical settings and research.

To do so, we conducted a systematic review as a way of establishing a full picture of the body perception disturbances assessment methods used in published CRPS intervention studies to date. We used the COSMIN guideline to include measurement properties evaluation. As it was our intention to capture this emerging domain of interest, we included studies with small patient numbers and case reports, because they can report on preliminary results or use of emerging new outcome measures.

Unsurprisingly, the vast majority are patient-reported outcome measures. The diversity of outcome measures identified across the studies demonstrates the challenge of synthesizing practices.

Three specific tools were described in the literature to explore body representation distortion in patients suffering from CRPS: the Bath CRPS BPD Scale, the Neglect-Like Symptom Questionnaire by Galer and its adaptation by Frettlöh. In addition to those questionnaires, the LLRT, somatosensory evaluations and verbal descriptions by patients (mental imagery, body scheme report etc.) were used. Interestingly, the LLRT and the NLS questionnaire are used as objective measures of body representation, while the Bath BPD Scale is considered subjective (Bultitude et al., 2017). The drawing item in the Bath CRPS BPD Scale, as a behavioural assessment, seems to be in a category of its own (Schulte-Goecking et al., 2020) and seems challenging to rate (Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, & Bultitude, 2021).

Even if developing a questionnaire based on 'senior author experience with CRPS patients' (Galer & Jensen, 1999) or 'previous qualitative research' (Lewis et al., 2007) are quite common strategies, they were not reported. As a result, we could not complete the COSMIN standards for evaluation of the quality of PROM development, including items on PROM design, relevance, comprehensibility or comprehensiveness for any of the two original questionnaires. Frettlöh et al. translated the NLQ into German and expanded the dichotomous scale to a 6-point response scale. The translation method was not reported. The utility of this new tool in diagnostics has been investigated, but no full psychometric evaluation was performed.

Galer et al. did not conduct a psychometric study on the NLQ. Their survey identified the presence of neglect-like symptoms in a CRPS population (224 patients), with a 10% response rate.

The Bath BPD Scale recently provided more psychometric data (Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, &

Bultitude, 2021). It was also translated into German and Japanese. That two cross-cultural translation and adaptation provided new psychometrics and was proof of developing interest in the method.

Evidence gathered in this review was limited to the Bath BPD Scale. Several measurement properties were not available, such as content and structural validity, or poorly evaluated, such as reliability or responsiveness. Internal consistency (Cronbach's alpha ranging from 0.6 to 0.92) was evaluated in three studies. Evidence for validity (content and construct) was limited. The Bath BPD has been shown to have a very large relationship with the NLS questionnaire (Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Jones, et al., 2021), supporting the idea of a shared construct. Correlations with fear of movement (Tampa Scale for Kinesiophobia) were found, but correlations with pain intensity were not consistent (Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Jones, et al., 2021; Tschopp et al., 2018). As this body of evidence is incomplete, the quality of evidence was classified as unknown.

Recommendations on the most suitable assessment tool are based on the evaluation of the measurement properties, interpretability and feasibility aspects (Prinsen et al., 2016). With those aspects in mind, the Bath BPD Scale has the potential to be recommended, although further validation studies are needed. The NLS questionnaire has the advantage of being shorter and easier to administer. Additional measurement properties studies are needed.

Of course, the structure (i.e. how the different items in a PROM are related among other definitions) of the Bath BPD Scale is a question that is still undergoing. Body perception disturbances as a construct are still under debate. Some authors focus on perceptual disturbances while others on 'motor neglect' or space. They refer to BPD as distorted body representation (Reinersmann et al., 2012), biased spatial attention (Reid et al., 2016; Torta et al., 2016), bodily representation, personal or peri-personal space and learned non-use (Punt et al., 2013).

The idea that all items in the questionnaire are manifestations of the same construct and thus correlated is not supported by strong evidence to date. Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, and Bultitude (2021) found that the item scoring attention (item 3) had insufficient corrected item-total correlation and pain-free controls scored higher. They computed a revised version of the questionnaire excluding this item (see TAB2 for psychometric evaluation). They proposed rewording the item or to create two separate items (hypervigilance and/or guarding and disregard). This new version may be proposed in the future, with full psychometric evaluation.

Evidently, body perception disturbances are investigated in other conditions. Interestingly, the Freemantle

Back Awareness Questionnaire (FreBAQ) was inspired by findings in CRPS. Based on Galer and Jensen (1999) (item 2, 3, 4) and a qualitative study in people with chronic low back pain (Wand et al., 2014), this questionnaire appears to be unidimensional with no redundant item (Wand et al., 2016). Extensive psychometric testing (Ehrenbrusthoff et al., 2018), multiple translations (German, Turkish, Japanese, Persian etc) and body parts adaptations (neck, knee etc.) are available. This shows the growing interest in the relationship between body perception and pain. The CRPS researchers' groundbreaking work may inspire other chronic pain fields in the future.

Some authors considered the limb laterality task as an objective measure of body schema (Bultitude et al., 2017; Di Pietro et al., 2013) as it is known to depend on an intact body schema (Bowering et al., 2013). Recognizing the laterality of a pictured limb involves confirming an initial decision by mentally moving the internal representation of one's own limb to match that of the picture (Parsons, 1987; Parsons et al., 1995). Previous chronometric findings suggested that performance on this task depends on the body schema (Schwoebel et al., 2001). Response times and accuracy are thought to reflect the degree of body schema disruption.

The evidence regarding patients with CRPS and response time in this task is conflicting. While several authors found a delayed recognition of laterality (Moseley Moseley, 2004a, Moseley, 2004b, Moseley, 2004c; Reinersmann et al., 2010; Schwoebel et al., 2001; Wittayer et al., 2018), others failed to reproduce this result (Breimhorst et al., 2018; Reinersmann et al., 2012). Although age, duration of CRPS and insufficiently powered investigation were possible factors, the type of pictures may be of some influence. It appears that reaction time might depend on the direction of orientation of the pictured limb and that it increases with awkwardness (or difficulty) of the stimulus orientation (Parsons, 1987; Schwoebel et al., 2001). Future research might want to explore such factors to be able to determine if the Limb Laterality Recognition Task can be used on its own as an objective measure of body representation with people with CRPS. In studies selected in this review, it has only been used associated with a questionnaire, according to some authors (Brink, Antonia, Halicka, Vittersø, Keogh, & Bultitude, 2021).

New therapeutic approaches have been developed to improve cortical function by means of brain training and are indicated for BPD treatment (Bellan et al., 2021; Lewis et al., 2019). These rehabilitation strategies involve mirror therapy (McCabe, 2011), graded motor imagery (GMI) (Moseley Moseley, 2004a, Moseley, 2004b, Moseley, 2004c), motor imaging, tactile discrimination training (Moseley et al., 2008) or prism adaptation (Sumitani et al., 2007).

Meta-analyses suggest that GMI and mirror therapy show encouraging results on pain and disability compared with classic rehabilitation programs (Bowering et al., 2013; O'Connell et al., 2013). Several clinical trials have investigated BPD as an outcome (Lewis et al., 2019; Osumi et al., 2015), using the Bath BPD Scale and sensory-motor rehabilitation techniques.

4.1 | Recommendations for future research and clinicians

Future research is needed to evaluate the performance of those tools in the population of patients with CRPS. Prospective and longitudinal studies using all the tools detailed in this article on a population of patients suffering from CRPS and appropriate controls (for instance other conditions with neuropathic pain) would be helpful to compare their strengths, limitations, and search for correlations/redundancies between those tests/questionnaires. Questions about the influence of CRPS type I or II can be asked, as the majority of included subjects present CRPS-I. Similarly, lower limb presentations are under-represented. A future COMPACT (Grieve et al., 2017) may be able to incorporate body perception disturbances if such studies were to be conducted. Feasibility should be considered through the process, including digital perspectives already initiated.

4.2 | Study limitations

This review has limitations. We tried to identify all studies using a body perception disturbances measurement method, but the possibility remains that we missed some. Only papers in English and French were reviewed. The full text of one of the articles was unobtainable, despite our attempts to source it online, in academic libraries or by contacting the author.

We could not apply the COSMIN methodology in full due to the lack of information or report. As a result, we could not provide strong recommendations. Because this subject arouses interest, this will probably change with an increasing number of studies.

5 | CONCLUSIONS

This systematic review identified a variety of tools including three main methods used to assess body perception disturbances: The Bath Body Perception Disturbances Scale, the Neglect-Like Symptoms Questionnaire, and the patient's verbal description of their body. No complete

psychometric properties were found for any of these tools. Clinicians can choose between specific questionnaires for CRPS or generic tests. The use of the COSMIN guidelines did not allow us to draw firm conclusions. However, the Bath BPD Scale has received more attention and provided more psychometric data. Its revised version might also provide a more precise understanding of the CRPS experience and should be considered to use. The rewording of the item on attention might be considered in the future. The Bath BPD scale also requires the collaboration of the clinician and patient for the drawing. Even though scoring might be uncertain, qualitative data such as exploring the influence of this clinician/patient interaction may provide insight into this unusual interaction.

Thus, there is a clear need for further research in order to provide the best assessment tools that can be used. BPD assessment may be useful either for a more accurate diagnosis or prognosis of CRPS, to monitor CRPS activity, or as a treatment option.

AUTHOR CONTRIBUTIONS

SA, JN and AD designed the study. SA and TO performed all searches and data collection. TR discussed discrepancies. All authors discussed the results. SA drafted the manuscript and all authors revised it.


ACKNOWLEDGEMENTS

We thank all authors for their work and support. Pr Hardouin for his theoretical and technical help with statistics.

CONFLICT OF INTEREST

None.

ORCID

Sessi Acapo  <https://orcid.org/0000-0002-4699-1706>
 Thomas Osinski  <https://orcid.org/0000-0001-9653-9972>
 Thomas Rulleau  <https://orcid.org/0000-0003-2205-132X>
 Arnaud Dupeyron  <https://orcid.org/0000-0001-5085-3739>
 Julien Nizard  <https://orcid.org/0000-0003-1907-8628>

REFERENCES

- Acerra, N. E., & Lorimer Moseley, G. (2005). Dysynchiria: Watching the Mirror image of the unaffected limb elicits pain on the affected side. *Neurology*, 65(5), 751–753. <https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000178745.11996.8c>
- Bean, D. J., Johnson, M. H., Heiss-Dunlop, W., Lee, A. C., & Kydd, R. R. (2015). Do psychological factors influence recovery from complex regional pain syndrome type 1? A prospective study. *Pain*, 156(11), 2310–2318. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000000282>
- Bellan, V., Braithwaite, F. A., Wilkinson, E. M., Stanton, T. R., & Lorimer Moseley, G. (2021). Where is my arm? Investigating the link between complex regional pain syndrome and poor localisation of the affected limb. *PeerJ*, 9, e11882. <https://doi.org/10.7717/peerj.11882>
- Boesch, E., Valeria Bellan, G., Moseley, L., & Stanton, T. R. (2016). The effect of bodily illusions on clinical pain: A systematic review and meta-analysis. *Pain*, 157(3), 516–529. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000000423>
- Bowering, K. J., O'Connell, N. E., Tabor, A., Catley, M. J., Leake, H. B., Lorimer Moseley, G., & Stanton, T. R. (2013). The effects of graded motor imagery and its components on chronic pain: A systematic review and meta-analysis. *The Journal of Pain*, 14(1), 3–13. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2012.09.007>
- Breimhorst, M., Dellen, C., Wittayer, M., Rebhorn, C., Drummond, P. D., & Birklein, F. (2018). Mental load during cognitive performance in complex regional pain syndrome I. *European Journal of Pain*, 22(7), 1343–1350. <https://doi.org/10.1002/ejp.1223>
- Brink, T., Antonia, F., & Bultitude, J. H. (2021). Predictors of self-reported neglect-like symptoms and involuntary movements in complex regional pain syndrome compared to other chronic limb pain conditions. *Pain Medicine*, 22(10), 2337–2349. <https://doi.org/10.1093/pm/pnab226>
- Brink, T., Antonia, F., Halicka, M., Vittersø, A. D., Jones, H. G., Stanton, T. R., & Bultitude, J. H. (2021). Validation of the Bath CRPS body perception disturbance scale. *The Journal of Pain* S1526590021002157. doi:<https://doi.org/10.1016/j.jpain.2021.04.007>
- Brink, T., Antonia, F., Halicka, M., Vittersø, A. D., Keogh, E., & Bultitude, J. H. (2021). Ignoring space around a painful limb? No evidence for a body-related visuospatial attention bias in complex regional pain syndrome. *Cortex; a Journal Devoted to the Study of the Nervous System and Behavior*, 136, 89–108. <https://doi.org/10.1016/j.cortex.2020.12.007>
- Bruehl, S. (2015). Complex regional pain syndrome. *British Medical Journal*, 350, h2730. <https://doi.org/10.1136/bmj.h2730>
- Bultitude, J. H., & Rafal, R. D. (2010). Derangement of body representation in complex regional pain syndrome: Report of a case treated with Mirror and prisms. *Experimental Brain Research*, 204(3), 409–418. <https://doi.org/10.1007/s00221-009-2107-8>
- Bultitude, J. H., Walker, I., & Spence, C. (2017). Space-based bias of covert visual attention in complex regional pain syndrome. *Brain*, 140(9), 2306–2321. <https://doi.org/10.1093/brain/awx152>
- Ehrenbrusthoff, K., Ryan, C. G., Grüneberg, C., & Martin, D. J. (2018). A systematic review and meta-analysis of the reliability and validity of sensorimotor measurement instruments in people with chronic low Back pain. *Musculoskeletal Science and Practice*, 35, 73–83. <https://doi.org/10.1016/j.msksp.2018.02.007>
- Forderreuther, S., Sailer, U., & Straube, A. (2004). Impaired self-perception of the hand in complex regional pain syndrome (CRPS). *Pain*, 110(3), 756–761. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2004.05.019>
- Frettlöh, J., Hüppe, M., & Maier, C. (2006). Severity and specificity of neglect-like symptoms in patients with complex regional pain syndrome (CRPS) compared to chronic limb pain of other origins. *Pain*, 124(1), 184–189. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2006.04.010>
- Galer, B. S., Butler, S., & Jensen, M. P. (1995). Case-reports and hypothesis - a neglect-like syndrome may be responsible for the motor

- disturbance in reflex sympathetic dystrophy (complex-regional-pain-Syndrome-1). *Journal of Pain and Symptom Management*, 10(5), 385–391. [https://doi.org/10.1016/0885-3924\(95\)00061-3](https://doi.org/10.1016/0885-3924(95)00061-3)
- Galer, B. S., & Jensen, M. (1999). Neglect-like symptoms in complex regional pain syndrome: Results of a self-administered survey. *Journal of Pain and Symptom Management*, 18(3), 213–217. [https://doi.org/10.1016/S0885-3924\(99\)00076-7](https://doi.org/10.1016/S0885-3924(99)00076-7)
- Gillespie, S., Cowell, F., Cheung, G., & Brown, D. (2016). Can we reduce the incidence of complex regional pain syndrome type I in distal radius fractures? The Liverpool experience. *Hand Therapy*, 21(4), 123–130. <https://doi.org/10.1177/1758998316659676>
- Goebel, A., Barker, C., Birklein, F., Brunner, F., Casale, R., Eccleston, C., Eisenberg, E., McCabe, C. S., Moseley, G. L., Perez, R., Perrot, S., Terkelsen, A., Thomassen, I., Zyluk, A., & Wells, C. (2019). Standards for the diagnosis and Management of Complex Regional Pain Syndrome: Results of a European pain federation task force. *European Journal of Pain*, 23, 641–651. <https://doi.org/10.1002/ejp.1362>
- Grieve, S., Perez, R. S. G. M., Birklein, F., Brunner, F., Bruehl, S., Harden, R. N., Packham, T., Gobeil, F., Haigh, R., Holly, J., Terkelsen, A., Davies, L., Lewis, J., Thomassen, I., Connett, R., Worth, T., Vatine, J.-J., & McCabe, C. S. (2017). Recommendations for a first core outcome measurement set for complex regional pain syndrome clinical studies (COMPACT). *Pain*, 158(6), 1083–1090. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000000866>
- Halicka, M., Vittersø, A. D., Proulx, M. J., & Bultitude, J. H. (2020). Neuropsychological changes in complex regional pain syndrome (CRPS). *Behavioural Neurology*, 2020, 1–30. <https://doi.org/10.1155/2020/4561831>
- Hirakawa, Y., Imai, R., Shigetoh, H., & Morioka, S. (2020). Intervention using body shadow to evoke loading imagery in a patient with complex regional pain syndrome in the foot: A case report. *Brain Sciences*, 10(10), 718. <https://doi.org/10.3390/brainsci10100718>
- Kolb, L., Lang, C., Seifert, F., & Maihöfner, C. (2012). Cognitive correlates of “neglect-like syndrome” in patients with complex regional pain syndrome. *Pain*, 153(5), 1063–1073. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2012.02.014>
- Krämer, H. H., Susann Seddigh, G., Moseley, L., & Birklein, F. (2008). Dysynchronia is not a common feature of neuropathic pain. *European Journal of Pain (London, England)*, 12(1), 128–131. <https://doi.org/10.1016/j.ejpain.2007.02.005>
- Lewis, J., & McCabe, C. S. (2010). Body perception disturbance (BPD) in CRPS. *Practical Pain Management*, 10(3), 60–66.
- Lewis, J. S., Kellett, S., McCullough, R., Tapper, A., Tyler, C., Viner, M., & Palmer, S. (2019). Body perception disturbance and pain reduction in longstanding complex regional pain syndrome following a multidisciplinary rehabilitation program. *Pain Medicine*, pnz176. doi:<https://doi.org/10.1093/pm/pnz176>.
- Lewis, J. S., Kersten, P., McCabe, C. S., McPherson, K. M., & Blake, D. R. (2007). Body perception disturbance: A contribution to pain in complex regional pain syndrome (CRPS). *Pain*, 133(1), 111–119. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2007.03.013>
- Lewis, J. S., & Schweinhardt, P. (2012). Perceptions of the painful body: The relationship between body perception disturbance, pain and tactile discrimination in complex regional pain syndrome: Perceptions of the painful body in complex regional pain syndrome. *European Journal of Pain*, 16(9), 1320–1330. <https://doi.org/10.1002/j.1532-2149.2012.00120.x>
- Lotze, M., & Moseley, G. L. (2007). Role of distorted body image in pain. *Current Rheumatology Reports*, 9(6), 488–496. <https://doi.org/10.1007/s11926-007-0079-x>
- Maihofner, C., Handwerker, H. O., Neundorfer, B., & Birklein, F. (2003). Patterns of cortical reorganization in complex regional pain syndrome. *Neurology*, 61(12), 1707–1715. <https://doi.org/10.1212/01.WNL.0000098939.02752.8E>
- Mancini, F., Wang, A. P., Schira, M. M., Isherwood, Z. J., McAuley, J. H., Iannetti, G. D., Sereno, M. I., Lorimer Moseley, G., & Rae, C. D. (2019). Fine-grained mapping of cortical somatotopies in chronic complex regional pain syndrome. *Journal of Neuroscience*, 39(46), 9185–9196. <https://doi.org/10.1101/409094>
- McCabe, C. (2011). Mirror visual feedback therapy. A practical approach. *Journal of Hand Therapy*, 24(2), 170–179. <https://doi.org/10.1016/j.jht.2010.08.003>
- McCabe, C. S., Haigh, R. C., Halligan, P. W., & Blake, D. R. (2003). Referred sensations in patients with complex regional pain syndrome type 1. *Rheumatology*, 42(9), 1067–1073. <https://doi.org/10.1093/rheumatology/keg298>
- Mibu, A., Nishigami, T., Uematsu, H., Tanaka, K., Shibata, M., Matsuda, Y., & Fujino, Y. (2020). Validation of the Japanese version of the Bath CRPS body perception disturbance scale for CRPS. *Journal of Anesthesia*, 35, 20–26. <https://doi.org/10.1007/s00540-020-02853-0>
- Michal, M., Adler, J., Reiner, I., Wermke, A., Ackermann, T., Schlereth, T., & Birklein, F. (2017). Association of Neglect-like Symptoms with anxiety, somatization, and depersonalization in complex regional pain syndrome. *Pain Medicine (Malden, Mass.)*, 18(4), 764–772. doi:<https://doi.org/10.1093/pm/pnw214>.
- Moher, D., Clarke, M., Ghersi, D., Liberati, A., Petticrew, M., Shekelle, P., & Stewart, L. A. (2015). Preferred reporting items for systematic review and meta-analysis protocols (PRISMA-P) 2015 statement. *Systematic Reviews*, 4(1), 1–9. <https://doi.org/10.1186/2046-4053-4-1>
- Mokkink, L. B., de Vet, H., Prinsen, C. A., Patrick, D., Alonso, J., Bouter, L. M., & Terwee, C. B. (2016). COSMIN checklist 2.0 for assessing the methodological quality of studies on the measurement properties of patient-reported outcome measures. *Quality of Life Research*, 25, 21–21, 1179. doi:<https://doi.org/10.1007/s11136-017-1765-4>.
- Moseley, G. L. (2004a). Graded motor imagery is effective for longstanding complex regional pain syndrome: A randomised controlled trial. *Pain*, 192–198.
- Moseley, G. L. (2004b). Imagined movements cause pain and swelling in a patient with complex regional pain syndrome. *Neurology*, 62(9), 1644. <https://doi.org/10.1212/01.WNL.0000123019.13575.5E>
- Moseley, G. L. (2004c). Why do people with complex regional pain syndrome take longer to recognize their affected hand? *Neurology*, 62(12), 2182–2186. <https://doi.org/10.1212/01.WNL.0000130156.05828.43>
- Moseley, G. L. (2005). Distorted body image in complex regional pain syndrome. *Neurology*, 65(5), 773. <https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000174515.07205.11>
- Moseley, L. G., Zalucki, N. M., & Wiech, K. (2008). Tactile discrimination, but not tactile stimulation alone, reduces chronic limb pain. *Pain*, 137(3), 600–608. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2007.10.021>
- O’Connell, N. E., Wand, B. M., McAuley, J., Marston, L., & Lorimer Moseley, G. (2013). ‘Interventions for treating pain and disability in adults with complex regional pain syndrome- an overview of systematic reviews’ edited by the Cochrane collaboration.

- Cochrane Database of Systematic Reviews, CD0094169(4). doi:<https://doi.org/10.1002/14651858.CD009416.pub2>.
- Osumi, M., Okuno, H., Nishigami, T., Ueta, K., & Morioka, S. (2015). Tactile localization training for pain, sensory disturbance, and distorted body image: A case study of complex regional pain syndrome. *Neurocase*, 21(5), 628–634. <https://doi.org/10.1080/13554794.2014.961482>
- Parsons, L. M. (1987). Imagined spatial transformations of One's hands and feet. *Cognitive Psychology*, 19(2), 178–241. [https://doi.org/10.1016/0010-0285\(87\)90011-9](https://doi.org/10.1016/0010-0285(87)90011-9)
- Parsons, L. M., Fox, P. T., Downs, J. H., Glass, T., Hirsch, T. B., Martin, C. C., Jerabek, P. A., & Lancaster, J. L. (1995). Use of implicit motor imagery for visual shape discrimination as revealed by PET. *Nature*, 375(6526), 54–58. <https://doi.org/10.1038/375054a0>
- Peltz, E., Seifert, F., Lanz, S., Müller, R., & Maihöfner, C. (2011). Impaired hand size estimation in CRPS. *The Journal of Pain*, 12(10), 1095–1101. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2011.05.001>
- Pietro, D., Flavia, J. H., McAuley, L. P., Lotze, M., Wand, B. M., Lorimer Moseley, G., & Stanton, T. R. (2013). Primary somatosensory cortex function in complex regional pain syndrome: A systematic review and meta-analysis. *The Journal of Pain*, 14(10), 1001–1018. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2013.04.001>
- Pietro, D., Flavia, T. R., Stanton, G. L., Moseley, M. L., & McAuley, J. H. (2015). Interhemispheric somatosensory differences in chronic pain reflect abnormality of the healthy side: Rethinking cortical reorganization in CRPS. *Human Brain Mapping*, 36(2), 508–518. <https://doi.org/10.1002/hbm.22643>
- Pleger, B., Draganski, B., Schwenkreis, P., Lenz, M., Nicolas, V., Maier, C., & Tegenthoff, M. (2014). Complex regional pain syndrome type I affects brain structure in prefrontal and motor cortex. *PLoS One*, 9(1), e85372. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0085372>
- Prinsen, C. A. C., Mookink, L. B., Bouter, L. M., Alonso, J., Patrick, D. L., de Vet, H. C. W., & Terwee, C. B. (2016). COSMIN guideline for systematic reviews of patient-reported outcome measures. *Quality of Life Research*, 27(5), 1147–1157. <https://doi.org/10.1007/s11136-018-1798-3>
- Punt, D. T., Cooper, L., Hey, M., & Johnson, M. I. (2013). Neglect-like symptoms in complex regional pain syndrome: Learned nonuse by another name? *Pain*, 154(2), 200–203. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2012.11.006>
- Reid, E., Wallwork, S. B., Daniel Harvie, K., Chalmers, J., Gallace, A., Spence, C., & Lorimer Moseley, G. (2016). A new kind of spatial inattention associated with chronic limb pain? Somatospatial inattention in pain. *Annals of Neurology*, 79(4), 701–704. <https://doi.org/10.1002/ana.24616>
- Reid, E. J., Braithwaite, F. A., Wallwork, S. B., Daniel Harvie, K., Chalmers, J., Spence, C., Gallace, A., & Lorimer Moseley, G. (2018). Spatially-defined motor deficits in people with unilateral complex regional pain syndrome. *Cortex*, 104, 154–162. <https://doi.org/10.1016/j.cortex.2017.06.024>
- Reinersmann, A., Haarmeyer, G. S., Blankenburg, M., Frettloh, J., Krumova, E. K., Ocklenburg, S., & Maier, C. (2010). Left is where the L is right significantly delayed reaction time in limb laterality recognition in both CRPS and phantom limb pain patients. *Neuroscience Letters*, 486(3), 240–245. <https://doi.org/10.1016/j.neulet.2010.09.062>
- Reinersmann, A., Landwehr, J., Krumova, E. K., Ocklenburg, S., Güntürkün, O., & Maier, C. (2012). Impaired spatial body representation in complex regional pain syndrome type I (CRPS I). *Pain*, 153(11), 2174–2181. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2012.05.025>
- Reinersmann, A., Landwehr, J., Krumova, E. K., Peterburs, J., Ocklenburg, S., Güntürkün, O., & Maier, C. (2013). The rubber hand illusion in complex regional pain syndrome: Preserved ability to integrate a rubber hand indicates intact multisensory integration. *Pain*, 154(9), 1519–1527. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2013.03.039>
- Schulte-Goecking, H., Azqueta-Gavaldon, M., Storz, C., Woiczinski, M., Fraenkel, P., Leukert, J., Azad, S. C., & Kraft, E. (2020). Psychological, social and biological correlates of body perception disturbance in complex regional pain syndrome. *Current Psychology*, 41, 1337–1347. <https://doi.org/10.1007/s12144-020-00635-1>
- Schwoebel, J., Friedman, R., Duda, N., & Coslett, H. B. (2001). Pain and the body schema: Evidence for peripheral effects on mental representations of movement. *Brain: A Journal of Neurology*, 124(Pt 10), 2098–2104. <https://doi.org/10.1093/brain/124.10.2098>
- Sumitani, M., Shibata, M., Iwakura, T., Matsuda, Y., Sakaue, G., Inoue, T., Mashimo, T., & Miyauchi, S. (2007). Pathologic pain distorts visuospatial perception. *Neurology*, 68(2), 152–154. <https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000250335.56958.f0>
- Tajadura-Jiménez, A., Cohen, H., & Bianchi-Berthouze, N. (2017). Bodily sensory inputs and anomalous bodily experiences in complex regional pain syndrome: Evaluation of the potential effects of sound feedback. *Frontiers in Human Neuroscience*, 11, 379. <https://doi.org/10.3389/fnhum.2017.00379>
- Torta, D. M., Legrain, V., Rossetti, Y., & Mouraux, A. (2016). Prisms for pain. Can Visuo-motor rehabilitation strategies alleviate chronic pain? *European Journal of Pain*, 20(1), 64–69. <https://doi.org/10.1002/ejp.723>
- Trojan, J., Speck, V., Kleinböhl, D., Benrath, J., Flor, H., & Maihöfner, C. (2019). Altered tactile localization and spatiotemporal integration in complex regional pain syndrome patients. *European Journal of Pain*, 23(3), 472–482. <https://doi.org/10.1002/ejp.1321>
- Tschopp, M., Swanenburg, J., Wertli, M. W., Langenfeld, A., McCabe, C. S., Lewis, J., Baertschi, E., & Brunner, F. (2018). Die deutsche version der Bath body perception disturbance scale (BBPDS-D): Übersetzung, kulturelle Anpassung und linguistische Validierung an Patienten mit komplexem regionalem Schmerzsyndrom. *Der Schmerz*, 32(3), 195–200. <https://doi.org/10.1007/s00482-018-0294-6>
- Turton, A. J., Palmer, M., Grieve, S., Moss, T. P., Lewis, J., & McCabe, C. S. (2013). Evaluation of a prototype tool for communicating body perception disturbances in complex regional pain syndrome. *Frontiers in Human Neuroscience*, 7, 517. <https://doi.org/10.3389/fnhum.2013.00517>
- Wand, B. M., Catley, M. J., Rabey, M. I., O'Sullivan, P. B., O'Connell, N. E., & Smith, A. J. (2016). Disrupted self-perception in people with chronic low Back pain. Further evaluation of the Fremantle Back awareness questionnaire. *The Journal of Pain*, 17(9), 1001–1012. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2016.06.003>
- Wand, B. M., James, M., Abbaszadeh, S., George, P. J., Formby, P. M., Smith, A. J., & O'Connell, N. E. (2014). Assessing self-perception in patients with chronic low Back pain: Development of a Back-specific body-perception questionnaire. *Journal of Back and Musculoskeletal Rehabilitation*, 27(4), 463–473. <https://doi.org/10.3233/BMR-140467>

Wittayer, M., Dimova, V., Birklein, F., & Schlereth, T. (2018). Correlates and importance of neglect-like symptoms in complex regional pain syndrome. *Pain, 159*(5), 978–986. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000001173>

SUPPORTING INFORMATION

Additional supporting information can be found online in the Supporting Information section at the end of this article.

How to cite this article: Acapo, S., Osinski, T., Rulleau, T., Dupeyron, A., & Nizard, J. (2022). Assessment of body perception disturbances in complex regional pain syndrome: A systematic review using the COSMIN guideline. *European Journal of Pain, 00*, 1–14. <https://doi.org/10.1002/ejp.2032>

L'étude réalisée a ainsi permis d'identifier l'échelle de Bath comme étant la mesure des troubles de la perception du corps dans le SDRC la plus utilisée et la plus étudiée à l'heure actuelle. Développée initialement en anglais, elle a été traduite en japonais (Mibu et al., 2020) et en allemand (Tschopp et al., 2018), elle n'était pas disponible en langue française.

Afin de pouvoir l'utiliser en France, dans le contexte culturel français et avec des patients francophones, il est indispensable d'accéder à une traduction et adaptation transculturelle réalisée de manière rigoureuse. Une étude de ses propriétés psychométriques permettra de vérifier sa validité.

Etude 2 : traduction, adaptation transculturelle et validation de l'échelle de Bath en français

L'objectif de cette étude est de fournir une traduction, une adaptation transculturelle et une validation de l'échelle de Bath pour les patients francophones. L'article dans sa version soumise à publication est disponible en annexe 4.

Méthode

Traduction et adaptation interculturelle

Après avoir obtenu l'accord des auteurs originaux de l'échelle Bath Body Perception Disturbance in Complex Regional Pain Syndrome (B-CRPS-BPD), nous avons traduit l'échelle originale à l'aide de la méthode de traduction-inverse. Le processus a suivi les lignes directrices de l'adaptation interculturelle (Beaton et al., 2000).

La traduction de l'anglais vers le français a été effectuée par deux personnes de langue maternelle française bilingues en anglais, dont l'un n'avait pas de formation biomédicale. Ils ont traduit indépendamment puis ont discuté de leurs résultats. Une version synthétisée a ensuite été créée et discutée avec un comité d'experts composé d'un expert de la douleur, d'un expert de la rééducation et d'un clinicien de la rééducation, tous ayant une expérience dans le traitement du SDRC.

La version française a ensuite été retraduite en anglais de manière indépendante par deux personnes anglophones parlant couramment le français, l'une d'entre elles n'ayant aucune connaissance du contexte. Le comité d'experts et les traducteurs ont examiné les rétro-

traductions et la traduction synthétisée. Après discussion, ils ont produit une version préfinale consensuelle. Cette version a été testée sur trois patients atteints de SDRC, qui ont donné leur avis sur la signification et la clarté des éléments et proposé des modifications. Après discussion avec le comité d'experts, une version finale a été fournie et testée sur trois autres patients atteints de SDRC pour un autre débriefing cognitif.

La version finale et les rapports sur le processus ont été soumis au concepteur de l'échelle et ont été approuvés (voir figure 1). La version française finale est disponible en annexe 5.

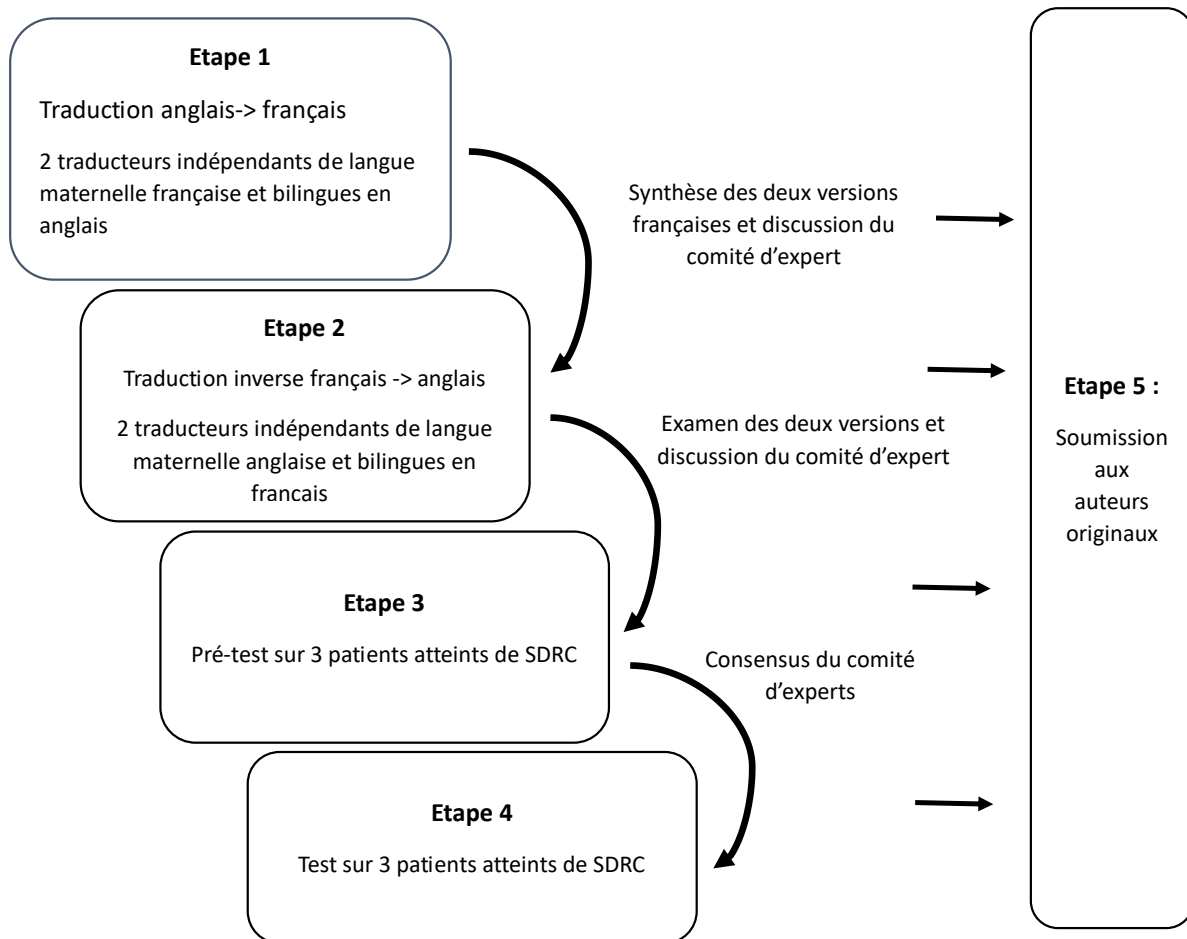


Figure 1 : processus de traduction inverse d'après Beaton et al. (2000)

Validation de l'échelle

Les propriétés de mesure de la version finale de l'échelle de la DBP de bain en français ont été évaluées selon la liste de contrôle COSMIN (Consensus-based Standards for the Selection of Health Status Measurement Instruments) (Mokkink et al., 2010). La fiabilité, la cohérence interne et la validité (validité de critère et de construction) de l'échelle ont été évaluées.

Participants

Les participants ont été recrutés dans des centres multidisciplinaires spécialisés dans la douleur à l'hôpital de Vendée, à l'hôpital universitaire de Nantes, à l'hôpital universitaire de Montpellier et à l'hôpital de Garches. Les participants sont des adultes atteints de SDRC diagnostiqué selon les critères de Budapest. Les participants souffrant de troubles psychiatriques graves et incapables de lire ou de parler le français ont été exclus. Des informations sur la recherche ont été fournies et les participants ont donné leur consentement oral avant la collecte des données.

Procédure

Les données ont été recueillies lors d'un examen de routine par des professionnels de santé expérimentés (médecin, kinésithérapeute, infirmier). Une semaine plus tard, les participants ont été contactés pour remplir une seconde fois l'échelle de Bath.

Critères d'évaluation

Les troubles de la perception du corps ont été évalués à l'aide de la version française du B-CRPS-BPDS (B-CRPS-BPD-F). L'échelle est composée de 7 items explorant différents aspects de la perception du membre atteint (sentiment d'appartenance, conscience de la position du membre, attention portée au membre, sentiments vis-à-vis du membre et désir d'amputation, sur une échelle de 0 à 10) et la perception subjective des changements de taille, de poids, de pression et de température (présence ou absence de différence de perception) (Lewis & McCabe, 2010). Le dernier item est un dessin de l'image mentale des membres du patient (affectés et non affectés). Les yeux fermés, le participant décrit l'image et l'évaluateur la dessine. Des descriptions verbales ont été ajoutées sur le côté et les participants ont été invités à confirmer l'exactitude du dessin. Le dessin est noté sur une échelle de 3 points allant de "pas de distorsion", "distorsion" (changements de taille, de forme, de couleur) à "distorsion sévère" (segments ou membres manquants). Le score maximum est de 57, ce qui représente une plus grande perturbation de la perception du corps (Lewis & Schweinhardt, 2012).

La qualité de vie a été évaluée avec PROMIS 29, un questionnaire générique standardisé mesurant l'état de santé autodéclaré dans sept domaines (dépression, anxiété, fonction physique, interférence de la douleur et intensité de la douleur, fatigue, troubles du sommeil et capacité à participer aux rôles et activités sociales)(Coste et al., 2018).

L'intensité de la douleur a été évaluée à l'aide d'une Echelle Numérique Simple (douleur moyenne, douleur au repos, douleur au mouvement au cours des 7 derniers jours) (Karcioglu et al., 2018). L'interférence de la douleur a été évaluée en utilisant les items du questionnaire PROMIS 29.

La sévérité du SDRC a été évaluée à l'aide du score de sévérité (CRPS Severity Score) (R. N. Harden et al., 2017). Cette mesure validée quantifie la présence ou l'absence de huit signes et symptômes (score de 0 à 16) et fournit une indication de la sévérité. Les signes ont été recueillis lors de l'examen clinique. L'allodynie ou l'hyperesthésie par simple piquûre ou pinceau, les asymétries dans le gonflement, la couleur de la peau, la transpiration, les changements dans les ongles et les cheveux ont été évalués par inspection visuelle. La faiblesse motrice a été évaluée en demandant au patient de serrer la main de l'évaluateur aussi fort que possible. L'amplitude active des mouvements a été évaluée à l'aide d'un goniomètre ou par inspection visuelle.

Analyse statistique

Les caractéristiques démographiques des participants ont été décrites à l'aide de la moyenne et de l'écart-type (SD) ou de la médiane et des quartiles q1 et q3, conformément à la distribution des données pour les variables quantitatives et du nombre et de la proportion pour les variables qualitatives.

Validité

Nous avons d'abord analysé l'absence d'effets de saturation, de plafond ou de plancher.

La validité des critères a été évaluée par une analyse de corrélation (corrélation de Spearman) entre le B-CRPS-BPDS-F, l'intensité de la douleur, le score de sévérité et les domaines de PROMIS 29. Une corrélation a été considérée comme excellente ($\geq 0,9$), bonne ($\geq 0,7 - < 0,9$), modérée ($\geq 0,5 - < 0,7$), médiocre ($> 0,3 - < 0,5$) ou négligeable ($\leq 0,3$) (Hinkle et al., 2003)

La validité structurelle a été évaluée à l'aide d'une analyse factorielle exploratoire (l'EFA). L'EFA a été réalisée pour extraire des facteurs communs dans les items par une analyse en composantes principales.

Fiabilité

La cohérence interne a été évaluée à l'aide du coefficient α de Cronbach (une valeur comprise entre 0,7 et 0,9 a été considérée comme bonne)(Cronbach, 1951). Par item, nous avons calculé les corrélations item-total en utilisant la corrélation de rang de Spearman, pour laquelle des valeurs $\geq 0,30$ sont recommandées (Field, 2013).

La fiabilité test-retest entre la première et la deuxième évaluation a été déterminée en calculant la corrélation intra-classe (Lachin, 2004) (ICC, intervalle de confiance à 95 %) et a été interprétée comme excellente ($\geq 0,9$), acceptable ($\geq 0,8$) ou faible ($\geq 0,6$). Les analyses secondaires ont été réalisées à l'aide de l'interprétation visuelle du diagramme de Bland et Altman ((Bland & Altman, 1986).

Le plus petit changement détectable (SDC), qui est le plus petit changement observable ne pouvant être attribué à une erreur de mesure lors de l'évaluation d'un patient, a été calculé à l'aide de la formule $PMD = SEM \times 1,96 \times \sqrt{2}$ (de Vet et al., 2006) (où l'erreur standard de mesure $SEM = SD \times \sqrt{(1 - ICC)}$ (Harvill, 1991)).

Toutes les analyses statistiques ont été réalisées à l'aide du logiciel statistique SAS version 9.4 (SAS Institute, Cary, NC, USA).

Résultats

Participants

Quarante-deux participants ont été évalués entre août 2022 et mars 2023. Parmi eux, 5 ne répondaient pas aux critères de Budapest au moment de l'évaluation et 5 n'ont pas rempli intégralement les questionnaires. Au total, 32 participants ont été inclus dans l'étude, dont 21 ont rempli le B-CRPS-BPDS-F une seconde fois. Les données démographiques et les caractéristiques liées au SDRC sont présentées dans le tableau 1.

Tableau 1. Caractéristiques démographiques et cliniques des patients

	n=32
Age (années; moyenne; SD)	46.09 (14.72)
Genre (féminin; n; %)	25 (78.1%)
Durée des symptômes (années; median [Q1; Q3])	0.96 [0.63;1.96]
Côté affecté (droit; n; %)	19 (59.4%)
Membre affecté (supérieur; n; %)	14 (43.8%)
CRPS severity score (mean; SD)	9.13 (2.74)
Troubles de la perception du corps (B-CRPS-BPDS-F) (median; [Q1; Q3])	16 [14;24.5]
Douleur (intensité Moyenne dans la semaine) (moyenne; SD)	6.25 (1.72)
Douleur au mouvement (moyenne; SD)	6.91 (1.51)
Douleur au repos (moyenne; SD)	5.28 (2.41)
Promis 29 (total) (moyenne; SD)	83.56 (10.05)

Validité

Aucun effet plancher ou plafond n'a été observé pour le score total.

Le tableau 2 montre les corrélations entre le B-CRPS-BPDS-F et les résultats cliniques. Le B-CRPS-BPDS-F était significativement corrélé avec la douleur moyenne au repos (rho de Spearman (r) = 0,34), le score total PROMIS 29 ($r=0,40$) et les dimensions anxiété/dépression de PROMIS 29 ($r=0,35$).

Comme le montrent le tableau 3 et la figure 1, les résultats de l'EFA indiquent qu'il existe deux facteurs avec une valeur propre >1 (facteur 1 = 2,09 ; facteur 2 = 1,03) qui expliquent respectivement 63 % et 31 % de la variance totale du score. Nous pouvons observer que tous les items ont une charge positive modérée à importante sur le facteur 1, à l'exception des items 3 et 7. Les items 7, 5 et 4 ont une charge positive sur le facteur 2 alors que l'item 3 a une charge négative (tableau 4).

Tableau 2. Corrélations entre l'échelle de Bath (score total) et les critères d'évaluation

B-CRPS-BPD-F avec	Spearman's correlation [IC95%]
Douleur (Moyenne dans la semaine)	0.23 [-0.08;0.49]
Douleur (Moyenne au repos)	0.34 [0.05;0.56]
Douleur (Moyenne au mouvement)	-0.15 [-0.42;0.16]
CRPS Severity Score	0.25 [-0.05;0.51]
Promis29 score total	0.40 [0.12;0.62]
Promis29 Douleur	0.14 [-0.17;0.41]
Promis29 Physique	-0.01 [-0.30;0.29]
Promis29 anxiété	0.35 [0.06;0.59]
Promis29 dépression	0.35 [0.06;0.58]
Promis29 fatigue	0.13 [-0.17;0.41]
Promis29 sommeil	0.26 [-0.04;0.52]
Promis29 social	-0.18 [-0.45;0.12]

Tableau 3. Valeurs propres (Eigenvalue) et proportions de variances expliquées par chaque facteur

Facteur 1	Facteur 2	Facteur 3	Facteur 4	Facteur 5	Facteur 6	Facteur 7	Facteur 8
2.09	1.03	0.82	0.09	-0.10	-0.17	-0.21	-0.24
0.63	0.31	0.25	0.03	-0.03	-0.05	-0.06	-0.07

Figure 1. Scree plot représentant les valeurs propres (eigenvalues) pour l'Analyse Exploratoire Factorielle (EFA)

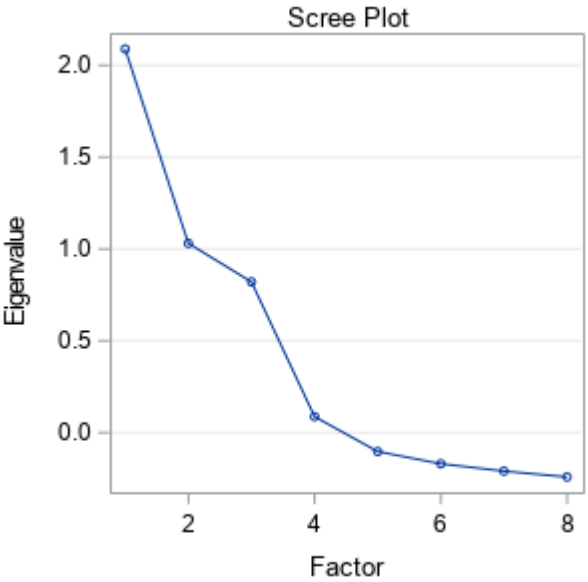


Tableau 4. Charges des facteurs pour l'Analyse Factorielle Exploratoire (EFA)

Items du B-CRPS-BPD-F	Factor 1	Factor 2
1. Détachement	0.44	0.27
2. conscience	0.42	0.17
3. Attention	0.14	-0.45
4. Emotions	0.48	0.48
5. Taille/température/pression/poids	0.44	0.55
6a. Amputation	0.80	-0.32
6b. Envie d'amputation	0.78	-0.29
7. Image mentale	0.17	0.55

Fiabilité

Le tableau 5 montre que la cohérence interne du B-CRPS-BPDS-F est discutable (α de Cronbach = 0,65). L'item 3 présente la corrélation item-total la plus faible (0,04) et l'item 7 est également inférieur à 0,30 (0,14). Après suppression de l'item 3, l'alpha de Cronbach = 0,70, ce qui indique une cohérence interne adéquate.

21 participants ont rempli le B-CRPS-BPDS-F une seconde fois (moyenne = 19,86(10,51)). La validité test-retest a été jugée acceptable (ICC = 0,92 [0,81;0,96]), avec un faible biais entre les deux tests (-0,42, [SD=3,89]). Les limites d'accord à 95 % pour la deuxième mesure étaient de 7,20 ; -8,04 ;

Le SDC était de 6,85 (SEM = 2,47).

Tableau 5. Consistance interne de l'échelle de Bath :
alpha de Cronbach et corrélation avec le score total

Cronbach's alpha score total	0.65
Cronbach's alpha sans l'item 3	0.70
Corrélations avec le score total (Spearman' Rho)	
1. Détachement	0.43
2. Conscience	0.43
3. Attention	0.04
4. Emotions	0.37
5. Taille/température/pression/poids	0.36
6a. Amputation	0.54
6b. Envie d'amputation	0.51
7. Image mentale	0.14

Synthèse des résultats

Notre objectif principal était de développer une version française de l'échelle Bath-BPD à l'aide d'une méthode de rétro-traduction. Notre objectif secondaire était d'examiner les propriétés psychométriques de cette version traduite.

Nos résultats montrent que la cohérence interne de l'échelle B-CRPS-BPDS-F n'a pas atteint une valeur suffisante ($>0,70$) pour être considérée comme adéquate (Cronbach' $\alpha = 0,65$). Cependant, nos résultats sont conformes à ceux rapportés par les auteurs originaux (c'est-à-dire 0,66), qu'ils considéraient comme adéquats (Lewis & Schweinhardt, 2012). L'item 3 évaluant l'attention présentait la corrélation item-total la plus faible ($< 0,30$) et, après suppression de cet item, la cohérence interne s'est améliorée (Cronbach' $\alpha = 0,70$), atteignant un niveau acceptable. Ces résultats sont cohérents avec ceux rapportés par Ten Brink et al. (2021), qui ont proposé une version révisée excluant cet item sur l'attention, dont ils ont constaté qu'il n'était pas suffisamment spécifique par rapport à un groupe de contrôle sans douleur. Cette étude soutient leur proposition d'une version révisée de l'échelle Bath BPD.

Le dessin (item 7) a également montré une faible cohérence interne. D'après notre expérience, cet item peut être difficile à appréhender pour les cliniciens non expérimentés qui ont exprimé des difficultés lors de l'accompagnement du patient, et pour les patients qui n'ont pas pratiqué le mouvement imaginé auparavant. Cependant, le dessin fournit une description qualitative et complète, ainsi que la possibilité pour les patients d'explorer leur perception avec plus de détails. La notation pourrait être trop limitée (0-2) pour refléter l'hétérogénéité des

expériences, car cet élément fournit d'autres informations utiles qui ne sont pas notées ici. Par exemple, les cliniciens peuvent l'utiliser pour explorer d'autres dimensions de l'imagerie mentale telles que la clarté de l'image, les sensations pendant l'imagerie mentale (douleur, lourdeur, émotions,...), la perspective de l'imagerie motrice (vue à la 1ère ou 3ème personne), ou les modalités (visuelles ou kinesthésiques)(E. A. Holmes & Mathews, 2010; Robin et al., 2021). Dans l'ensemble, cette évaluation semble représenter une partie importante du concept de perception corporelle.

L'item 4 sur les émotions (*emotional feelings* dans la version originale) s'est avéré difficile à traduire, car les émotions et les sentiments renvoient à des concepts différents en français. De plus, au cours du processus de traduction, les personnes atteintes de SDRC ont indiqué qu'elles pouvaient éprouver des sentiments forts à l'égard de leur membre affecté, mais qu'elles avaient des difficultés à les exprimer comme étant positifs ou négatifs. La notation de cet item pourrait bénéficier d'une clarification supplémentaire.

Conformément aux deux autres études de validation interculturelles, nous n'avons pas trouvé de corrélation avec l'intensité moyenne de la douleur (Mibu et al., 2020 ; Tschopp et al., 2018). A l'instar de Tschopp et al. (2018), aucun effet de plancher ou de plafond n'a été constaté. Le CDS est inférieur (6,85) à celui précédemment rapporté (10,0) (Tschopp et al., 2018) et devra faire l'objet d'études complémentaires.

L'analyse factorielle exploratoire a décrit une échelle multidimensionnelle, avec 2 facteurs principaux. Cela peut refléter le fait que le concept de perception corporelle comprend lui-même une "constellation de symptômes" (Haggard et al., 2013) et plusieurs aspects de la perception (Lewis & Schweinhardt, 2012). Galer et al. ont séparé la négligence cognitive et la négligence motrice dans leur questionnaire neurocomportemental, tandis que Lewis et al. indiquent plusieurs "composantes" (Lewis et al., 2010). Le facteur 2 inclut l'item 7 ainsi que l'item 4 sur les sentiments émotionnels et l'item 5 décrivant les différences perceptives. Cette association illustre la complémentarité des deux items. Ici aussi, l'item sur l'attention a une charge négative ou faible sur le facteur 2 et le facteur 1. C'est la première fois qu'une telle analyse est menée. Il sera intéressant qu'une analyse confirmatoire soit menée.

Cette étude présente plusieurs limites.

Tout d'abord, la taille de notre échantillon était faible, en particulier pour l'analyse des retests. Par rapport aux autres études, la nôtre incluait plus de participants en phase aiguë et avait plus de SDRC affectant les membres inférieurs. Les implications de la localisation du SDRC ne sont pas claires et pourraient influencer les résultats. Deuxièmement, nous n'avons pas réalisé de validité de construit avec le *Neurobehavioral Questionnaire* de Galer (B. S. Galer & Jensen, 1999), car il n'est pas disponible en français. Ten Brink et al. (2021) ont montré une

relation positive très importante entre les deux échelles, soutenant le fait qu'elles évaluent un construit similaire. La présente étude ne peut pas confirmer ces résultats. Troisièmement, aucun groupe contrôle (comparaison avec un groupe sans douleur ou avec un groupe avec douleur non-SDRC) n'a été impliqué, empêchant toute indication sur les spécificités du SDRC. Quatrièmement, il n'a pas été demandé aux participants s'ils étaient familiers avec les tâches d'imagerie motrice, et leurs capacités et performances en imagerie motrice n'ont pas été évaluées (Moran et al., 2015). Nous pensons que cela peut influencer leur capacité à produire une image mentale et à la décrire en détail dans un temps limité. Comme l'état corporel et la douleur, qui sont très inconstants, peuvent influencer l'image corporelle (MacIntyre et al., 2022), l'étude de leur influence sur la perception du corps fournirait des informations utiles.

Conclusion

Cette étude fournit une version française validée de l'échelle de perturbation de la perception corporelle du CRPS de Bath. Elle a montré une bonne fiabilité test-retest, pas d'effet plancher ou plafond, des corrélations faibles avec la douleur au repos et la qualité de vie et, à l'exception de l'item 3, elle a montré une cohérence interne adéquate.

Il est important d'évaluer les troubles de la perception corporelle dans un contexte clinique et de recherche afin d'élucider la relation entre les troubles de la perception corporelle, la douleur et l'apparition et le maintien des symptômes du CRPS. Le B-CRPS-BPD fournit de nombreuses informations qualitatives et quantitatives sur les troubles de la perception corporelle. Son originalité réside dans le dessin de l'image mentale du membre affecté, qui nécessite une coopération entre le patient et l'évaluateur.

DISCUSSION GENERALE

Les troubles de la perception du corps (TPC) ont longtemps été ignorés au profit de signes cliniques et symptômes parfois spectaculaires. Ils sont désormais reconnus (Goebel et al., 2019) mais encore peu intégrés en pratique clinique. Pour ce faire, il est nécessaire de les **décrire** afin de les **évaluer** de manière pertinente et ainsi les **traiter** efficacement.

Décrire les troubles de la perception du corps dans le SDRC

Afin de décrire les TPC, il est primordial de définir le concept et ses limites.

Un besoin de définition

La définition de la perception du corps (non spécifique au SDRC) n'est pas uniforme. Elle dépend notamment du champ de spécialités dans lequel nous nous plaçons (principalement douleur/psychologie). Le travail de revue systématique des moyens d'évaluation des TPC dans le SDRC est également passé par un temps de définition des concepts (Acapo et al., 2022). Dans un but d'exhaustivité, la définition la plus large a été retenue, basée sur les symptômes plutôt que sur les concepts : "Body perception disturbances referred to sensory disturbances that are reported regarding the affected limb such as the feeling of foreignness, strangeness, distortion or differences in shape, size, length, heaviness, etc. They can also be directly mentioned as neglect-like symptoms or body perception disturbances" (Acapo et al., 2022). Nos résultats ont montré un manque d'uniformité des définitions. Dans leur revue systématique de 2022 sur le lien « body-mind » dans les douleurs musculosquelettiques chroniques, Oliveira et al. (2022) regroupent la conscience du corps (c'est-à-dire la capacité des individus à être conscients de leurs propres états/processus/actions corporels), les représentations du corps (schéma corporel et image du corps) et le sentiment d'appartenance dans le terme « expériences corporelles » (bodily experiences). Les auteurs relèvent que les concepts n'étaient définis explicitement que dans 1/3 des articles inclus, les définitions étant totalement absentes dans une grande partie des articles (Oliveira et al., 2022). Ceci illustre à nouveau le manque de consensus autour des concepts. Ces « expériences corporelles » rejoignent les définitions larges d'image du corps de Lotze et Moseley (2007) ("the way one's body feels to its owner") et de troubles de la perception du corps de Lewis (2012), proposées pour le SDRC.

Il est intéressant de noter que les TPC sont parfois qualifiés de symptômes psychologiques (Harnik et al., 2023), neuropsychologiques (Echalier et al., 2020 ; Halicka et al., 2020), de

dysfonction cognitive affectant la représentation mentale et la perception du membre (De Paepe et al., 2020) ou de dysfonction neurocognitive (Kuttikat et al., 2017).

Ainsi, faute de définition précise, la description des symptômes permet de caractériser ces troubles.

Une description incomplète

A partir de la fin des années 90, les TPC ont pris une place plus importante dans la littérature spécialisée dans la douleur et le SDRC. Leur exploration a débuté par des observations cliniques d'experts (B. Galer et al., 1995), des études exploratoires (B. S. Galer & Jensen, 1999) puis de la recherche qualitative (Lewis et al., 2007). Ces travaux ont abouti à la création de deux questionnaires spécifiques au SDRC : le Neurobehavioral Questionnaire (B. S. Galer & Jensen, 1999) et l'échelle de Bath (Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale) (Lewis & McCabe, 2010). Parallèlement, la caractérisation des TPC a été menée avec une majorité de tests neuropsychologiques explorant certains aspects de la perception du corps (schéma corporel+/image du corps) comme l'acuité tactile, la description de la visualisation du membre atteint ou le test de reconnaissance de latéralité (LLRT).

On retrouve de manière cohérente dans la littérature :

- une perception du membre plus gros (G. L. Moseley, 2005 ; Peltz et al., 2011)
- une diminution de l'acuité tactile (évaluée par le test de discrimination 2 points) (McCabe et al., 2003 ; G. L. Moseley et al., 2009; Pleger et al., 2005)
- une perturbation de la proprioception (Bank et al., 2013 ; Brun et al., 2019)
- une augmentation du temps de réponse à la tâche de reconnaissance de latéralité (LLRT) (Bultitude et al., 2017; G. L. Moseley, 2004; Reinersmann et al., 2010; Schwoebel et al., 2001; Wittayer et al., 2018)

On retrouve avec des résultats contrastés :

- un biais visuo-spatial (tâches de jugement de milieu) (Sumitani et al., 2007)
- une négligence somato-spatiale (ou biais d'attention visuo-spatial) (tâches de jugement temporel d'un stimulus tactile) (Bultitude et al., 2017; Filbrich et al., 2017)
- des troubles moteurs selon la position dans l'espace (Reid et al., 2018).

Ces résultats nous donnent l'image clinique de patients avec des troubles perceptifs, des troubles de la sensibilité et des troubles moteurs pouvant être modifiés par l'espace dans

lequel le membre atteint se trouve. Cependant, cette présentation ne semble pas uniforme et souligne l'hétérogénéité des TPC. De futurs travaux pourront déterminer si des sous-types ou profils de TPC peuvent se distinguer.

De plus, on remarque que les évaluations concernent principalement le schéma corporel. Au vu des différentes dimensions des TPC recueillis dans les études qualitatives, cette image est incomplète. En effet, peu d'études cherchent à compléter leurs résultats en utilisant des méthodes de triangulation, par exemple avec des protocoles mixtes (qualitatifs et quantitatifs) (Oliveira et al., 2022).

Du membre atteint vers le corps dans son intégralité

En reprenant la définition de la perception du corps de Lotze et Moseley (2007) pour décrire l'expérience du « soi physique », on peut s'interroger sur le « corps » en question. Si le membre atteint est bien décrit, le corps dans son intégralité n'est pas exploré. Dans la littérature spécialisée dans la douleur, l'accent est en effet mis sur les membres atteints (par le SDRC, la main après un AVC (Haslam et al., 2022) ou l'arthrose par exemple (Tanaka et al., 2021)) ou sur une partie du corps atteinte (lombalgie (L. G. Moseley, 2008)). Similairement, l'item 7 de l'échelle de Bath demande au patient de décrire une image mentale de ses membres atteints et non-atteints, sans questionner sur le corps entier.

Ainsi, il existe peu de données, généralement anecdotiques et peu mises en avant concernant les TPC du corps en entier chez les personnes atteintes de SDRC (Biran et al., 2022; Tajadura-Jiménez et al., 2017). Cependant, il paraît difficile d'imaginer que les troubles de la représentation soient confinés à un membre et qu'ils ne s'accompagnent pas de modifications plus globales à l'échelle du corps.

En effet, des résultats montrent que les facteurs sociaux et contextuels peuvent influencer les perceptions visuospatiales. Les effets de l'état corporel ont été montrés sur la perception spatiale (estimation d'une distance ou du degré d'une pente), avec une influence de l'âge, du site de la douleur, de la glycémie (preuves contrastées pour la condition physique, les manipulations de la taille du corps, les charges externes ou l'intéroception) (MacIntyre et al., 2022). Il n'existe pas de données à ce jour dans la population atteinte de SDRC, or leur état corporel dégradé par la pathologie (douleur, fatigue, déconditionnement à l'effort) pourrait représenter un facteur non négligeable.

Concernant la conscience corporelle avec l'intéroception (c'est-à-dire la perception des sensations corporelles et de l'état interne du corps), elle peut être évaluée par le questionnaire MAIA (Multidimensional Assessment of Interoceptive Awareness)(Mehling et al., 2012). Le

MAIA explore 8 dimensions avec 32 items (la prise de conscience, les capacités de distraction, la régulation attentionnelle, la conscience émotionnelle, l'inquiétude, l'autorégulation, l'écoute du corps et la confiance). Les patients notent de 0 à 5 la fréquence des situations (0= jamais ; 5 = toujours). Echalié et al. (2020) n'ont pas retrouvé de différences entre leur groupe de patients atteints de SDRC au membre inférieur et leur groupe contrôle sain sur le score total. En revanche, les dimensions de prise de conscience d'une sensation corporelle (« je remarque les parties de mon corps où je suis à l'aise »), d'inquiétude (« je peux rester calme et ne pas m'inquiéter lorsque je ressens de l'inconfort ou de la douleur ») et de confiance dans les expériences corporelles (« je fais confiance à mes sensations corporelles ») montrent que les patients atteints de SDRC ont tendance à plus observer leurs sensations corporelles mais ont moins confiance en celles-ci. Ceci semble cohérent avec les altérations de la sensibilité comme les sensations référées (sensations perçues à un endroit après la stimulation d'une autre zone) (McCabe et al., 2003), les sensations spontanées (Echalié et al., 2020) ou encore la dysynchiria (Acerra & Moseley, 2005) que peuvent expérimenter les patients avec un SDRC. En y ajoutant le caractère particulièrement changeant et imprévisible des symptômes, donc parfois ininterprétables, ceci concourt à des perturbations des expériences corporelles. Ces thèmes se retrouvent dans une étude qualitative incluant des patients souffrant de douleurs chroniques (non SDRC) où la plupart rapportent rechercher dans leur corps les sensations douloureuses qu'ils essayaient d'interpréter ensuite (Sündermann et al., 2018). Concernant le SDRC, ceci est évoqué de manière anecdotique, comme des troubles de la reconnaissance de parties du corps (Louw et al., 2018) ou un manque de confiance dans les sensations corporelles (« I couldn't trust my body ») (Johnston-Devin et al., 2021).

L'attention portée au membre atteint est également un des symptômes décrits dans les TPC. La vigilance accrue envers une zone douloureuse peut entraîner des distorsions de la perception de cette partie du corps avec de la préoccupation (Haslam et al., 2022). Les observations cliniques montrent également une attention moindre envers le membre, décrite comme de la négligence (B. Galer et al., 1995).

L'item 3 de l'échelle de Bath porte sur la quantification de cette attention (quelle attention accordez-vous à votre membre : Le regardez-vous et y pensez-vous souvent ? 0= attention permanente -> 10 = aucune attention). Dans notre étude, cet item se distingue dans l'évaluation des propriétés psychométriques en ayant la cohérence interne la plus faible de tous les items (alpha de Cronbach<0.30) et en faisant uniquement partie d'un facteur ayant une faible variance (0.25). Ten Brink et al. (2021) ont également retrouvé une cohérence interne faible pour cet item. Ils n'ont pas retrouvé de valeurs différentes entre sujets sains et sujets atteints de SDRC et ont proposé une échelle de bath révisée en l'excluant. Une explication pourrait être le décalage entre les perceptions discordantes, l'attention tournée vers elles et

les interprétations difficiles qui emmèneraient des comportements inadaptés. On remarque aussi que la formulation de la question porte sur le membre et non pas sur les sensations ressenties dans le membre. Deux patients ayant participé à l'adaptation de l'échelle ont parlé de difficultés à comprendre cette question, qui comprenait pour eux 3 questions différentes.

La question de l'attention n'est donc pas résolue et bénéficierait de plus d'investigations.

D'un point de vue comportemental, la représentation du corps est liée à l'adaptation à la douleur et peut être associée au développement de stratégies de gestion (coping). Par exemple, des émotions négatives telles que l'aversion peut entraîner un comportement d'évitement des miroirs (Sündermann et al., 2020). Ces auteurs proposent un modèle cognitivo-comportemental de l'image du corps et de la douleur chronique où des stratégies de gestion de la douleur inadaptées entraînent des changements de l'image du corps de la personne (image du corps déformée avec altération de la perception de l'aspect et de la fonction) qui déclenchent des émotions négatives. Des stratégies de gestion de l'image du corps inadaptées peuvent maintenir cette image négative et augmenter l'expérience douloureuse (Sündermann et al., 2020) (voir annexe 6). Cet abord comportemental n'est pas encore exploré dans le SDRC. Enfin, il est étonnant de ne pas retrouver de littérature abondante sur les troubles cognitifs dans le SDRC. Il est en effet largement établi que la douleur chronique a des effets négatifs sur la cognition, la mémoire, l'attention, la flexibilité mentale,... (Attal et al., 2014; Linton et al., 2018). Dans les études neuropsychologiques, la douleur est peu ou pas définie (sauf pour la fibromyalgie) (Baudic, 2016). Le constat inverse peut être fait dans le SDRC (Margalit et al., 2014) où la douleur reste le critère clinique le plus exploré.

Ainsi, pour décrire de façon plus complète les TPC dans le SDRC, il pourrait être intéressant d'inclure les troubles perceptifs concernant le corps entier ainsi que l'intéroception, les troubles cognitifs mais également les comportements, notamment induits par la douleur.

Des données émergentes vers la fonction

L'objectif de la prise en charge rééducative est le maintien ou la restauration de l'utilisation du membre (Groupe de projet spécifique (GPS) de la SFETD, 2019). Il existe des preuves émergentes reliant les TPC et la fonction.

Une image du corps négative peut causer de la honte due à des limitations corporelles ressenties et engendrer un évitement de l'activité physique (Grogan, 2006). Levenig et al.

(2019) ont montré qu'un groupe de patients avec une lombalgie chronique avait une image du corps plus négative dans les dimensions d'acceptation de soin, d'efficacité physique et de santé en comparaison avec à un groupe contrôle sans lombalgie. Leur niveau d'incapacité était corrélé avec l'image du corps négative. Dans le SDRC, un patient ayant l'image de sa main gonflée peut évaluer son aspect négativement (« j'ai l'air défectueux ») et cacher sa main en réaction et ainsi moins s'en servir (Sündermann et al., 2020). Cette analyse comportementale pointe des effets multiples, notamment sur la fonction.

Un trouble de la perception peut également avoir des conséquences directes sur la fonction par l'altération des capacités motrices. En effet, les représentations du corps et de l'espace péri-personnels sont modifiés par la capacité à se servir des membres. Ces capacités peuvent être altérées temporairement (immobilisation), de manière permanente (amputation) ou avec l'utilisation d'objets (Vittersø et al., 2020). La perception précise de la taille de la main est essentielle à l'utilisation efficace de la main dans sa fonction d'évaluation de l'environnement et de manipulation d'objets (Haslam et al., 2022). La perception de la taille des membres influence également la perception de propriétés métriques telles que la taille et la forme des objets. De plus, avec des troubles de la proprioception, les informations limitées et peu précises sur la position du membre ou le mouvement peuvent entraîner des mouvements moins performants (Lewis et al., 2011). Par ces aspects, on peut émettre l'hypothèse que les TPC peuvent avoir des conséquences sur la fonction.

Evaluer les troubles de la perception du corps

L'évaluation de ces troubles n'avait également pas fait l'objet de synthèse et de recommandations. Ceci a constitué l'objectif principal de la revue systématique, *Assessment of body perception disturbances in complex regional pain syndrome: A systematic review using the COSMIN guideline* (Acapo et al., 2022).

Le but de cette revue a été de récolter de manière rigoureuse et exhaustive les définitions des TPC dans le SDRC et leurs moyens d'évaluation. Des bases de données biomédicales et en sciences sociales ont été interrogées. Les difficultés connues des revues systématiques ont été retrouvées, sans surprise vis-à-vis de ce travail original par exemple lors de la rédaction d'une liste de synonymes complète. Les recommandations COSMIN (COnsensus-based Standards for the selection of health Measurement Instruments)(Mokkink et al., 2010) utilisées ont permis de produire des recommandations en accord avec la littérature par l'évaluation de

la qualité des outils d'évaluation et des biais existants. Cet outil codifié et validé assure la reproductibilité du travail et pourra être mis à jour.

Les résultats de cette revue systématique montrent une évaluation peu unifiée des TPC, avec l'utilisation d'un des deux questionnaires spécifiques ou bien l'utilisation de tests neuropsychologiques qualifiés d'objectifs (ex : LLRT) ou bien une association des deux. Parmi ces moyens, l'échelle de Bath s'est distinguée par son utilisation plus fréquente, son développement appuyé sur des données qualitatives publiées (bien que le processus de création de l'échelle ne soit pas disponible) et les propriétés psychométriques les plus étudiées.

Déjà traduite et validée en allemand et en japonais, la suite du travail a donc consisté en la traduction, l'adaptation transculturelle et la validation de l'échelle de Bath en français afin de disposer d'un outil fiable utilisable pour les patients francophones et les projets de recherche en France (Translation, cross-cultural adaptation and validation of the French version of the Bath Body Perception Disturbance Scale in Complex Regional Pain Syndrome, Acapo et al, In Submission). La traduction et adaptation transculturelle a suivi les recommandations de Beaton et al. (2000), avec un processus de traduction inverse et de test sur la population cible. Les allers-retours entre traducteurs, experts-professionnels de santé et patients ont produit des échanges riches. Par exemple, l'item 1 interroge sur le sentiment d'appartenance du membre (how much a part of your body does the affected part feel ? / dans quelle mesure ressentez-vous votre membre affecté comme faisant partie de votre corps ?). A cette question, que les traducteurs ont trouvée « bizarre » et qu'ils ont traduit littéralement, les patients interrogés y ont ajouté la sémantique en s'appuyant sur leur expérience (« je préfère l'utilisation du verbe ressentir, ça correspond mieux », « la question est très claire »). Ces situations se sont répétées, soulignant l'importance du processus par étapes et du travail en collaboration avec les patients.

La version finale, approuvée par les auteurs originaux, a suivi ensuite un processus de validation au cours duquel 31 patients atteints de SDRRC ont rempli l'échelle de Bath (avec un questionnaire de qualité de vie, de sévérité des symptômes et une évaluation de la douleur) lors d'une consultation de routine. L'échelle a ensuite été remplie une seconde fois 3 à 7 jours après pour le test-retest (Coefficient de Corrélation Intraclasse).

L'analyse statistique a suivi la taxonomie COSMIN, utilisant les dimensions de validité (degré auquel l'instrument mesure le concept qu'il est censé mesurer) et de fiabilité (degré auquel la mesure ne contient pas d'erreur). Nos résultats sont en accord avec les travaux précédents (Lewis & Schweinhardt, 2012; Mibu et al., 2020; Ten Brink et al., 2021; Tschopp et al., 2018) (cohérence interne α de Cronbach = 0.65 et 0.70 en retirant l'item 3 sur l'attention c'est-à-dire

discutable et acceptable respectivement), ICC = 0.92 (Coefficient de Corrélation Intraclasse ; excellent). Les corrélations avec la qualité de vie et l'intensité de la douleur sont faibles (Spearman $\rho < 0.5$). La Minimal Detectable Change (MCD) est de 6.85.

L'originalité de ce travail réside dans l'utilisation pour la première fois d'une analyse de l'unidimensionnalité de l'échelle par une analyse factorielle exploratoire (EFA). Cette analyse a mis en lumière 2 facteurs principaux expliquant 63% et 31% des variances.

Le premier facteur comprenait les questions sur l'envie d'amputation (questions 6a et 6b), les différences de perceptions (question 5), les émotions (question 4), la conscience de la position du membre (question 2) et le sentiment d'appartenance (question 1). Ceci correspond aux symptômes classiques pour les TPC dans le SDRC. Le second facteur était composé de la question sur les émotions (4) et du dessin de l'image mentale du membre (item 7). Il est intéressant de noter que l'item du dessin, qui peut capturer de manière qualitative et explicite d'autres sujets abordés dans le facteur 1 (émotions, différences de perception) soit isolé. Ceci peut être dû à la cotation très restrictive de l'item (0-2). Ce résultat, appuyé par l'analyse pas à pas de Cronbach, permet d'illustrer le fait que l'échelle de Bath évaluerait un concept multiple : il s'agirait bien de troubless de la perception du corps, voire de perceptionss du corps.

Il est probable que tous les patients ne nécessiteront pas une évaluation poussée des TPC mais les données ne sont pas complètes pour guider le clinicien. Notre travail met à disposition un outil validé pour les cliniciens et patients francophones, permettant d'accéder à l'évaluation des TPC dans le SDRC.

Perspectives : Traiter les troubles de la perception du corps

Avec les avancées dans l'évaluation, la littérature récente a entamé l'exploration du traitement des TPC. Encore rares, les articles disponibles utilisent des stratégies thérapeutiques justifiées par les hypothèses physiopathologiques de qui sous-tendent les TPC. De nombreuses questions sont dans la continuité de notre travail. Parmi elles : quelle est l'influence des TPC dans le développement et la chronicisation du SDRC ? quels patients nécessiteront une évaluation et une prise en charge thérapeutique spécifique aux TPC ? Quels sont les effets de l'Imagerie Motrice Graduelle ?

Les mécanismes pathophysiologiques en jeu dans les TPC ne sont pas encore connus et plusieurs théories sont proposées pour expliquer l'origine des TPC ainsi que leur lien avec la douleur. Toutes ont en commun d'y explorer une origine centrale.

Les changements de la représentation corticale du membre causant une incongruence reste l'hypothèse la plus répandue (Echalier et al., 2020; Maihofner et al., 2003; Peltz et al., 2011; Schwoebel et al., 2001; Swart et al., 2009), malgré la remise en question récente concernant l'existence de changements de la taille de la représentation du membre atteint dans S1 (Mancini et al., 2019). Reinersmann et al (2013) proposent l'implication de la réorganisation corticale de la représentation du membre affecté (dans les cortex primaires somatosensoriel et moteur) ainsi que d'autres régions cérébrales impliquées dans la perception visuo-spatiale dans le développement des TPC. Graziano et Botvinick (2002) proposent que la perte du sens de soi soit due à une perturbation dans la convergence des informations visuelles, proprioceptives, tactiles et motrices. Moseley et al. proposent que des modifications de la représentation du corps puissent apparaître quand des stratégies de gestion de l'individu en relation avec la réalité de leur corps sont dépassées par des facteurs comme une blessure ou une incapacité (Haslam et al., 2022; Price, 1995). Haggard et al (2013)proposent que la douleur, en tant que source d'information pour le corps, participe à la représentation corticale multisensorielle qui sous-tend la perception du corps. La nature des interactions reste à préciser. Lewis et McCabe proposent l'hypothèse que l'incongruence entre les informations périphériques et la représentation centrale du membre (Lewis & McCabe, 2010) soit à l'origine de la douleur. Dans leur expérimentation portant sur la modification de l'aspect du membre en réalité virtuelle, Lewis et al (2021) proposent le modèle explicatif suivant pour expliquer le fait que la vue du membre modifié pour correspondre à l'apparence désirée puisse diminuer la douleur : le stimulus de la vue de la main désirée (« desired-appearance illusion ») correspondrait au schéma corporel inné et restaurerait la congruence. La douleur serait une émergence résultant d'une incongruence entre l'image du corps et le schéma du corps qui, une fois la congruence restaurée, peut s'améliorer rapidement.

Les bases réflexives sur les stratégies de prise en charge thérapeutique des TPC sont construites sur les mécanismes, la physiopathologie et les symptômes observés. Le corps étant l'objet le plus multisensoriel qu'il soit (Riva, 2018), les thérapies proposées sont également multisensorielles. Les traitements proposés utilisent des illusions multisensorielles et des stratégies d'entraînement et de modification des perceptions pour encourager le mouvement et la fonction. La thérapie miroir (avec ou sans stimulation tactile ajoutée) (Kotiuk et al., 2019; Osumi et al., 2015), la manipulation de la taille du membre par réalité virtuelle(Lewis et al., 2021), l'adaptation prismatique et l'entraînement sensoriel (Schmid et al., 2017) sont des exemples de modalités thérapeutiques. A l'instar des modalités proposées dans le traitement de la douleur du membre fantôme, les techniques visuomotrices semblent prometteuses (Giroux & Sirigu, 2003). Les stratégies sont orientées pour encourager la

participation du membre atteint et sa perception, comme pour la thérapie miroir ou la rééducation sensorielle (Lewis et al., 2007, 2021).

Ce champ de recherche est très récent et peu de preuves sont disponibles à l'heure actuelle.

L'étude de Lewis et al. (2021) a montré des changements rapides de la douleur et des troubles de la perception du corps avec une modification de l'aspect de la main par réalité virtuelle.

Hirakawa et al. (Hirakawa, Fujiwara, et al., 2020; Hirakawa, Imai, et al., 2020) ont publié 2 cas uniques de patients atteints au membre supérieur et membre inférieur rapportant des troubles de la perception du corps (évalués par le questionnaire de Galer adapté par Frettlöh) dont des émotions de type dégoût et d'aversion envers le membre. L'exposition à la vision de l'ombre du membre et d'intervention sur l'ombre du membre (thérapeute touchant l'ombre) ont emmené des améliorations de paramètres de la perception du corps (sentiment d'appartenance, émotions), de la douleur et de la fonction.

Dans un essai contrôlé, 30 patients atteints de SDRC (intervention : thérapie miroir et exercices thérapeutiques) étaient comparés à un groupe contrôle (20 patients atteints de SDRC ; intervention : exercices thérapeutiques) (Kotiuk et al., 2019). Après 6 semaines de traitement, les auteurs ont montré une amélioration plus importante dans le groupe thérapie miroir que dans le groupe contrôle (différence significative pour les 5 premiers items de l'échelle de Bath ; à savoir, sentiment d'appartenance, émotions, attention). Les améliorations étaient en moyenne de 1.6 points sur l'échelle de Bath après 3 jours et 6.64 après les 6 semaines de traitement, atteignant presque la SDC calculée dans notre étude (6.85), seuil qui permet d'être confiant que la mesure est bien due à un changement réel.

Afin d'investiguer l'effet de la perception sensorielle (sensibilité superficielle) sur la douleur et la perception du corps (critère secondaire), un protocole d'exercices à domicile est en cours de réalisation (recrutement terminé) utilisant un dispositif de stimulation électrique (Sensory Training System, STS) relié à un ordinateur (Coggins et al., 2023). Le système est composé de 4 électrodes placées sur un brassard. Le patient contrôle le niveau de stimulation par l'ordinateur pour qu'il soit confortable. Deux jeux d'entraînement sont proposés où le patient doit reconnaître quelle électrode est stimulée ou quelle séquence de stimulation est proposée. Une activité de relaxation par la musique est proposée avec le rythme ressenti dans les électrodes. Les patients s'entraîneront à raison de 30 minutes par jour pendant 30 jours. Les auteurs souhaitent déterminer quels sont les effets de ce type d'entraînement sur la douleur, la sensibilité et les émotions envers le membre (évalués avec l'échelle de Bath).

Les essais cliniques disponibles sont donc encore très peu nombreux et ne permettent pas de guider la pratique clinique. Avec l'échelle de Bath disponible en français et validée, des essais cliniques vont pouvoir être menés par les équipes de soins françaises.

Le but de notre projet suivant est de poursuivre cette exploration.

Afin de déterminer l'effet de l'Imagerie Motrice Graduelle sur les TPC dans le contexte de soins primaires, notre équipe a récemment déposé une lettre d'intention au Programme Hospitalier de recherche Infirmière et Paramédical (PHRIP 2023 ; coordinateur : S. ACAPO) dans la continuité de ce travail (annexe 7). Le projet est un essai clinique contrôlé et randomisé en soins primaires sur 84 patients. L'objectif principal est d'évaluer les effets d'un programme d'Imagerie Motrice Graduelle de 6 semaines sur les TPC (évalués avec l'échelle de Bath ; critère d'évaluation principal). Les objectifs secondaires concernent la douleur, la fonction, la qualité de vie, le catastrophisme, la consommation médicamenteuse et l'Impression Globale de Changement par le Patient. L'intervention se fera au cabinet de kinésithérapeutes libéraux co-investigateurs qui recevront une formation standardisée. Des patients atteints de SDRC au membre supérieur (diagnostic suivant les critères de Budapest) seront répartis aléatoirement en deux groupes. Le groupe contrôle effectuera une prise en charge rééducative habituelle, à savoir des exercices thérapeutiques au cabinet et à domicile ainsi que des mobilisations actives et passives du membre atteint. Le groupe intervention y rajoutera l'Imagerie Motrice Graduelle (imagerie motrice implicite, imagerie motrice explicite et thérapie miroir) supervisé par le kinésithérapeute et effectué à domicile. Les évaluations se feront avant, immédiatement après et 3 mois après l'intervention.

Les hypothèses sont les suivantes :

- L'Imagerie Motrice Graduelle est efficace sur les TPC, la douleur, la fonction, la qualité de vie et est perçue comme un outil efficace de traitement.
- L'Imagerie Motrice Graduelle a un effet plus important sur les TPC, la douleur, la fonction, la qualité de vie, la perception d'efficacité du traitement chez les patients ayant des TPC plus sévères.
- Les effets sont maintenus 3 mois après l'arrêt du traitement.

Un volet qualitatif permettra d'interroger les patients sur les troubles de la perception du corps, leurs vécus, leurs expériences et leurs représentations ainsi que les professionnels de santé sur leur pratique.

Cet essai clinique s'inscrit dans la suite de l'étude de Kotiuk et al. (2019) qui a montré l'amélioration des TPC (évalués par l'échelle de Bath) après 6 semaines de traitement avec la thérapie miroir. Notre projet est plus large, avec des critères d'évaluation secondaires qui permettront d'obtenir une image plus complète de la pertinence clinique de cette intervention.

A plus long terme, notre équipe travaille également sur un projet de cohorte multi-centrique visant à explorer l'influence des TPC sur le développement du SDRC. Les TPC

semblent être présents très tôt dans la symptomatologie du SDRC, il reste à déterminer quel est leur rôle dans son développement et s'ils représentent un facteur de risque. Ce projet permettra également de repérer les acteurs de soin et les filières à l'échelle du territoire ainsi que de diffuser l'évaluation des TPC.

Conclusion

Les troubles de la perception du corps représentent un champ émergeant dans la recherche et la clinique du SDRC. Ce travail a permis recenser les outils d'évaluations disponibles. Les troubles de la représentation du corps sont complexes et hétérogènes et, à l'heure actuelle, l'échelle de Bath est le moyen le plus fiable pour leur évaluation. Nous avons traduit puis validé sa version française dans la deuxième étude présentée ici. Il est désormais possible de cibler cette cible thérapeutique dans le SDRC en France.

Références

- Acapo, S., Osinski, T., Rulleau, T., Dupeyron, A., & Nizard, J. (2022). Assessment of body perception disturbances in complex regional pain syndrome: A systematic review using the COSMIN guideline. *European Journal of Pain*, *ejp.2032*. <https://doi.org/10.1002/ejp.2032>
- Acerra, N. E., & Moseley, G. L. (2005). Dysynchiria: Watching the mirror image of the unaffected limb elicits pain on the affected side. *Neurology*, *65*(5), 751–753.
<https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000178745.11996.8c>
- Antunovich, D., Tuck, N., Reynolds, L. M., & Bean, D. (2021). I don't identify with it": A qualitative analysis of people's experiences of living with Complex Regional Pain Syndrome. *Pain Medicine*, *pnab094*. <https://doi.org/10.1093/pm/pnab094>
- Attal, N., Masselin-Dubois, A., Martinez, V., Jayr, C., Albi, A., Fermanian, J., Bouhassira, D., & Baudic, S. (2014). Does cognitive functioning predict chronic pain? Results from a prospective surgical cohort. *Brain*, *137*(3), 904–917. <https://doi.org/10.1093/brain/awt354>
- Bank, P. J. M., Peper, C. (Lieke) E., Marinus, J., Beek, P. J., & van Hilten, J. J. (2013). Motor Dysfunction of Complex Regional Pain Syndrome Is Related to Impaired Central Processing of Proprioceptive Information. *The Journal of Pain*, *14*(11), 1460–1474.
<https://doi.org/10.1016/j.jpain.2013.07.009>
- Barad, M. J., Ueno, T., Younger, J., Chatterjee, N., & Mackey, S. (2014). Complex Regional Pain Syndrome Is Associated With Structural Abnormalities in Pain-Related Regions of the Human Brain. *The Journal of Pain*, *15*(2), 197–203. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2013.10.011>
- Barde-Cabusson, Y., & Osinski, T. (2017). Imagerie motrice graduelle. *EMC - Kinésithérapie-Médecine physique-Réadaptation*, *9*.

- Baudic, S. (2016). Douleur chronique, plaintes subjectives et atteintes cognitives. *Douleurs : Evaluation - Diagnostic - Traitement*, 17(4), 183–191.
<https://doi.org/10.1016/j.douler.2016.04.006>
- Bean, D. J., Johnson, M. H., Heiss-Dunlop, W., & Kydd, R. R. (2016). Extent of recovery in the first 12 months of complex regional pain syndrome type-1: A prospective study. *European Journal of Pain*, 20(6), 884–894. <https://doi.org/10.1002/ejp.813>
- Bean, D. J., Johnson, M. H., & Kydd, R. R. (2014). The outcome of complex regional pain syndrome type 1: A systematic review. *The Journal of Pain*, 15(7), 677–690.
- Beaton, D. E., Bombardier, C., Guillemin, F., & Ferraz, M. B. (2000). Guidelines for the process of cross-cultural adaptation of self-report measures. *Spine*, 25(24), 3186–3191.
- Beerthuizen, A., Stronks, D. L., van't Spijker, A., Yaksh, A., Hanraets, B. M., Klein, J., & Huygen, F. J. P. M. (2012). Demographic and medical parameters in the development of complex regional pain syndrome type 1 (CRPS1): Prospective study on 596 patients with a fracture: *Pain*, 153(6), 1187–1192. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2012.01.026>
- Beerthuizen, A., van 't Spijker, A., Huygen, F. J. P. M., Klein, J., & de Wit, R. (2009). Is there an association between psychological factors and the Complex Regional Pain Syndrome type 1 (CRPS1) in adults? A systematic review: *Pain*, 145(1), 52–59.
<https://doi.org/10.1016/j.pain.2009.05.003>
- Biran, I., Book, A., Aviram, L., Bregman, N., Bahagali, E., & Tripto, A. (2022). Body Structural Description Impairment in Complex Regional Pain Syndrome Type I. *Frontiers in Psychology*, 13, 853641. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2022.853641>
- Birklein, F. (2000). Neurological findings in complex regional pain syndromes—Analysis of 145 cases. *Acta Neurologica Scandinavica*, 101(4), 262–269. <https://doi.org/10.1034/j.1600-0404.2000.09008.x>

- Birklein, F., Ajit, S. K., Goebel, A., Perez, R. S. G. M., & Sommer, C. (2018). Complex regional pain syndrome—Phenotypic characteristics and potential biomarkers. *Nature Reviews Neurology*, *14*(5), 272–284. <https://doi.org/10.1038/nrneurol.2018.20>
- Birklein, F., & Dimova, V. (2017). Complex regional pain syndrome—up-to-date: *PAIN Reports*, *2*(6), e624. <https://doi.org/10.1097/PR9.0000000000000624>
- Birklein, F., Künzel, W., & Sieweke, N. (2001). Despite clinical similarities there are significant differences between acute limb trauma and complex regional pain syndrome I (CRPS I). *Pain*, *93*(2), 165–171. [https://doi.org/10.1016/S0304-3959\(01\)00309-8](https://doi.org/10.1016/S0304-3959(01)00309-8)
- Birklein, F., O’Neill, D., & Schlereth, T. (2015). Complex regional pain syndrome: An optimistic perspective. *Neurology*, *84*(1), 89–96. <https://doi.org/10.1212/WNL.0000000000001095>
- Birklein, F., & Schlereth, T. (2015). Complex regional pain syndrome—Significant progress in understanding: *PAIN*, *156*, S94–S103. <https://doi.org/10.1097/01.j.pain.0000460344.54470.20>
- Birklein, F., & Schmelz, M. (2008). Neuropeptides, neurogenic inflammation and complex regional pain syndrome (eRPS). *Neuroscience Letters*, *437*, 4.
- Birklein, F., Weber, M., & Neundorfer, B. (2000). Increased skin lactate in complex regional pain syndrome: Evidence for tissue hypoxia? *Neurology*, *55*(8), 1213–1215. <https://doi.org/10.1212/WNL.55.8.1213>
- Bland, J., & Altman, DG. (1986). Statistical methods for assessing agreement between two methods of clinical measurement. *The Lancet*, *327*(8476), 307–310. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(86\)90837-8](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(86)90837-8)
- Boichat, C., Llewellyn, A., Grieve, S., & McCabe, C. (2020). The Role of Nonmedical Therapeutic Approaches in the Rehabilitation of Complex Regional Pain Syndrome. *Current Treatment Options in Rheumatology*, *6*. <https://doi.org/10.1007/s40674-020-00156-9>

- Breimhorst, M., Dellen, C., Wittayer, M., Rebhorn, C., Drummond, P. d., & Birklein, F. (2018). Mental load during cognitive performance in complex regional pain syndrome I. *European Journal of Pain*, 22(7), 1343–1350. <https://doi.org/10.1002/ejp.1223>
- Breivik, H., & Stubhaug, A. (2016). Importance of early diagnosis of complex regional pain syndrome (CRPS-1 and CRPS-2): Delayed diagnosis of CRPS is a major problem. *Scandinavian Journal of Pain*, 11(1), 49–51. <https://doi.org/10.1016/j.sjpain.2015.11.009>
- Bruehl, S. (2010). An Update on the Pathophysiology of Complex Regional Pain Syndrome. *ANESTHESIOLOGY*, 113(3), 713–725. <https://doi.org/10.1097/ALN.0b013e3181e3db38>
- Bruehl, S. (2015). Complex regional pain syndrome. *British Medical Journal*, 350, h2730. <https://doi.org/10.1136/bmj.h2730>
- Bruehl, S., Harden, R. N., Galer, B. S., Saltz, S., Backonja, M., & Stanton-Hicks, M. (2002). Complex regional pain syndrome: Are there distinct subtypes and sequential stages of the syndrome? *Pain*, 95(1), 119–124.
- Bruehl, S., Maihöfner, C., Stanton-Hicks, M., Perez, R. S. G. M., Vatine, J.-J., Brunner, F., Birklein, F., Schlereth, T., Mackey, S., Mailis-Gagnon, A., Livshitz, A., & Harden, R. N. (2016). Complex regional pain syndrome: Evidence for warm and cold subtypes in a large prospective clinical sample. *PAIN*, 157(8), 1674–1681. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000000569>
- Brun, C., Giorgi, N., Pinard, A.-M., Gagné, M., McCabe, C. S., & Mercier, C. (2019). Exploring the Relationships Between Altered Body Perception, Limb Position Sense, and Limb Movement Sense in Complex Regional Pain Syndrome. *The Journal of Pain*, 20(1), 17–27. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2018.07.008>
- Brunner, F., Nauer, M., & Bachmann, L. (2011). Poor prognostic factors in complex regional pain syndrome 1: A Delphi survey. *Journal of Rehabilitation Medicine*, 43(9), 783–786. <https://doi.org/10.2340/16501977-0856>
- Bultitude, J. H., Walker, I., & Spence, C. (2017). Space-based bias of covert visual attention in complex regional pain syndrome. *Brain*, 140(9), 2306–2321. <https://doi.org/10.1093/brain/awx152>

- Bushnell, M. C., Čeko, M., & Low, L. A. (2013). Cognitive and emotional control of pain and its disruption in chronic pain. *Nature Reviews. Neuroscience*, *14*(7), 502–511.
<https://doi.org/10.1038/nrn3516>
- Christophe, L., Chabanat, E., Delporte, L., Revol, P., Volckmann, P., Jacquin-Courtois, S., & Rossetti, Y. (2016). Prisms to Shift Pain Away: Pathophysiological and Therapeutic Exploration of CRPS with Prism Adaptation. *NEURAL PLASTICITY*. <https://doi.org/10.1155/2016/1694256>
- Coggins, J., Grieve, S., Hart, D., Llewellyn, A., Palmer, M., Boichat, C., & McCabe, C. (2023). Sensory training system for use at home by people with complex regional pain syndrome in England: Protocol for a proof-of-concept study. *BMJ Open*, *13*(5), e070920.
<https://doi.org/10.1136/bmjopen-2022-070920>
- Cohen, H., McCabe, C., Harris, N., Hall, J., Lewis, J., & Blake, D. R. (2013). Clinical evidence of parietal cortex dysfunction and correlation with extent of allodynia in CRPS type 1: Parietal lobe dysfunction in CRPS. *European Journal of Pain*, *17*(4), 527–538.
<https://doi.org/10.1002/j.1532-2149.2012.00213.x>
- Coste, J., Rouquette, A., Valderas, J. M., Rose, M., & Leplège, A. (2018). The French PROMIS-29. Psychometric validation and population reference values. *Revue d'Épidémiologie et de Santé Publique*, *66*(5), 317–324. <https://doi.org/10.1016/j.respe.2018.05.563>
- Cronbach, L. J. (1951). Coefficient alpha and the internal structure of tests. *Psychometrika*, *16*(3), 297–334. <https://doi.org/10.1007/BF02310555>
- de Mos, M., de Bruijn, A. G. J., Huygen, F. J. P. M., Dieleman, J. P., Stricker, Ch. B. H., & Sturkenboom, M. C. J. M. (2007). The incidence of complex regional pain syndrome: A population-based study: *Pain*, *129*(1), 12–20. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2006.09.008>
- de Mos, M., Huygen, F. J. P. M., van der Hoeven-Borgman, M., Dieleman, J. P., Ch. Stricker, B. H., & Sturkenboom, M. C. J. M. (2009). Outcome of the Complex Regional Pain Syndrome. *The Clinical Journal of Pain*, *25*(7), 590. <https://doi.org/10.1097/AJP.0b013e3181a11623>

- De Paepe, A., Legrain, V., Van der Biest, L., Hollevoet, N., Van Tongel, A., de wilde, L., Jacobs, H., & Crombez, G. (2020). An investigation of perceptual biases in complex regional pain syndrome. *PeerJ*, *8*, e8819. <https://doi.org/10.7717/peerj.8819>
- de Rooij, A. M., de Mos, M., Sturkenboom, M. C. J. M., Marinus, J., van den Maagdenberg, A. M. J. M., & van Hilten, J. J. (2009). Familial occurrence of complex regional pain syndrome. *European Journal of Pain*, *13*(2), 171–177. <https://doi.org/10.1016/j.ejpain.2008.04.004>
- de Rooij, A. M., Gosso, F. M., Haasnoot, G. W., Marinus, J., Verduijn, W., Claas, F. H. J., Van Den Maagdenberg, A. M. J. M., & Van Hilten, J. J. (2009). HLA-B62 and HLA-DQ8 are associated with Complex Regional Pain Syndrome with fixed dystonia. *Pain*, *145*(1), 82–85. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2009.05.015>
- De Souza, N. S., Martins, A. C. G., Bastos, V. H. D. V., Orsini, M., Leite, M. A. A., Teixeira, S., Velasques, B., Ribeiro, P., Bittencourt, J., Matta, A. P. da C., & Filho, P. M. (2015). Motor imagery and its effect on complex regional pain syndrome: An integrative review. *Neurology International*, *7*(3). <https://doi.org/10.4081/ni.2015.5962>
- de Vet, H. C. W., Terwee, C. B., Knol, D. L., & Bouter, L. M. (2006). When to use agreement versus reliability measures. *Journal of Clinical Epidemiology*, *59*(10), 1033–1039. <https://doi.org/10.1016/j.jclinepi.2005.10.015>
- Decety, J. (1996). Do imagined and executed actions share the same neural substrate? *Cognitive Brain Research*, *3*(2), 87–93.
- Decety, J., & Jeannerod, M. (1995). Mentally simulated movements in virtual reality: Does Fitt's law hold in motor imagery? *Behavioural Brain Research*, *72*(1), 127–134.
- den Hollander, M., Goossens, M., de Jong, J., Ruijgrok, J., Oosterhof, J., Onghena, P., Smeets, R., & Vlaeyen, J. W. S. (2016). Expose or protect? A randomized controlled trial of exposure in vivo vs pain-contingent treatment as usual in patients with complex regional pain syndrome type 1: *PAIN*, *157*(10), 2318–2329. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000000651>

- Di Pietro, F., McAuley, J. H., Parkitny, L., Lotze, M., Wand, B. M., Moseley, G. L., & Stanton, T. R. (2013a). Primary Motor Cortex Function in Complex Regional Pain Syndrome: A Systematic Review and Meta-Analysis. *The Journal of Pain, 14*(11), 1270–1288. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2013.07.004>
- Di Pietro, F., McAuley, J. H., Parkitny, L., Lotze, M., Wand, B. M., Moseley, G. L., & Stanton, T. R. (2013b). Primary Somatosensory Cortex Function in Complex Regional Pain Syndrome: A Systematic Review and Meta-Analysis. *The Journal of Pain, 14*(10), 1001–1018. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2013.04.001>
- Di Pietro, F., Stanton, T. R., Moseley, G. L., Lotze, M., & McAuley, J. H. (2015). Interhemispheric somatosensory differences in chronic pain reflect abnormality of the Healthy side: Rethinking Cortical Reorganization in CRPS. *Human Brain Mapping, 36*(2), 508–518. <https://doi.org/10.1002/hbm.22643>
- Di Pietro, F., Stanton, T. R., Moseley, G. L., Lotze, M., & McAuley, J. H. (2016). An exploration into the cortical reorganisation of the healthy hand in upper-limb complex regional pain syndrome. *Scandinavian Journal of Pain, 13*, 18–24. <https://doi.org/10.1016/j.sjpain.2016.06.004>
- Di Vita, A., Boccia, M., Palermo, L., & Guariglia, C. (2016). To move or not to move, that is the question! Body schema and non-action oriented body representations: An fMRI meta-analytic study. *Neuroscience & Biobehavioral Reviews, 68*, 37–46. <https://doi.org/10.1016/j.neubiorev.2016.05.005>
- Dijkerman, H. C., & de Haan, E. H. F. (2007). Somatosensory processing subserving perception and action: Dissociations, interactions, and integration. *Behavioral and Brain Sciences, 30*(2), 224–230. <https://doi.org/10.1017/S0140525X07001641>
- Dimova, V., Herrnberger, Escolano-Lozano, Rittner, Vlckova, Sommer, Maihöfner, & Bircklein. (2019). Clinical phenotypes and classification algorithm for complex regional pain syndrome. *Neurology, 94*(4), e357–e367. <https://doi.org/10.1212/wnl.00000000000008736>

- Domin, M., Strauss, S., McAuley, J. H., & Lotze, M. (2021). Complex Regional Pain Syndrome: Thalamic GMV Atrophy and Associations of Lower GMV With Clinical and Sensorimotor Performance Data. *Frontiers in Neurology, 12*.
<https://www.frontiersin.org/articles/10.3389/fneur.2021.722334>
- Duong, S., Bravo, D., Todd, K. J., Finlayson, R. J., & Tran, D. Q. (2018). Treatment of complex regional pain syndrome: An updated systematic review and narrative synthesis. *Canadian Journal of Anesthesia/Journal Canadien d'anesthésie, 65*(6), 658–684. <https://doi.org/10.1007/s12630-018-1091-5>
- Eberle, T., Doganci, B., Krämer, H. H., Geber, C., Fechir, M., Magerl, W., & Birklein, F. (2009). Warm and cold complex regional pain syndromes Differences beyond skin temperature? *Neurology, 72*(6), 505–512.
- Ehrsson, H. H., Holmes, N. P., & Passingham, R. E. (2005). Touching a Rubber Hand: Feeling of Body Ownership Is Associated with Activity in Multisensory Brain Areas. *The Journal of Neuroscience, 25*(45), 10564–10573. <https://doi.org/10.1523/JNEUROSCI.0800-05.2005>
- Elsharydah, A., Loo, N. H., Minhajuddin, A., & Kandil, E. S. (2017). Complex regional pain syndrome type 1 predictors—Epidemiological perspective from a national database analysis. *Journal of Clinical Anesthesia, 39*, 34–37. <https://doi.org/10.1016/j.jclinane.2017.03.027>
- Feliu, M. H., & Edwards, C. L. (2010). Psychologic Factors in the Development of Complex Regional Pain Syndrome: History, Myth, and Evidence. *The Clinical Journal of Pain, 26*(3), 258.
<https://doi.org/10.1097/AJP.0b013e3181bfff815>
- Ferraro, M. C., Cashin, A. G., Wand, B. M., Smart, K. M., Berryman, C., Marston, L., Moseley, G. L., McAuley, J. H., & O'Connell, N. E. (2023). Interventions for treating pain and disability in adults with complex regional pain syndrome- an overview of systematic reviews. *Cochrane Database of Systematic Reviews, 2023*(6). <https://doi.org/10.1002/14651858.CD009416.pub3>
- Field, A. (2013). *Discovering Statistics Using IBM SPSS Statistics 4th edition* (Sage Publication Ltd). Sage Publication.

- Filbrich, L., Alamia, A., Verfaille, C., Berquin, A., Barbier, O., Libouton, X., Fraselle, V., Mouraux, D., & Legrain, V. (2017). Biased visuospatial perception in complex regional pain syndrome. *Scientific Reports*, 7(1). <https://doi.org/10.1038/s41598-017-10077-8>
- Filbrich, L., Verfaille, C., Vannuscorps, G., Berquin, A., Barbier, O., Libouton, X., Fraselle, V., Mouraux, D., & Legrain, V. (2023). Atypical influence of biomechanical knowledge in Complex Regional Pain Syndrome-towards a different perspective on body representation. *Scientific Reports*, 13. <https://doi.org/10.1038/s41598-023-27733-x>
- Forderreuther, S., Sailer, U., & Straube, A. (2004). Impaired self-perception of the hand in complex regional pain syndrome (CRPS). *Pain*, 110(3), 756–761. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2004.05.019>
- Förderreuther, S., Sailer, U., & Straube, A. (2004). Impaired self-perception of the hand in complex regional pain syndrome (CRPS). *Pain*, 110(3), 756–761. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2004.05.019>
- Frettlöh, J., Hüppe, M., & Maier, C. (2006). Severity and specificity of neglect-like symptoms in patients with complex regional pain syndrome (CRPS) compared to chronic limb pain of other origins: *Pain*, 124(1), 184–189. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2006.04.010>
- Galer, B., Butler, S., & Jensen, M. (1995). Case-reports and hypothesis—A neglect-like syndrome may be responsible for the motor disturbance in reflex sympathetic dystrophy (Complex-Regional-Pain-Syndrome-1). *Journal of Pain and Symptom Management*, 10(5), 385–391. [https://doi.org/10.1016/0885-3924\(95\)00061-3](https://doi.org/10.1016/0885-3924(95)00061-3)
- Galer, B. S., Henderson, J., Perander, J., & Jensen, M. P. (2000). Course of Symptoms and Quality of Life Measurement in Complex Regional Pain Syndrome: A Pilot Survey. *Complex Regional Pain Syndrome*, 20(4), 7.
- Galer, B. S., & Jensen, M. (1999). Neglect-like symptoms in complex regional pain syndrome: Results of a self-administered survey. *Journal of Pain and Symptom Management*, 18(3), 213–217. [https://doi.org/10.1016/S0885-3924\(99\)00076-7](https://doi.org/10.1016/S0885-3924(99)00076-7)

- Galer, B. S., Jensen, M., & Butler, S. (2013). Neglect-like signs and symptoms in CRPS: *Pain*, *154*(6), 961–962. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2013.02.024>
- Gallagher, S. (1986). Body Image and Body Schema: A Conceptual Clarification. *The Journal of Mind and Behavior*, *7*(4), 541–554.
- Gäumann, S., Gerber, R. S., Suica, Z., Wandel, J., & Schuster-Amft, C. (2021). A different point of view: The evaluation of motor imagery perspectives in patients with sensorimotor impairments in a longitudinal study. *BMC Neurology*, *21*(1), 297. <https://doi.org/10.1186/s12883-021-02266-w>
- Geha, P. Y., Baliki, M. N., Harden, R. N., Bauer, W. R., Parrish, T. B., & Apkarian, A. V. (2008). The Brain in Chronic CRPS Pain: Abnormal Gray-White Matter Interactions in Emotional and Autonomic Regions. *Neuron*, *60*(4), 570–581. <https://doi.org/10.1016/j.neuron.2008.08.022>
- Gibbs, G. F., Drummond, P. D., Finch, P. M., & Phillips, J. K. (2008). Unravelling the Pathophysiology of Complex Regional Pain Syndrome: Focus on Sympathetically Maintained Pain. *Clinical and Experimental Pharmacology and Physiology*, *35*(7), 717–724. <https://doi.org/10.1111/j.1440-1681.2007.04862.x>
- Gillespie, S., Cowell, F., Cheung, G., & Brown, D. (2016). Can we reduce the incidence of complex regional pain syndrome type I in distal radius fractures? The Liverpool experience. *Hand Therapy*, *21*(4), 123–130. <https://doi.org/10.1177/1758998316659676>
- Giroux, P., & Sirigu, A. (2003). Illusory movements of the paralyzed limb restore motor cortex activity. *NeuroImage*, *20*, S107–S111. <https://doi.org/10.1016/j.neuroimage.2003.09.024>
- Goebel, A. (2018). *Complex regional pain syndrome in adults: UK guidelines for diagnosis, referral and management in primary and secondary care*. Royal College of Physicians. <https://www.rcplondon.ac.uk/file/10437/download?token=bpc-tZ9P>
- Goebel, A., Barker, C., Birklein, F., Brunner, F., Casale, R., Eccleston, C., Eisenberg, E., McCabe, C. S., Moseley, G. L., Perez, R., Perrot, S., Terkelsen, A., Thomassen, I., Zyluk, A., & Wells, C. (2019). Standards for the diagnosis and management of Complex Regional Pain Syndrome: Results of

- a European Pain Federation task force. *European Journal of Pain*, 23, 641–651.
<https://doi.org/10.1002/ejp.1362>
- Goebel, A., Birklein, F., Brunner, F., Clark, D., Giethmuehlen, J., Harden, N., Huygen, F., Knudsen, L., McCabe, C., Lewis, J., Maihofner, C., Magerl, W., Moseley, L., Terkelsen, A., Thomassen, I., & Bruehl, S. (2021). The Valencia consensus-based adaptation of the IASP CRPS diagnostic criteria. *Pain*. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000002245>
- Graziano, M., & Botvinick, M. (2002). How the brain represents the body: Insights from neurophysiology and psychology. In *Common Mechanisms in Perception and Action: Attention and Performance XIX* (Oxford University Press, pp. 136–157).
- Grieve, S., Adams, J., & McCabe, C. (2016). ‘What I Really Needed Was the Truth’. Exploring the Information Needs of People with Complex Regional Pain Syndrome. *Musculoskeletal Care*, 14(1), 15–25. <https://doi.org/10.1002/msc.1107>
- Grieve, S., Perez, R. S. G. M., Birklein, F., Brunner, F., Bruehl, S., Harden, R. N., Packham, T., Gobeil, F., Haigh, R., Holly, J., Terkelsen, A., Davies, L., Lewis, J., Thomassen, I., Connett, R., Worth, T., Vatine, J.-J., & McCabe, C. S. (2017). Recommendations for a first Core Outcome Measurement set for complex regional PAin syndrome Clinical sTudies (COMPACT): *PAIN*, 158(6), 1083–1090. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000000866>
- Grogan, S. (2006). Body image and health: Contemporary perspectives. *Journal of Health Psychology*, 11(4), 523–530.
- Groupe de projet spécifique (GPS) de la SFETD. (2019). Recommandations diagnostiques et de prise en charge thérapeutique des syndromes douloureux régionaux complexes: Les recommandations de Lille. *Douleur et Analgésie*, 32(3), 155–164.
<https://doi.org/10.3166/dea-2019-0074>
- Guillot, A., & Collet, C. (2005). Duration of mentally simulated movement: A review. *Journal of Motor Behavior*, 37(1), 10–20. <https://doi.org/10.3200/JMBR.37.1.10-20>

- Guillot, A., Collet, C., Nguyen, V. A., Malouin, F., Richards, C., & Doyon, J. (2009). Brain activity during visual versus kinesthetic imagery: An fMRI study. *Human Brain Mapping, 30*(7), 2157–2172. <https://doi.org/10.1002/hbm.20658>
- Haggard, P., Iannetti, G. D., & Longo, M. R. (2013). Spatial Sensory Organization and Body Representation in Pain Perception. *Current Biology, 23*(4), R164–R176. <https://doi.org/10.1016/j.cub.2013.01.047>
- Halicka, M., Vittersø, A. D., McCullough, H., Goebel, A., Heelas, L., Proulx, M. J., & Bultitude, J. H. (2020). Disputing space-based biases in unilateral complex regional pain syndrome. *Cortex, 127*, 248–268. <https://doi.org/10.1101/2020.01.02.893263>
- Halicka, M., Vittersø, A. D., Proulx, M. J., & Bultitude, J. H. (2020). Neuropsychological changes in Complex Regional Pain Syndrome (CRPS). *Behavioural Neurology, 2020*. <https://doi.org/10.1155/2020/4561831>
- Harden, Bruehl, S., Perez, R. S. G. M., Birklein, F., Marinus, J., Maihofner, C., Lubenow, T., Buvanendran, A., Mackey, S., Graciosa, J., Mogilevski, M., Ramsden, C., Schlereth, T., Chont, M., & Vatine, J.-J. (2010). Development of a severity score for CRPS. *Pain, 151*(3), 870–876. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2010.09.031>
- Harden, McCabe, C. S., Goebel, A., Massey, M., Suvar, T., Grieve, S., & Bruehl, S. (2022). Complex Regional Pain Syndrome: Practical Diagnostic and Treatment Guidelines, 5th Edition. *Pain Medicine, 23*(Supplement_1), S1–S53. <https://doi.org/10.1093/pm/pnac046>
- Harden, N. R., Bruehl, S., Birklein, F., Maihofner, C., & Mogilevski, M. (2010). Validation of proposed diagnostic criteria (the “Budapest Criteria”) for Complex Regional Pain Syndrome: *Pain, 150*(2), 268–274. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2010.04.030>
- Harden, N. R., Bruehl, S., Stanos, S., Brander, V., Chung, O. Y., Saltz, S., Adams, A., & Stulberg, D. S. (2003). Prospective examination of pain-related and psychological predictors of CRPS-like phenomena following total knee arthroplasty: A preliminary study. *Pain, 106*(3), 393–400. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2003.08.009>

- Harden, R. N., Bruehl, S., Galer, B. S., Saltz, S., Bertram, M., Backonja, M., Gayles, R., Rudin, N., Bhugra, M. K., & Stanton-Hicks, M. (1999). Complex regional pain syndrome: Are the IASP diagnostic criteria valid and sufficiently comprehensive? *Pain*, *83*, 211–219.
- Harden, R. N., Bruehl, S., Stanton-Hicks, M., & Wilson, P. R. (2007). Proposed New Diagnostic Criteria for Complex Regional Pain Syndrome. *Pain Medicine*, *8*(4), 326–331.
<https://doi.org/10.1111/j.1526-4637.2006.00169.x>
- Harden, R. N., Maihofner, C., Abousaad, E., Vatine, J.-J., Kirsling, A., Perez, R. S. G. M., Kuroda, M., Brunner, F., Stanton-Hicks, M., Marinus, J., van Hilten, J. J., Mackey, S., Birklein, F., Schlereth, T., Mailis-Gagnon, A., Graciosa, J., Connolly, S. B., Dayanim, D., Massey, M., ... Bruehl, S. (2017). A prospective, multisite, international validation of the Complex Regional Pain Syndrome Severity Score: *PAIN*, *158*(8), 1430–1436.
<https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000000927>
- Harden, R. N., Oaklander, A. L., Burton, A. W., Perez, R. S., Richardson, K., Swan, M., Barthel, J., Costa, B., Graciosa, J. R., & Bruehl, S. (2013). Complex regional pain syndrome: Practical diagnostic and treatment guidelines. *Pain Medicine*, *14*(2), 180–229.
- Harnik, M., Kesselring, P., Ott, A., Urman, R., & Luedi, M. (2023). Complex Regional Pain Syndrome (CRPS) and the Value of Early Detection. *Current Pain and Headache Reports*, *3*.
<https://doi.org/10.1007/s11916-023-01124-3>
- Harvill, L. M. (1991). Standard Error of Measurement. *Educational Measurement: Issues and Practice*, *10*(2), 33–41. <https://doi.org/10.1111/j.1745-3992.1991.tb00195.x>
- Haslam, B. S., Butler, D. S., Moseley, G. L., Kim, A. S., & Carey, L. M. (2022). “My Hand Is Different”: Altered Body Perception in Stroke Survivors with Chronic Pain. *Brain Sciences*, *12*(10), Article 10. <https://doi.org/10.3390/brainsci12101331>
- Henderson, J. (2019). Updated guidelines on complex regional pain syndrome in adults. *Journal of Plastic, Reconstructive & Aesthetic Surgery*, *72*(1), 1–3.
<https://doi.org/10.1016/j.bjps.2018.08.017>

- Hinkle, D. E., Wiersma, W., & Jurs, S. (2003). *Applied statistics for the behavioral sciences 5th ed.* Houghton Mifflin. <https://cir.nii.ac.jp/crid/1130012535369496890>
- Hirakawa, Y., Fujiwara, A., Imai, R., Hiraga, Y., & Morioka, S. (2020). Clinical Intervention Using Body Shadows for a Patient with Complex Regional Pain Syndrome Who Reported Severe Pain and Self-Disgust Toward the Affected Site: A Case Report. *Journal of Pain Research, Volume 13*, 971–977. <https://doi.org/10.2147/JPR.S236786>
- Hirakawa, Y., Imai, R., Shigetoh, H., & Morioka, S. (2020). Intervention Using Body Shadow to Evoke Loading Imagery in a Patient with Complex Regional Pain Syndrome in the Foot: A Case Report. *Brain Sciences, 10*(10), Article 10. <https://doi.org/10.3390/brainsci10100718>
- Hollander, M. den, de Jong, J., Onghena, P., & Vlaeyen, J. W. S. (2020). Generalization of exposure in vivo in Complex Regional Pain Syndrome type I. *Behaviour Research and Therapy, 124*, 103511. <https://doi.org/10.1016/j.brat.2019.103511>
- Holmes, E. A., & Mathews, A. (2010). Mental imagery in emotion and emotional disorders. *Clinical Psychology Review, 30*(3), 349–362. <https://doi.org/10.1016/j.cpr.2010.01.001>
- Holmes, N. P., & Spence, C. (2004). The body schema and the multisensory representation(s) of peripersonal space. *Cognitive Processing, 5*(2), 94–105. <https://doi.org/10.1007/s10339-004-0013-3>
- Iolascon, G. (2015). Complex regional pain syndrome (CRPS) type I: Historical perspective and critical issues. *Clinical Cases in Mineral and Bone Metabolism*. <https://doi.org/10.11138/ccmbm/2015.12.3s.004>
- Jeannerod, M. (2010). De l'image du corps à l'image de soi. *Revue de neuropsychologie, 2*(3), 185–194. <https://doi.org/10.1684/nrp.2010.0095>
- Jellad, A., Salah, S., & Ben Salah Frih, Z. (2014). Complex Regional Pain Syndrome Type I: Incidence and Risk Factors in Patients With Fracture of the Distal Radius. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation, 95*(3), 487–492. <https://doi.org/10.1016/j.apmr.2013.09.012>

- Johnson, S., Cowell, F., Gillespie, S., & Goebel, A. (2022). Complex regional pain syndrome what is the outcome? - A systematic review of the course and impact of CRPS at 12 months from symptom onset and beyond. *European Journal of Pain (London, England)*, 26(6), 1203–1220. <https://doi.org/10.1002/ejp.1953>
- Johnston-Devin, C., Oprescu, F., Gray, M., & Wallis, M. (2021). Patients Describe their Lived Experiences of Battling to Live with Complex Regional Pain Syndrome. *The Journal of Pain*. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2021.03.151>
- Juottonen, K., Gockel, M., Silén, T., Hurri, H., Hari, R., & Forss, N. (2002). Altered central sensorimotor processing in patients with complex regional pain syndrome. *Pain*, 98(3), 315–323.
- Karcioglu, O., Topacoglu, H., Dikme, O., & Dikme, O. (2018). A systematic review of the pain scales in adults: Which to use? *The American Journal of Emergency Medicine*, 36(4), 707–714. <https://doi.org/10.1016/j.ajem.2018.01.008>
- Kim, J., Namgung, E., Lee, S., Ha, E., Hong, H., Song, Y., Lee, H., Oh, S., Lyoo, I. K., Yoon, S., & Jeong, H. (2023). Disturbed insular functional connectivity and its clinical implication in patients with complex regional pain syndrome. *NeuroImage. Clinical*, 38, 103440. <https://doi.org/10.1016/j.nicl.2023.103440>
- Kolb, L., Lang, C., Seifert, F., & Maihöfner, C. (2012). Cognitive correlates of “neglect-like syndrome” in patients with complex regional pain syndrome: *Pain*, 153(5), 1063–1073. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2012.02.014>
- Kortekaas, M. C., Niehof, S. P., Stolker, R. J., & Huygen, F. J. P. M. (2016). Pathophysiological Mechanisms Involved in Vasomotor Disturbances in Complex Regional Pain Syndrome and Implications for Therapy: A Review. *Pain Practice*, 16(7), 905–914. <https://doi.org/10.1111/papr.12403>
- Kotiuk, V., Burianov, O., Kostrub, O., Khimion, L., & Zasadnyuk, I. (2019). The impact of mirror therapy on body schema perception in patients with complex regional pain syndrome after distal

- radius fractures. *British Journal of Pain*, *13*(1), 35–42.
<https://doi.org/10.1177/2049463718782544>
- Kuttikat, A., Noreika, V., Chennu, S., Shenker, N., Bekinschtein, T., & Brown, C. A. (2018). Altered Neurocognitive Processing of Tactile Stimuli in Patients with Complex Regional Pain Syndrome. *The Journal of Pain*, *19*(4), 395–409. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2017.11.008>
- Lachin, J. M. (2004). The role of measurement reliability in clinical trials. *Clinical Trials*, *1*(6), 553–566.
<https://doi.org/10.1191/1740774504cn057oa>
- Legrain, V., Bultitude, J. H., De Paepe, A. L., & Rossetti, Y. (2012). Pain, body, and space: What do patients with complex regional pain syndrome really neglect? *Pain*, *153*(5), 948–951.
<https://doi.org/10.1016/j.pain.2011.12.010>
- Levenig, C. G., Kellmann, M., Kleinert, J., Belz, J., Hesselmann, T., & Hasenbring, M. I. (2019). Body image is more negative in patients with chronic low back pain than in patients with subacute low back pain and healthy controls. *Scandinavian Journal of Pain*, *19*(1), 147–156.
<https://doi.org/10.1515/sjpain-2018-0104>
- Lewis, Kersten, P., McCabe, C. S., McPherson, K. M., & Blake, D. R. (2007). Body perception disturbance: A contribution to pain in complex regional pain syndrome (CRPS): *Pain*, *133*(1), 111–119. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2007.03.013>
- Lewis, Kersten, P., McPherson, K. M., Taylor, G. J., Harris, N., McCabe, C. S., & Blake, D. R. (2010). Wherever is my arm? Impaired upper limb position accuracy in Complex Regional Pain Syndrome: *Pain*, *149*(3), 463–469. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2010.02.007>
- Lewis, & McCabe, C. S. (2010). Body perception disturbance (BPD) in CRPS. *Practical Pain Management*, *10*(3), 60–66.
- Lewis, Newport, R., Taylor, G., Smith, M., & McCabe, C. S. (2021). Visual illusions modulate body perception disturbance and pain in Complex Regional Pain Syndrome: A randomized trial. *European Journal of Pain*, *25*(7), 1551–1563. <https://doi.org/10.1002/ejp.1766>

- Lewis, & Schweinhardt, P. (2012). Perceptions of the painful body: The relationship between body perception disturbance, pain and tactile discrimination in complex regional pain syndrome: Perceptions of the painful body in complex regional pain syndrome. *European Journal of Pain*, 16(9), 1320–1330. <https://doi.org/10.1002/j.1532-2149.2012.00120.x>
- Linton, S., Flink, I., & Vlaeyen, J. (2018). Understanding the Etiology of Chronic Pain From a Psychological Perspective. *Phys Ther*, 98, 315–324. <https://doi.org/10.1093/ptj/pzy027>
- Llewellyn, A., McCabe, C. S., Hibberd, Y., White, P., Davies, L., Marinus, J., Perez, R. G. S. M., Thomassen, I., Brunner, F., Sontheim, C., Birklein, F., Schlereth, T., Goebel, A., Haigh, R., Connett, R., Maihofer, C., Knudsen, L., Harden, R. N., Zyluk, A., ... Moskovitz, P. (2017). Are you better? A multi-centre study of patient-defined recovery from Complex Regional Pain Syndrome. *EUROPEAN JOURNAL OF PAIN*, 22(3), 551–564. <https://doi.org/10.1002/ejp.1138>
- Lorente, A., Mariscal, G., & Lorente, R. (2023). Incidence and risk factors for complex regional pain syndrome in radius fractures: Meta-analysis. *Archives of Orthopaedic and Trauma Surgery*. <https://doi.org/10.1007/s00402-023-04909-8>
- Lotze, M., & Moseley, G. L. (2007). Role of Distorted Body Image in Pain. *Curr Rheumatol Rep*, 9(6), 488–496. <https://doi.org/10.1007/s11926-007-0079-x>
- Lotze, M., & Moseley, G. L. (2015). Theoretical Considerations for Chronic Pain Rehabilitation. *Physical Therapy*, 95(9), 1316–1320. <https://doi.org/10.2522/ptj.20140581>
- Ma, T., Li, Z.-Y., Yu, Y., Yang, Y., Ni, M.-H., Xie, H., Wang, W., Huang, Y.-X., Li, J.-L., Huang, X., & Yan, L.-F. (2022). Gray Matter Abnormalities in Patients with Complex Regional Pain Syndrome: A Systematic Review and Meta-Analysis of Voxel-Based Morphometry Studies. *Brain Sciences*, 12, 1115. <https://doi.org/10.3390/brainsci12081115>
- MacIntyre, E., Braithwaite, F. A., Mouatt, B., Wilson, D., & Stanton, T. R. (2022). Does who I am and what I feel determine what I see (or say)? A meta-analytic systematic review exploring the influence of real and perceived bodily state on spatial perception of the external environment. *PeerJ*, 10, e13383. <https://doi.org/10.7717/peerj.13383>

- Maihöfner, C., Baron, R., DeCol, R., Binder, A., Birklein, F., Deuschl, G., Handwerker, H. O., & Schattschneider, J. (2007). The motor system shows adaptive changes in complex regional pain syndrome. *Brain*, *130*(10), 2671–2687. <https://doi.org/10.1093/brain/awm131>
- Maihöfner, C., Forster, C., Birklein, F., Neundörfer, B., & Handwerker, H. O. (2005). Brain processing during mechanical hyperalgesia in complex regional pain syndrome: A functional MRI study. *Pain*, *114*(1), 93–103. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2004.12.001>
- Maihofner, C., Handwerker, H. O., Neundorfer, B., & Birklein, F. (2003). Patterns of cortical reorganization in complex regional pain syndrome. *Neurology*, *61*(12), 1707–1715. <https://doi.org/10.1212/01.WNL.0000098939.02752.8E>
- Maihofner, C., Handwerker, H. O., Neundorfer, B., & Birklein, F. (2004). Cortical reorganization during recovery from complex regional pain syndrome. *Neurology*, *63*(4), 693–701. <https://doi.org/10.1212/01.WNL.0000134661.46658.B0>
- Mancini, F., Haggard, P., Iannetti, G. D., Longo, M. R., & Sereno, M. I. (2012). Fine-grained nociceptive maps in primary somatosensory cortex. *The Journal of Neuroscience : The Official Journal of the Society for Neuroscience*, *32*(48), 17155–17162. <https://doi.org/10.1523/JNEUROSCI.3059-12.2012>
- Mancini, F., Wang, A. P., Schira, M. M., Isherwood, Z. J., McAuley, J. H., Iannetti, G. D., Sereno, M. I., Moseley, G. L., & Rae, C. D. (2019). Fine-grained mapping of cortical somatotopies in chronic Complex Regional Pain Syndrome. *Journal of Neuroscience*, *39*(46). <https://doi.org/10.1101/409094>
- Margalit, D., Ben Har, L., Brill, S., & Vatine, J.-J. (2014). Complex regional pain syndrome, alexithymia, and psychological distress. *Journal of Psychosomatic Research*, *77*(4), 273–277. <https://doi.org/10.1016/j.jpsychores.2014.07.005>
- Marinus, J., Moseley, G. L., Birklein, F., Baron, R., Maihöfner, C., Kingery, W. S., & van Hilten, J. J. (2011). Clinical features and pathophysiology of complex regional pain syndrome. *The Lancet Neurology*, *10*(7), 637–648.

- McCabe, C. S., Haigh, R., Halligan, P., & Blake, D. R. (2003). Referred sensations in patients with complex regional pain syndrome type 1. *Rheumatology*, *42*(9), 1067–1073.
<https://doi.org/10.1093/rheumatology/keg298>
- Medina, J., & Coslett, H. B. (2010). From Maps to Form to Space: Touch and the Body Schema. *Neuropsychologia*, *48*(3), 645. <https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2009.08.017>
- Méndez-Rebolledo, G., Gatica-Rojas, V., Torres-Cueco, R., Albornoz-Verdugo, M., & Guzmán-Muñoz, E. (2017). Update on the effects of graded motor imagery and mirror therapy on complex regional pain syndrome type 1: A systematic review. *Journal of Back and Musculoskeletal Rehabilitation*, *30*(3), 441–449. <https://doi.org/10.3233/BMR-150500>
- Mibu, A., Nishigami, T., Uematsu, H., Tanaka, K., Shibata, M., Matsuda, Y., & Fujino, Y. (2020). Validation of the Japanese version of the Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale for CRPS. *Journal of Anesthesia*. <https://doi.org/10.1007/s00540-020-02853-0>
- Michal, M., Adler, J., Reiner, I., Wermke, A., Ackermann, T., Schlereth, T., & Birklein, F. (2016). Association of Neglect-Like Symptoms with Anxiety, Somatization, and Depersonalization in Complex Regional Pain Syndrome. *Pain Medicine*, pnw214.
<https://doi.org/10.1093/pm/pnw214>
- Miller, C., Williams, M., Heine, P., Williamson, E., & O'connell, N. (2017). Current practice in the rehabilitation of complex regional pain syndrome: A survey of practitioners. *Disability and Rehabilitation*, 1–7. <https://doi.org/10.1080/09638288.2017.1407968>
- Moayed, M., Noroozbahari, N., Hadjis, G., Themelis, K., Salomons, T. V., Newport, R., & S. Lewis, J. (2021). The structural and functional connectivity neural underpinnings of body image. *Human Brain Mapping*, *42*(11), 3608–3619. <https://doi.org/10.1002/hbm.25457>
- Mokkink, L. B., Terwee, C. B., Knol, D. L., Stratford, P. W., Alonso, J., Patrick, D. L., Bouter, L. M., & de Vet, H. C. (2010). The COSMIN checklist for evaluating the methodological quality of studies on measurement properties: A clarification of its content. *BMC Medical Research Methodology*, *10*(1), 22. <https://doi.org/10.1186/1471-2288-10-22>

- Moore, E., Braithwaite, F. A., Stanton, T. R., Bellan, V., Moseley, G. L., & Berryman, C. (2022). What do I need to know? Essential educational concepts for complex regional pain syndrome. *European Journal of Pain*, *n/a(n/a)*. <https://doi.org/10.1002/ejp.1976>
- Moseley, G. L. (2004a). Graded motor imagery is effective for long-standing complex regional pain syndrome: A randomised controlled trial. *PAIN*, 192–198.
- Moseley, G. L. (2004b). Imagined movements cause pain and swelling in a patient with complex regional pain syndrome. *Neurology*, *62*(9), 1644–1644.
<https://doi.org/10.1212/01.WNL.0000123019.13575.5E>
- Moseley, G. L. (2004c). Why do people with complex regional pain syndrome take longer to recognize their affected hand? *Neurology*, *62*(12), 2182–2186.
<https://doi.org/10.1212/01.WNL.0000130156.05828.43>
- Moseley, G. L. (2005). Distorted body image in complex regional pain syndrome. *Neurology*, *65*(5), 773. <https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000174515.07205.11>
- Moseley, G. L., Gallace, A., & Iannetti, G. D. (2012). Spatially defined modulation of skin temperature and hand ownership of both hands in patients with unilateral complex regional pain syndrome. *Brain*, *135*(12), 3676–3686. <https://doi.org/10.1093/brain/aws297>
- Moseley, G. L., Gallace, A., & Spence, C. (2009). Space-based, but not arm-based, shift in tactile processing in complex regional pain syndrome and its relationship to cooling of the affected limb. *Brain*, *132*(11), 3142–3151. <https://doi.org/10.1093/brain/awp224>
- Moseley, G. L., Herbert, R. D., Parsons, T., Lucas, S., Van Hilten, J. J., & Marinus, J. (2014). Intense Pain Soon After Wrist Fracture Strongly Predicts Who Will Develop Complex Regional Pain Syndrome: Prospective Cohort Study. *The Journal of Pain*, *15*(1), 16–23.
<https://doi.org/10.1016/j.jpain.2013.08.009>
- Moseley, G. L., Parsons, T. J., & Spence, C. (2008). Visual distortion of a limb modulates the pain and swelling evoked by movement. *Current Biology*, *18*(22), R1047–R1048.
<https://doi.org/10.1016/j.cub.2008.09.031>

- Moseley, G. L., Zalucki, N., Birklein, F., Marinus, J., van Hilten, J. J., & Luomajoki, H. (2008). Thinking about movement hurts: The effect of motor imagery on pain and swelling in people with chronic arm pain. *Arthritis & Rheumatism*, *59*(5), 623–631. <https://doi.org/10.1002/art.23580>
- Moseley, L. G. (2008). I can't find it! Distorted body image and tactile dysfunction in patients with chronic back pain: *Pain*, *140*(1), 239–243. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2008.08.001>
- Oliveira, I., Garrido, M. V., & Bernardes, S. F. (2022). On the body-mind nexus in chronic musculoskeletal pain: A scoping review. *European Journal of Pain*, *26*(6), 1186–1202. <https://doi.org/10.1002/ejp.1944>
- Osinski, T., & Devos, F. (2017). Représentation corporelle et douleur. *Douleur et Analgésie*. <https://doi.org/10.1007/s11724-017-0530-3>
- Osumi, M., Okuno, H., Nishigami, T., Ueta, K., & Morioka, S. (2015). Tactile localization training for pain, sensory disturbance, and distorted body image: A case study of complex regional pain syndrome. *Neurocase*, *21*(5), 628–634. <https://doi.org/10.1080/13554794.2014.961482>
- Ott, S., & Maihöfner, C. (2018). Signs and Symptoms in 1,043 Patients with Complex Regional Pain Syndrome. *The Journal of Pain*. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2018.01.004>
- Packham, T. L., Spicher, C. J., MacDermid, J. C., Michlovitz, S., & Buckley, D. N. (2018). Somatosensory rehabilitation for allodynia in complex regional pain syndrome of the upper limb: A retrospective cohort study. *JOURNAL OF HAND THERAPY*, *31*(1), 10–19. <https://doi.org/10.1016/j.jht.2017.02.007>
- Parkitny, L., McAuley, J. H., Di Pietro, F., Stanton, T. R., O'Connell, N. E., Marinus, J., van Hilten, J. J., & Moseley, G. L. (2013). Inflammation in complex regional pain syndrome A systematic review and meta-analysis. *Neurology*, *80*(1), 106–117.
- Parsons, L. M. (1987a). Imagined Spatial Transformation of One's Body. *Journal of Experimental Psychology : General*, *116*(2), 172–191.
- Parsons, L. M. (1987b). Imagined spatial transformations of one's hands and feet. *Cognitive Psychology*, *19*(2), 178–241. [https://doi.org/10.1016/0010-0285\(87\)90011-9](https://doi.org/10.1016/0010-0285(87)90011-9)

- Parsons, L. M. (1994). Temporal and kinematic properties of motor behavior reflected in mentally simulated action. *Journal of Experimental Psychology. Human Perception and Performance*, 20(4), 709–730.
- Peelen, M. V., & Downing, P. E. (2007). The neural basis of visual body perception. *Nature Reviews Neuroscience*, 8(8), 636–648. <https://doi.org/10.1038/nrn2195>
- Peltz, E., Seifert, F., Lanz, S., Müller, R., & Maihöfner, C. (2011). Impaired Hand Size Estimation in CRPS. *The Journal of Pain*, 12(10), 1095–1101. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2011.05.001>
- Perez, R. S., Zollinger, P. E., Dijkstra, P. U., Thomassen-Hilgersom, I. L., Zuurmond, W. W., Rosenbrand, K. C., Geertzen, J. H., & the CRPS I task force. (2010). Evidence based guidelines for complex regional pain syndrome type 1. *BMC Neurology*, 10(1), 20. <https://doi.org/10.1186/1471-2377-10-20>
- Pitron, V., Alsmith, A., & De Vignemont, F. (2018). How do the body schema and the body image interact? *Consciousness and Cognition*, 65, 352–358. <https://doi.org/10.1016/j.concog.2018.08.007>
- Pitron, V., & De Vignemont, F. (2017). Beyond differences between the body schema and the body image: Insights from body hallucinations. *Consciousness and Cognition*, 53, 115–121. <https://doi.org/10.1016/j.concog.2017.06.006>
- Pleger, B., Tegenthoff, M., Ragert, P., Förster, A.-F., Dinse, H. R., Schwenkreis, P., Nicolas, V., & Maier, C. (2005). Sensorimotor returning in complex regional pain syndrome parallels pain reduction: Sensorimotor Treatment in CRPS. *Annals of Neurology*, 57(3), 425–429. <https://doi.org/10.1002/ana.20394>
- Pleger, B., Tegenthoff, M., Schwenkreis, P., Janssen, F., Ragert, P., Dinse, H. R., Valke, B., Zenz, M., & Maier, C. (2004). Mean sustained pain levels are linked to hemispherical side-to-side differences of primary somatosensory cortex in the complex regional pain syndrome I. *Experimental Brain Research*, 155(1), 115–119. <https://doi.org/10.1007/s00221-003-1738-4>

- Pons, T., Shipton, E. A., Williman, J., & Mulder, R. T. (2015). Potential Risk Factors for the Onset of Complex Regional Pain Syndrome Type 1: A Systematic Literature Review. *Anesthesiology Research and Practice*, 2015, 1–15. <https://doi.org/10.1155/2015/956539>
- Pons, T., Shipton, E. A., Williman, J., & Mulder, R. T. (2018). A proposed clinical conceptual model for the physiotherapy management of Complex Regional Pain Syndrome (CRPS). *Musculoskeletal Science and Practice*, 38, 15–22. <https://doi.org/10.1016/j.msksp.2018.08.001>
- Punt, D. T., Cooper, L., Hey, M., & Johnson, M. I. (2013). Neglect-like symptoms in complex regional pain syndrome: Learned nonuse by another name?: *Pain*, 154(2), 200–203. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2012.11.006>
- Raffin, E., Mattout, J., Reilly, K., & Giraux, P. (2012). Disentangling motor execution from motor imagery with the phantom limb. *Brain : A Journal of Neurology*, 135, 582–595. <https://doi.org/10.1093/brain/awr337>
- Ramachandran, V. S., & Rogers-Ramachandran, D. (2000). Phantom Limbs and Neural Plasticity. *Archives of Neurology*, 57(3), 317–320. <https://doi.org/10.1001/archneur.57.3.317>
- Reid, E. J., Braithwaite, F. A., Wallwork, S. B., Harvie, D., Chalmers, K. J., Spence, C., Gallace, A., & Moseley, G. L. (2018). Spatially-defined motor deficits in people with unilateral complex regional pain syndrome. *Cortex*, 104, 154–162. <https://doi.org/10.1016/j.cortex.2017.06.024>
- Reid, E., Wallwork, S. B., Harvie, D., Chalmers, K. J., Gallace, A., Spence, C., & Moseley, G. L. (2016). A New Kind of Spatial Inattention Associated With Chronic Limb Pain?: Somatospatial Inattention in Pain. *Annals of Neurology*, 79(4), 701–704. <https://doi.org/10.1002/ana.24616>
- Reinersmann, A., Haarmeyer, G. S., Blankenburg, M., Frettlöh, J., Krumova, E. K., Ocklenburg, S., & Maier, C. (2010). Left is where the L is right Significantly delayed reaction time in limb laterality recognition in both CRPS and phantom limb pain patients. *Neuroscience Letters*, 486(3), 240–245. <https://doi.org/10.1016/j.neulet.2010.09.062>

- Reinersmann, A., Landwehr, J., Krumova, E. K., Ocklenburg, S., Güntürkün, O., & Maier, C. (2012). Impaired spatial body representation in complex regional pain syndrome type 1 (CRPS I): *Pain*, *153*(11), 2174–2181. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2012.05.025>
- Rewhorn, M. J., Leung, A. H., Gillespie, A., Moir, J. S., & Miller, R. (2014). Incidence of Complex Regional Pain Syndrome after Foot and Ankle Surgery. *The Journal of Foot and Ankle Surgery*, *53*(3), 256–258. <https://doi.org/10.1053/j.jfas.2014.01.006>
- Robin, N., Coudeville, G. R., Dominique, L., Rulleau, T., Champagne, R., Guillot, A., & Toussaint, L. (2021). Translation and validation of the movement imagery questionnaire-3 second French version. *Journal of Bodywork and Movement Therapies*, *28*, 540–546. <https://doi.org/10.1016/j.jbmt.2021.09.004>
- Rode, G., Pradat-Diehl, P., & Farne, A. (2010). Les représentations du corps: De l'analyse comportementale à la rééducation. *Revue de neuropsychologie*, *2*(3), 179–180. <https://doi.org/10.1684/nrp.2010.0086>
- Rolls, C., McCabe, C., Llewellyn, A., & Jones, G. T. (2020). What is the incidence of complex regional pain syndrome (CRPS) Type I within four months of a wrist fracture in the adult population? A systematic review. *Hand Therapy*, *25*(2), 45–55. <https://doi.org/10.1177/1758998320910179>
- Rommel, O., Malin, J., Zenz, M., & Janig, W. (2001). Quantitative sensory testing, neurophysiological and psychological examination in patients with complex regional pain syndrome and hemisensory deficits. *PAIN*, *93*(3), 279–293. [https://doi.org/10.1016/S0304-3959\(01\)00332-3](https://doi.org/10.1016/S0304-3959(01)00332-3)
- Saed, A., Neal-Smith, G., Fernquest, S., Bourget-Murray, J., & Wood, A. (2023). Management of complex regional pain syndrome in trauma and orthopaedic surgery-a systematic review. *British Medical Bulletin*, *146*(1), 27–42. <https://doi.org/10.1093/bmb/ldac034>
- Sandroni, P., Benrud-Larson, L. M., McClelland, R. L., & Low, P. A. (2003). Complex regional pain syndrome type I: Incidence and prevalence in Olmsted county, a population-based study: *Pain*, *103*(1), 199–207. [https://doi.org/10.1016/S0304-3959\(03\)00065-4](https://doi.org/10.1016/S0304-3959(03)00065-4)

- Schilder, J. C. M., Schouten, A. C., Perez, R. S. G. M., Huygen, F. J. P. M., Dahan, A., Noldus, L. P. J. J., van Hilten, J. J., & Marinus, J. (2012). Motor control in complex regional pain syndrome: A kinematic analysis. *Pain, 153*(4), 805–812. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2011.12.018>
- Schinkel, C., Scherens, A., Köller, M., Roellecke, G., Muhr, G., & Maier, C. (2009). Systemic inflammatory mediators in post-traumatic Complex Regional Pain Syndrome (CRPS I)—Longitudinal investigations and differences to control groups. *European Journal of Medical Research, 14*(3), 130. <https://doi.org/10.1186/2047-783X-14-3-130>
- Schlereth, T., Drummond, P. D., & Birklein, F. (2014). Inflammation in CRPS: Role of the sympathetic supply. *Autonomic Neuroscience, 182*, 102–107. <https://doi.org/10.1016/j.autneu.2013.12.011>
- Schmid, A.-C., Schwarz, A., Gustin, S. M., Greenspan, J. D., Hummel, F. C., & Birbaumer, N. (2017). Pain reduction due to novel sensory-motor training in Complex Regional Pain Syndrome I – A pilot study. *Scandinavian Journal of Pain, 15*, 30–37. <https://doi.org/10.1016/j.sjpain.2016.11.003>
- Scholz-Odermatt, S. M., Luthi, F., Wertli, M. M., & Brunner, F. (2019). Direct Health Care Cost and Work Incapacity Related to Complex Regional Pain Syndrome in Switzerland: A Retrospective Analysis from 2008 to 2015. *Pain Medicine, 20*(8), 1559–1569. <https://doi.org/10.1093/pm/pnz030>
- Schulte-Goecking, H., Azqueta-Gavaldon, M., Storz, C., Woiczinski, M., Fraenkel, P., Leukert, J., Azad, S. C., & Kraft, E. (2020). Psychological, social and biological correlates of body perception disturbance in complex regional pain syndrome. *Current Psychology*. <https://doi.org/10.1007/s12144-020-00635-1>
- Schwartzman, R. J., Erwin, K. L., & Alexander, G. M. (2009). The Natural History of Complex Regional Pain Syndrome: *The Clinical Journal of Pain, 25*(4), 273–280. <https://doi.org/10.1097/AJP.0b013e3181818ecea5>

- Schwoebel, J., & Coslett, H. B. (2005). Evidence for Multiple, Distinct Representations of the Human Body. *Journal of Cognitive Neuroscience*, *17*(4), 543–553.
<https://doi.org/10.1162/0898929053467587>
- Schwoebel, J., Friedman, R., Duda, N., & Coslett, H. B. (2001). Pain and the body schema: Evidence for peripheral effects on mental representations of movement. *Brain: A Journal of Neurology*, *124*(Pt 10), 2098–2104. <https://doi.org/10.1093/brain/124.10.2098>
- Shafiee, E., MacDermid, J., Packham, T., Grewal, R., Farzad, M., Bobos, P., & Walton, D. (2023). Rehabilitation Interventions for Complex Regional Pain Syndrome; An Overview of Systematic Reviews. *The Clinical Journal of Pain*, *10.1097/AJP.0000000000001133*.
<https://doi.org/10.1097/AJP.0000000000001133>
- Sirigu, A., & Duhamel, J. R. (2001). Motor and visual imagery as two complementary but neurally dissociable mental processes. *Journal of Cognitive Neuroscience*, *13*(7), 910–919.
- Smart, K. M., Ferraro, M. C., Wand, B. M., & O’Connell, N. E. (2022). Physiotherapy for pain and disability in adults with complex regional pain syndrome (CRPS) types I and II. *The Cochrane Database of Systematic Reviews*, *5*, CD010853.
<https://doi.org/10.1002/14651858.CD010853.pub3>
- Smart, K. M., Wand, B. M., & O’Connell, N. E. (2016). Physiotherapy for pain and disability in adults with complex regional pain syndrome (CRPS) types I and II. In The Cochrane Collaboration (Ed.), *Cochrane Database of Systematic Reviews*. John Wiley & Sons, Ltd.
<http://doi.wiley.com/10.1002/14651858.CD010853.pub2>
- Speck, V., Schlereth, T., Birklein, F., & Maihöfner, C. (2017). Increased prevalence of posttraumatic stress disorder in CRPS. *European Journal of Pain*, *21*(3), 466–473.
<https://doi.org/10.1002/ejp.940>
- Stanton-Hicks, M. d’A. (2019). CRPS: What’s in a name? Taxonomy, epidemiology, neurologic, immune and autoimmune considerations. *Regional Anesthesia and Pain Medicine*, *44*(3), 376–387.
<https://doi.org/10.1136/rapm-2018-100064>

- Stanton-Hicks, M., Jänig, W., Hassenbusch, S., Haddock, J. D., Boas, R., & Wilson, P. (1995). Reflex sympathetic dystrophy: Changing concepts and taxonomy. *Pain*, *63*(1), 127–133.
[https://doi.org/10.1016/0304-3959\(95\)00110-E](https://doi.org/10.1016/0304-3959(95)00110-E)
- Sumitani, M., Shibata, M., Iwakura, T., Matsuda, Y., Sakaue, G., Inoue, T., Mashimo, T., & Miyauchi, S. (2007). Pathologic pain distorts visuospatial perception. *NEUROLOGY*, *68*(2), 152–154.
<https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000250335.56958.f0>
- Sündermann, O., Flink, I., & Linton, S. J. (2020). My body is not working right: A cognitive behavioral model of body image and chronic pain. *Pain*, *161*(6), 1136–1139.
<https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000001822>
- Swart, C. M. A., Stins, J. F., & Beek, P. J. (2009). Cortical changes in complex regional pain syndrome (CRPS). *European Journal of Pain*, *13*(9), 902–907.
- Tajadura-Jiménez, A., Cohen, H., & Bianchi-Berthouze, N. (2017). Bodily Sensory Inputs and Anomalous Bodily Experiences in Complex Regional Pain Syndrome: Evaluation of the Potential Effects of Sound Feedback. *Frontiers in Human Neuroscience*, *11*, 379.
<https://doi.org/10.3389/fnhum.2017.00379>
- Tékus, V., Hajna, Z., Borbély, É., Markovics, A., Bagoly, T., Szolcsányi, J., Thompson, V., Kemény, Á., Helyes, Z., & Goebel, A. (2014). A CRPS-IgG-transfer-trauma model reproducing inflammatory and positive sensory signs associated with complex regional pain syndrome: *Pain*, *155*(2), 299–308. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2013.10.011>
- Ten Brink, A. F., Halicka, M., Vittersø, A. D., Jones, H. G., Stanton, T. R., & Bultitude, J. H. (2021). Validation of the Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale. *The Journal of Pain*, *S1526590021002157*. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2021.04.007>
- Ten Brink, A. F., Halicka, M., Vittersø, A. D., Keogh, E., & Bultitude, J. H. (2021). Ignoring space around a painful limb? No evidence for a body-related visuospatial attention bias in complex regional pain syndrome. *Cortex; a Journal Devoted to the Study of the Nervous System and Behavior*, *136*, 89–108. <https://doi.org/10.1016/j.cortex.2020.12.007>

- Terkelsen, A. J., & Birklein, F. (2022). Complex Regional Pain Syndrome or Limb Pain: A Plea for a Critical Approach. *Journal of Pain Research*, *15*, 1915–1923.
<https://doi.org/10.2147/JPR.S351099>
- Tschopp, M., Swanenburg, J., Wertli, M. W., Langenfeld, A., McCabe, C. S., Lewis, J., Baertschi, E., & Brunner, F. (2018). Die deutsche Version der Bath Body Perception Disturbance Scale (BBPDS-D): Übersetzung, kulturelle Anpassung und linguistische Validierung an Patienten mit komplexem regionalem Schmerzsyndrom. *Der Schmerz*, *32*(3), 195–200.
<https://doi.org/10.1007/s00482-018-0294-6>
- van den Berg, C., Bree, P., Huygen, F., & Tiemensma, J. (2022). Glucocorticoid treatment in patients with complex regional pain syndrome: A systematic review. *European Journal of Pain*, *26*.
<https://doi.org/10.1002/ejp.2025>
- van Velzen, G. A. J., Rombouts, S. A. R. B., van Buchem, M. A., Marinus, J., & van Hilten, J. J. (2016). Is the brain of complex regional pain syndrome patients truly different? *European Journal of Pain*, *20*(10), 1622–1633. <https://doi.org/10.1002/ejp.882>
- Verfaille, C., Filbrich, L., Rossetti, Y., Berquin, A., Mouraux, D., Barbier, O., Libouton, X., Fraselle, V., & Legrain, V. (2021). Visuomotor impairments in complex regional pain syndrome during pointing tasks. *PAIN*, *162*(3), 811. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000002068>
- Vittersø, A. D., Buckingham, G., Ten Brink, A. F., Halicka, M., Proulx, M. J., & Bultitude, J. H. (2021). Normal manual straight ahead pointing in Complex Regional Pain Syndrome. *PloS One*, *16*(12), e0261614. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0261614>
- Vittersø, A. D., Halicka, M., Buckingham, G., Proulx, M. J., & Bultitude, J. H. (2022). The sensorimotor theory of pathological pain revisited. *Neuroscience & Biobehavioral Reviews*, *139*, 104735.
<https://doi.org/10.1016/j.neubiorev.2022.104735>
- Wertli, M., Bachmann, L., Weiner, S., & Brunner, F. (2013). Prognostic factors in complex regional pain syndrome 1: A systematic review. *Journal of Rehabilitation Medicine*, *45*(3), 225–231.
<https://doi.org/10.2340/16501977-1103>

- Wiffen, P. J., Derry, S., Bell, R. F., Rice, A. S., Tölle, T. R., Phillips, T., & Moore, R. A. (2017). Gabapentin for chronic neuropathic pain in adults. *Cochrane Database of Systematic Reviews*, 6. <https://doi.org/10.1002/14651858.CD007938.pub4>
- Wittayer, M., Dimova, V., Birklein, F., & Schlereth, T. (2018). Correlates and importance of neglect-like symptoms in complex regional pain syndrome: *Pain*, 159(5), 978–986. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000001173>
- World Health Organization (WHO). (2019). *International Classification of Diseases, Eleventh Revision (ICD-11)*. <https://icd.who.int/browse11>
- Zyluk, A. (1998). The natural history of post-traumatic reflex sympathetic dystrophy. *Journal of Hand Surgery (Edinburgh, Scotland)*, 23(1), 20–23. [https://doi.org/10.1016/s0266-7681\(98\)80211-8](https://doi.org/10.1016/s0266-7681(98)80211-8)
- Zyluk, A. (1999). The Usefulness of Quantitative Evaluation of Three-Phase Scintigraphy in the Diagnosis of Posttraumatic Reflex Sympathetic Dystrophy. *Journal of Hand Surgery*, 24(1), 16–21. [https://doi.org/10.1016/S0266-7681\(99\)90011-6](https://doi.org/10.1016/S0266-7681(99)90011-6)

Liste des travaux

Publications dans des revues internationales à comité de lecture

Acapo, S., Osinski, T., Rulleau, T., Dupeyron, A., & Nizard, J. (2022). **Assessment of body perception disturbances in complex regional pain syndrome: A systematic review using the COSMIN guideline.** *European Journal of Pain*, *ejp.2032*.
<https://doi.org/10.1002/ejp.2032>

Publications soumises dans des revues internationales à comité de lecture

Translation, cross-cultural adaptation and validation of the French version of the Bath Body Perception Disturbance Scale in Complex Regional Pain Syndrome

Sessi ACAPO, Julien NIZARD, Thomas RULLEAU, Nicolas KACKI, Sabine CHABALIER, Thibault MURA, Arnaud DUPEYRON

Under review: *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* (Annexe 4)

Publications dans des revues professionnelles

Acapo, S. (2019). Outils diagnostiques et prise en charge thérapeutique du syndrome douloureux régional complexe. *Mains Libres*, *3*, 7.

Acapo, S., Seyrès, P., & Savignat, E. (2017). Définition et évaluation de la douleur. *Kinésithérapie, La Revue*, *17*(186), 44–55.

Communications scientifiques (congrès nationaux et internationaux)

Acapo S., Nizard J., Dupeyron A., French translation and cross-cultural adaptation of the Bath Body Perception Disturbances Scale (poster +video)
International Association for the Study of Pain (IASP), Toronto, Canada, September 2022

Acapo S., Osinski T., Dupeyron A., Nizard J., How to assess body perception disturbances in Complex Regional Pain Syndrome: a systematic review (poster + video)
International Association for the Study of Pain (IASP), Virtual World Congress on Pain, juin 2021

Acapo, S., & Osinski, T. (2019). Comment repérer un Syndrome Douloureux Régional Complexe en pratique: Les outils de diagnostic. *Kinésithérapie, la Revue*, *19*(206), 96–115.
<https://doi.org/10.1016/j.kine.2018.12.011> (poster)
Journées Francophone de Kinésithérapie, Montpellier, février 2019

Acapo S., Osinski T., Rulleau T., Dupeyron A., Berthelot JM, Nizard J., Revue systématique : évaluation des troubles de la perception du corps dans le Syndrome Douloureux Régional Complexe

Congrès national de la Société Française d'Etude et de Traitement de la Douleur (SFETD), Lille, novembre 2018

Chapitres de livre

Osinski, T., & Pallot, A. (2022). Rééducation des patients douloureux (Elsevier Masson). (2 chapitres)

Publications en dehors du sujet de thèse

- Osinski, T., & **Acapo, S.** (2017). Le concept de neurosignature de la douleur est-il valide ? *Kinésithérapie, la Revue*, 17(184), 23–24. <https://doi.org/10.1016/j.kine.2017.02.016>
- Gleonec, A., & **Acapo, S.** (2022). Kinésithérapie et syndrome douloureux régional complexe: Quelle place est accordée à l'éducation thérapeutique ? *Kinésithérapie, la Revue*, 22(245), 38–40. <https://doi.org/10.1016/j.kine.2021.11.002>
- Roby-Brami, A., Lefèvre Colau, M.-M., Parry, R., **Acapo, S.**, Rannou, F., & Roren, A. (2020). Orientation of the Head and Trunk During Functional Upper Limb Movement. *Applied Sciences*, 10(6), 2115. <https://doi.org/10.3390/app10062115>
- Osinski, T., **Acapo, S.**, Bensmail, D., Bouhassira, D., & Martinez, V. (2020). Central Nervous System Reorganization and Pain After Spinal Cord Injury: Possible Targets for Physical Therapy—A Systematic Review of Neuroimaging Studies. *Physical Therapy*, 100(6), 946–962. <https://doi.org/10.1093/ptj/pzaa043>
- Roren, A., Lefèvre-Colau, M.-M., **Acapo, S.**, & Roby-Brami, A. (2017). Head and trunk 3D orientation during heading and pointing tasks. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine*, 60, e52. <https://doi.org/10.1016/j.rehab.2017.07.197>
- Roren, A., Nguyen, C., Zauderer, J., **Acapo, S.**, Rannou, F., Roby-Brami, A., & Lefèvre Colau, M.-M. (2020). Arm elevation involves cervical spine 3-D rotations. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine*, 63(4), 372–375. <https://doi.org/10.1016/j.rehab.2019.09.005>
- Rulleau, T., Planche, L., Etcheverrigaray, F., Dorion, A., Kacki, N., Miot, M., Liaigre, A., Ganem, Y., Schmidt, A., Taddéi, F., **Acapo, S.**, Nizard, J., & Pluchon, Y. M. (2020). Comparison of patient-led, fibromyalgia-orientated physical activity and a non-specific, standardised 6-month physical activity program on quality of life in individuals with fibromyalgia: A protocol for a randomised controlled trial. *Trials*, 21(1), 800. <https://doi.org/10.1186/s13063-020-04730-3>

Annexes

Annexe 1 : poster présenté au congrès des Journées Francophones de Kinésithérapie, Montpellier, 2019

Annexe 2 : Recommandations diagnostiques et de prise en charge thérapeutique des syndromes douloureux régionaux complexes, les recommandations de Lille.

Annexe 3 : **article** Outils diagnostiques et prise en charge thérapeutique du syndrome douloureux régional complexe. *Mains Libres*, 3, 7. Acapo, S. (2019).

Annexe 4 : soumission de l'article Translation, cross-cultural adaptation and validation of the Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale in French, under review in *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine*

Annexe 5 : traduction française de l'échelle de Bath

Annexe 6 : modèle cognitivo-comportemental de l'image du corps et de la douleur chronique

Annexe 7 : lettre d'intention au PHRIP 2023.

13

Comment repérer un Syndrome Dououreux Régional Complexe en pratique : les outils de diagnostic

S. Acapo^{a,*}, T. Osinski^b

^a Laboratoire Thérapeutiques (EA3826), Faculté de Médecine, 1, rue Gaston-Veill, 44035 Nantes, France ; ^b Unité mixte de recherche 987 Physiopathologie et pharmacologie clinique de la douleur, Hôpital Ambroise-Paré, 9, Avenue Charles-De-Gaulle, 92100 Boulogne Billancourt, France

* Auteur correspondant.

Adresse e-mail : sessi.acapo@gmail.com

Mots clés : Diagnostic ; SDRC

Association concernée.– SFP.

Introduction.– Le Syndrome Dououreux Régional Complexe (SDRC) est une pathologie complexe, avec des présentations clinique

variées, caractérisée par des douleurs disproportionnées par rapport aux lésions initiales, des troubles trophiques, moteurs, ainsi que des altérations de la perception du corps [1]. Sa physiopathologie reste encore imparfaitement connue ce qui rend le diagnostic difficile. Par le passé, plusieurs auteurs ont proposé des définitions et diagnostics non standardisés basés sur leur expérience clinique. Pour pallier à ce « chaos diagnostic » [2], l'International Association for the Study of Pain (IASP) a réuni des experts lors de conférences de consensus (Conférence de Schloss Rettershof en 1988, Orlando en 1994 et Budapest en 2003). Le travail présenté ci-après a pour but de synthétiser et présenter les dernières recommandations de diagnostic concernant le SDRC, directement utilisables au cabinet.

Matériel, population et méthode.– Revue narrative de la littérature.

Résultats.– La conférence de consensus d'Orlando (94) a vu l'adoption du nom SDRC et de critères diagnostics codifiés. Le diagnostic se veut descriptif, général, sans référence à la physiopathologie. Les études de validation menées [3] ont montré une bonne sensibilité (0,98) et une spécificité très basse (0,36), ce qui amenait à un diagnostic correct dans seulement 40 % des cas [4]. Outre la méthodologie du consensus, les limites résidaient dans la faible spécificité amenant en un fort taux de surdiagnostic. En 2003, la conférence de Budapest, a donc fixé comme objectif leur amélioration. En modifiant les critères diagnostics (ajout des troubles moteurs et trophiques) et les règles de décision (2 signes sur 4 et 3 symptômes sur 4), il fut possible d'obtenir une sensibilité 0,85 et une spécificité 0,69. Ceci semble être la meilleure combinaison pour la clinique. Les imageries (radiographie, scintigraphie, IRM, etc.) ont une influence limitée dans la démarche diagnostique et dans le traitement, à l'exception de leur rôle dans l'exclusion de pathologies autres [5]. Les méthodes d'imagerie, comme la scintigraphie [6], ne sont pas capables de différencier significativement les changements post-traumatiques normaux des changements dus au SDRC [7–8].

Conclusion ou discussion.– Il n'existe pas de test spécifique pour confirmer ou exclure le SDRC à ce jour [4]. Le diagnostic repose sur des critères cliniques [5]. Les critères de Budapest sont largement admis et utilisés en recherche et sont actuellement l'outil le plus performant pour le diagnostic de SDRC.

Déclaration de liens d'intérêts.– Les auteurs déclarent ne pas avoir de liens d'intérêts.

Références

- [1] Lotze M, Lorimer Moseley G. Role of distorted body image in pain. *Curr Rheumatol Rep* 2007;9(6):488–96.
- [2] Harden NR, Oaklander AL, Burton AW, Perez RSGM, Richardson K, Swan M, et al. Complex regional pain syndrome: practical diagnostic and treatment guidelines, 4th ed. *Pain Med* 2013;14(2):180–229. <https://doi.org/10.1111/pme.12033>.
- [3] Bruehl S, Harden NR, Galer BS, Saltz S, Bertram M, Backonja M, et al. External validation of IASP diagnostic criteria for complex regional pain syndrome and proposed research diagnostic criteria. *Pain* 1999;81(1):147–54.
- [4] Harden NR, Bruehl S, Perez RSGM, Birkelein F, Marinus J, Maihofner C, Lubenow T, et al. Validation of Proposed Diagnostic Criteria (the "Budapest Criteria") for Complex Regional Pain Syndrome. *Pain* 2010;150(2):268–74. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2010.04.030>.
- [5] Jae Won L, Ki Lee S, Sik Choy W. Complex Regional Pain Syndrome Type 1: Diagnosis and Management. *J Hand Surg* 2018;23(1):1–10. <https://doi.org/10.1142/S2424835518300013>.
- [6] Held U, Brunner F, Steurer J, Wertli MM. Bayesian meta-analysis of test accuracy in the absence of a perfect reference test applied to bone scintigraphy for the diagnosis of complex regional pain syndrome: Bayesian meta-analysis of bone scintigraphy. *Biomed J* 2015;57(6):1020–37.
- [7] Schumann M, Johannes Z, Tutic M. Imaging in early posttraumatic complex regional pain syndrome. *Clin J Pain* 2007;23(5):9.

[8] Harden NR, Bruehl S, Stanton-Hicks M, Wilson PR. Proposed new diagnostic criteria for complex regional pain syndrome. *Pain Med* 2007;8(4):326–31. <https://doi.org/10.1111/j.1526-4637.2006.00169.x>.

Comment repérer un Syndrome Douloureux Régional Complexe : les outils de diagnostic

ACAPO S., OSINSKI T., DUPEYRON A., NIZARD J.

Auteur correspondant : sessi.acapo@gmail.com

Introduction

Le SDRC est une pathologie complexe caractérisée par des douleurs disproportionnées par rapport aux lésions initiales, des troubles vasculaires, trophiques, moteurs, ainsi que des troubles sensoriels avec des altérations de la perception du corps [1]. Sa physiopathologie reste encore imparfaitement connue. Il en résulte un manque de « gold standard » diagnostic [2].

Par le passé, plusieurs auteurs ont proposé des définitions et diagnostics non standardisés basés sur leur expérience clinique. Au milieu de ce « chaos diagnostic » [3], l'International Association for the Study of Pain (IASP) a réuni des experts lors de conférences afin d'adopter des définitions consensuelles (Conférence de Schloss Rettershof en 1988, conférence d'Orlando en 1994 et de Budapest en 2003).

Le travail présenté ci-après a pour but de synthétiser et de présenter les dernières recommandations en matière de diagnostic concernant le SDRC, directement utilisables par les kinésithérapeutes au cabinet.



Repérer un SDRC : Les nouveaux critères de l'IASP, dits Critères de Budapest

Le diagnostic du SDRC est fait principalement sur des critères cliniques et il n'existe à ce jour aucun test spécifique pour confirmer ou exclure le SDRC [4].

La conférence de consensus d'Orlando de 1994, organisée par l'IASP a vu l'adoption du nom Complex Regional Pain Syndrome (Syndrome Douloureux Régional Complexe (SDRC) en français) et de critères diagnostics (dits de l'IASP) codifiés (sensibilité 0.98 ; spécificité 0.36). Outre la méthodologie du consensus, les limites résidaient dans la faible spécificité amenant en un fort taux de surdiagnostic. Dans les faits, ces

critères ont été peu utilisés dans la littérature.

En 2003, la conférence de Budapest, toujours organisée par l'IASP, avait pour objectif l'amélioration des critères. En modifiant les catégories et en combinant les règles de décisions, ces nouveaux critères dits de Budapest (cf tableau) ont amélioré la sensibilité (0.99) et surtout la spécificité (0.68) du diagnostic. La nouveauté de ces critères résidait également dans le fait de proposer deux règles de décisions visant à privilégier pour l'une la sensibilité (pour un usage clinique afin de ne pas « manquer » un diagnostic ;

sensibilité 0.99, spécificité 0.68) et pour l'autre la spécificité (pour un usage de recherche, afin de minimiser les faux positifs ; sensibilité 0.78, spécificité 0.90) [2]. Ces critères sont largement utilisés dans la littérature et font l'objet de recommandations internationales [5].

En janvier 2019, la European Pain Federation a publié des standards concernant le diagnostic et le traitement du SDRC. Le Standard n°1 indique que les critères de Budapest doivent être utilisés pour le diagnostic [6].

A) Le patient a des douleurs continues, disproportionnées par rapport à l'évènement initial	<input type="checkbox"/>
B) Le patient doit présenter au moins un signe au moment de l'évaluation dans 2 ou plus des catégories suivantes	<input type="checkbox"/>
C) Le patient doit rapporter au moins un symptôme dans 3 ou 4 des catégories suivantes	<input type="checkbox"/>
D) Il n'existe pas d'autre diagnostic qui explique mieux les signes et symptômes	<input type="checkbox"/>

Catégorie	Signe (vous pouvez voir ou détecter un problème)	Symptôme (le patient rapporte un problème)
1. Somatosensorielle	hyperalgésie (pic/touche) et/ou allodynie (au toucher léger et/ou pression profonde et/ou mouvement articulaire)	<input type="checkbox"/> (y compris l'hyperesthésie)
2. Vasomoteur	différence de température et/ou changement de couleur de peau et/ou différence de couleur de peau	<input type="checkbox"/> (la différence de température doit être au minimum de 1°)
3. Sudomoteur/cédème	œdème et/ou changement de la sudation et/ou différence de sudation	<input type="checkbox"/>
4. Moteur/trophique	amplitudes articulaires diminuées et/ou dysfonction motrice (faiblesse, tremblements, dystonie) et/ou changements trophiques (poils, ongles, peau)	<input type="checkbox"/>

Notes pour l'utilisation des critères

- Si A, B, C et D sont cochés, vous pouvez établir le diagnostic de SDRC (sen 0.99 et spé 0.68) ; en cas de doute, vous pouvez référer le patient à un centre spécialisé.
- Les troubles psychologiques (anxiété, dépression ou psychose) n'excluent pas le diagnostic de SDRC.
- Une autre règle de décision pour la recherche peut être utilisée : le patient doit rapporter des symptômes dans les 4 catégories et vous devez observer un signe dans au moins 2 catégories (sensibilité 0.78, spécificité 0.90).
- Si le patient a un nombre de signes/symptômes ne permettant pas le diagnostic clair mais que ses signes/symptômes ne peuvent pas être expliqués par un autre diagnostic, le diagnostic SDRC-NOS (Not Otherwise Specified) peut être posé. Ceci inclut les patients qui ont eu des signes/symptômes de SDRC dans le passé.
- La distinction entre SDRC de type I et de type II (avec lésion nerveuse avérée) peut être renseignée mais a peu d'influence sur le traitement.

Et les examens complémentaires ?



Le SDRC est un diagnostic d'exclusion [6] : à ce jour, l'utilisation des examens complémentaires est recommandée dans la recherche d'autres pathologies [4]. Il existe toujours des opinions d'experts différentes concernant l'utilisation de la scintigraphie [7] et de l'IRM, mais la majorité ne les considère pas comme utiles [6]. En effet, les méthodes d'imagerie ne sont pas capables d'identifier des changements spécifiques au SDRC [8].

La European Pain Federation spécifie dans son Standard n°2 que le diagnostic du SDRC ne nécessite pas de tests diagnostiques, à l'exception de l'exclusion d'autres diagnostics [6].

Les challenges des critères de Budapest

CRPS NOS : la catégorie de patients dont le diagnostic n'est pas clair fait encore l'objet de recherches spécifiques.

Standardisation des pratiques : les critères de Budapest sont maintenant largement utilisés dans la littérature et font partie des recommandations internationales ; cependant, leur utilisation dans la pratique courante doit a priori être améliorée. En 2017, 1/3 des praticiens (kinésithérapeutes, ergothérapeutes et infirmiers spécialisés dans la prise en charge de la douleur persistante) participant à une enquête répondaient n'utiliser aucun critère diagnostic et seulement un peu plus de la moitié les critères de Budapest [9].

Conclusion

Les critères de Budapest sont, à l'heure actuelle, le meilleur outil disponible pour établir un diagnostic de SDRC. L'amélioration des critères est un processus continu ; s'ils sont la meilleure solution disponible à ce jour, ils seront sûrement modifiés dans le futur.

Annexe 2 : Recommandations diagnostiques et de prise en charge thérapeutique des syndromes douloureux régionaux complexes, les recommandations de Lille. Groupe de projet spécifique de la Société Française d'Etude et de Traitement de la Douleur, Douleur et Analgésie, 2019 <https://dea.revuesonline.com/10.3166/dea-2019-0074>

Tableau 1 Recommandations de Lille

Reco 1, Grade B

Il est recommandé d'utiliser les critères de Budapest pour le diagnostic des SDRC dans la pratique clinique quotidienne ainsi que dans les travaux scientifiques

Reco 2, Reco d'experts

L'existence de symptômes sévères ou atypiques (hématomes inexplicables, dystonie, signes de garrot, etc.) nécessite une évaluation pluriprofessionnelle en centre d'évaluation et de traitement de la douleur

Reco 3, Reco d'experts

3a- Le diagnostic de SDRC est essentiellement clinique

3b- Le principal intérêt des examens morphologiques est d'éliminer les diagnostics différentiels des SDRC

3c- Les examens complémentaires n'ont pas d'intérêt pour documenter l'évolution de l'affection

Reco 4, Grade B

Compte tenu des faibles coûts, et des très faibles risques d'effets indésirables de la vitamine C, il est raisonnable de recommander la supplémentation en vitamine C aux patients opérés d'une fracture du poignet, à une posologie de 500 mg par jour, pendant une durée de 50 jours

Reco 5, Grade B

Il n'est probablement pas recommandé de pratiquer particulièrement une anesthésie locorégionale ou une anesthésie générale pour prévenir la survenue d'un SDRC

Reco 6, Reco d'experts

Dans la prise en charge d'un traumatisme ou d'une douleur, l'immobilisation du membre doit être limitée autant que possible

Reco 7, Reco d'experts

Une approche éducative doit être proposée pour rassurer le patient et l'entourage, promouvoir l'autogestion des symptômes et favoriser une mobilisation précoce

Reco 8

La réadaptation fonctionnelle

8a- Doit être proposée systématiquement et précocement chez tout patient souffrant de SDRC présentant des limitations de mobilité articulaire et/ou une diminution d'utilisation du membre (Grade B)

8b- A pour objectif de maintenir ou restaurer l'utilisation la plus normale possible du membre dans tous les domaines de la vie quotidienne (Grade B)

8c- Propose essentiellement

8c1- Des exercices analytiques et fonctionnels variés, dont l'intensité est ajustée afin d'éviter d'aggraver durablement les symptômes (une augmentation temporaire est acceptable) [Grade B]

8c2- L'apprentissage de stratégies de gestion de la douleur et des activités (relaxation, fractionnement des activités...) [Grade B]

8c3- Un reconditionnement physique global chez les patients déconditionnés (Reco d'experts)

Reco 9

La réadaptation fonctionnelle

9a- Peut être réalisée par un kinésithérapeute de ville dans les situations où l'atteinte est légère à modérée (Reco d'experts)

9b- Doit être réalisée par une équipe multidisciplinaire (centre de réadaptation ou centre de la douleur) dans les situations les plus sévères (douleur, limitations fonctionnelles, détresse élevée, dystonie) ou lorsque les symptômes s'aggravent avec le temps (Reco d'experts)

9c- Un traitement antalgique adapté peut être nécessaire pour permettre la mobilisation (Reco d'experts)

Reco 10

Les drainages lymphatiques manuels ne sont pas recommandés (Grade C)

Reco 11

L'immobilisation prolongée du membre est à proscrire (Grade C)

Reco 12

Les thérapies suivantes peuvent être proposées aux patients souffrant de SDRC, en association avec le traitement réadaptatif

12a- Un essai de thérapie par feed-back visuel avec miroirs (Grade C)

12b- Un essai de thérapie par entraînement de la discrimination sensorielle (Grade C)

12c- Une thérapie d'exposition graduée aux activités perçues par le patient comme dangereuses, lorsqu'ils présentent un niveau élevé de peur-évitement (Grade C)

Reco 13 Drapeau orange : recours conseillé au psychologue ou au psychiatre

13a- Demande de soins exprimée semblant inadéquate

13b- Existence d'un litige/procédure, d'une recherche de compensation

13c- Phobie du contact

13d- Tout état thymique défavorable : trouble de l'humeur (dont syndrome dépressif), anxiété, détresse...

Reco 14 Drapeau rouge : recours nécessaire au psychologue ou au psychiatre

14a- État de stress post-traumatique et/ou vécu corporel traumatique

14b- Retentissement majeur sur la qualité de vie : désocialisation, désorganisation de la vie affective...

14c- Présence de propos ou de comportements suicidaires

14d- Suspicion de troubles factices

14e- Suspicion de pathologies psychiatriques

14g- Suspicion de somatisation d'un trouble psychique

Reco 15, Reco d'experts

Il n'est pas recommandé d'utiliser les AINS dans les SDRC quelle que soit la durée d'évolution

Reco 16, Reco d'experts

Il n'est pas recommandé d'utiliser les corticoïdes dans les SDRC

Reco 17, Grade C

Il est recommandé de ne pas utiliser les opioïdes forts dans les SDRC

Reco 18, Reco d'experts

Le paracétamol et les opioïdes faibles peuvent être proposés dans les SDRC afin de faciliter la prise en charge rééducative. Il est nécessaire de réévaluer régulièrement l'efficacité, la tolérance et l'éventuel mésusage de ces traitements

Reco 19, Reco d'experts

Il est recommandé, s'il existe des troubles sensitifs dans le SDRC (allodynie, hyperalgésie, signes neurologiques négatifs ou positifs), d'envisager la prescription d'un médicament recommandé dans le traitement des douleurs neuropathiques (gabapentinoïde, antidépresseur tricyclique ou SNRI), associé à une prise en charge réadaptative, en informant le patient des effets secondaires et des bénéfices attendus

Reco 20, Grade B

Il n'est pas recommandé d'utiliser la calcitonine dans les SDRC

Reco 21, Grade B

Il est recommandé d'envisager une cure unique de bisphosphonate (pamidronate) dans les SDRC, en respectant les conditions suivantes

21a- SDRC évoluant depuis moins d'un an

21b- Positivité de la scintigraphie osseuse au technétium prouvant l'hyperactivité osseuse

21c- Après avoir effectué un bilan buccodentaire préalable, suivi des soins nécessaires

21d- Le traitement est réalisé au sein d'une prise en charge pluridisciplinaire et associé à une prise en charge physique

Reco 22, Reco d'experts

Il est recommandé d'appliquer un patch de lidocaïne au cours de SDRC présentant une allodynie tactile, sur l'aire délimitée par l'allodynie

Reco 23

23a- En l'absence de données suffisantes d'efficacité, de tolérance et de posologie ad hoc, aucune recommandation ne peut être proposée pour l'utilisation de la kétamine dans le traitement des SDRC (Grade C)

23b- En l'absence de données suffisantes d'efficacité, de tolérance et de posologie ad hoc, aucune recommandation ne peut être proposée pour l'utilisation de la toxine botulique dans le traitement des SDRC (Grade C)

23c- En l'absence de données suffisantes d'efficacité, de tolérance et de posologie ad hoc, il n'est pas possible d'émettre une recommandation d'utilisation de la lidocaïne i.v. dans le traitement des SDRC (Grade C)

Reco 24, Grade C

L'utilisation du baclofène intrathécal n'est pas recommandée dans le traitement des SDRC

Reco 25, Reco d'experts

La neurostimulation transcutanée apparaît comme une méthode thérapeutique simple, inoffensive, peu coûteuse. Elle nécessite une application persévérante, un apprentissage rigoureux, une bonne adhésion du patient et enfin doit être intégrée dans le cadre d'une prise en charge rééducative et psychologique

Reco 26, Grade B

La stimulation médullaire chronique peut être proposée en cas de SDRC chronique après un délai d'évolution d'un an, résistant aux traitements conventionnels, aux conditions suivantes

26a- Au terme d'une évaluation multidimensionnelle réalisée au sein d'une structure spécialisée douleur chronique

26b- Dans le cadre d'une prise en charge rééducative globale et psychologique

26c- En cas de prédominance de la composante douloureuse neuropathique

Outils diagnostiques et prise en charge thérapeutique du syndrome douloureux régional complexe

Complex Regional Pain Syndrome: A Review of Diagnostic Tools and Therapeutic Strategies

SESSI ACAPO, (PT, MSC, PhDc)

Laboratoire de thérapies (EA3826), Université de Nantes, 44093 Nantes cedex 1

L'auteure ne présente pas de conflit d'intérêt.

Article reçu en mai 2019, accepté en août 2019.

Keywords

Complex regional pain syndrome, diagnosis, Budapest criteria, chronic pain

Abstract

Introduction: Complex Regional Pain Syndrome (CRPS) is essentially characterized by delayed onset of pain disproportionate to the initial lesions and vascular, trophic, and motor disorders, as well as sensory disorders with distorted body image. The pathophysiology of Complex Regional Pain Syndrome (CRPS) remains poorly elucidated. As a result, the lack of a gold standard makes diagnosis difficult.

Objective: This article introduces diagnostic tools to identify CRPS and addresses their importance for treatment.

Development: In the past, several authors proposed definitions and non-standardized diagnostic criteria based on clinical experience. In order to resolve this « diagnostic chaos », the International Association for the Study of Pain (IASP) organized consensus conferences with invited experts. The term SDRC and the IASP diagnostic criteria were adopted at the Orlando conference in 1994. They currently represent the most recent international recommendations on the subject. In Budapest (2003), these criteria were revised and improved, and they were validated in 2010 (sensitivity 0.99, specificity 0.68). Bone scintigraphy and MRI are useful to exclude other pathologies, as the diagnosis remains clinical with the Budapest criteria.

Mots clés

Syndrome douloureux régional complexe, diagnostic, critères de Budapest, douleur chronique

Résumé

Introduction: Le Syndrome Douloureux Régional Complexe (SDRC) est une pathologie complexe caractérisée par des douleurs disproportionnées par rapport aux lésions initiales, des troubles vasculaires, trophiques, moteurs, ainsi que des troubles sensoriels avec des altérations de la perception du corps. Sa physiopathologie reste encore imparfaitement connue. Il en résulte des difficultés pour l'identifier dues à un manque de « gold standard » diagnostique.

Objectif: Cet article a pour but la présentation des recommandations actuelles basées sur les preuves pour le diagnostic du SDRC et leur importance pour le traitement.

Développement: Par le passé, plusieurs auteurs ont proposé des définitions et diagnostics non standardisés basés sur leur expérience clinique. Au milieu de ce « chaos diagnostique », l'International Association for the Study of Pain (IASP) a réuni des experts lors de conférences de consensus afin d'y remédier. La conférence d'Orlando en 1994 a vu l'adoption du terme SDRC et des critères diagnostiques dits de l'IASP. La conférence de Budapest en 2003 a eu pour objectif l'amélioration de ces critères. Ceux-ci ont été validés en 2010 (sensibilité 0.99, spécificité 0.68 pour la version clinique),

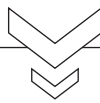
Discussion: Early diagnosis appears to be crucial, as it allows access to appropriate treatment. This may inhibit the disease course and preserve limb function. Of the different types of treatment possible, physiotherapy is essential.

Conclusion: The Budapest criteria are currently the best option to diagnose CRPS and are internationally recommended. The diagnosis, which is based on clinical signs, is essential for adequate care.

faisant partie des recommandations internationales les plus récentes. L'utilisation d'examen complémentaires (IRM, scintigraphie osseuse, etc.) est recommandée pour exclure d'autres pathologies, mais pas pour identifier un SDRC.

Discussion: Un diagnostic précoce semble être un élément clé, permettant au patient l'accès à un traitement approprié. Ceci pourrait permettre de réduire la durée du SDRC et la perte de fonction du membre. Parmi les traitements disponibles, la rééducation a une part essentielle.

Conclusion: Les critères de Budapest sont à l'heure actuelle le meilleur outil disponible pour établir un diagnostic de SDRC. Le diagnostic, qui est avant tout clinique, est crucial pour une prise en charge adaptée.



Introduction

Le Syndrome Dououreux Régional Complexe (SDRC) est une pathologie douloureuse chronique qui se déclare généralement après un événement traumatique. Elle est caractérisée par une douleur sévère et disproportionnée par rapport à l'événement initial⁽¹⁾. La douleur s'étend dans un territoire non spécifique à un nerf et non dermatomal⁽²⁾, et présente des caractéristiques d'hyperalgésie, d'allodynie ou des qualités neuropathiques (brûlure, sensation de froid douloureux, démangeaisons, ...). Suivant les patients, des troubles trophiques (au niveau de la peau, des poils ou des ongles), moteurs (faiblesse, tremblements, dystonie), sensoriels, sudomoteurs, vasomoteurs ou bien des perturbations de la perception du corps^(1,3) peuvent se développer. Dans la grande majorité des cas, seule l'extrémité distale du membre est atteinte, la douleur pouvant s'étendre à la racine du membre de manière exceptionnelle. On distingue deux catégories le SDRC. Le SDRC de type I se développe après tout type de traumatisme (y compris des lésions des tissus mous) et le SDRC de type II est caractérisé par une lésion nerveuse majeure⁽²⁾.

L'incidence du SDRC est difficile à déterminer. Elle varie largement d'une étude à une autre mais demeure peu élevée, de 5.5 à 26.2 pour 100 000 personnes⁽⁴⁾, avec une plus grande incidence après fracture du membre supérieur chez la femme autour de 50 ans⁽¹⁾. Les femmes tendent à être plus atteintes que les hommes (60 à 80%) et le membre supérieur plus que le membre inférieur (ratio 55:45)⁽⁵⁾.

L'évolution naturelle est très variable mais généralement favorable, en moyenne en une année⁽⁶⁾. Cependant la raideur articulaire peut continuer d'affecter jusqu'à 65% des patients à 1 an⁽⁷⁾ et environ 15% des patients vont voir leurs douleurs durer au-delà de deux ans⁽⁸⁾. Ces patients souffrent de douleurs persistantes, de forts niveaux d'incapacité fonctionnelle et d'une qualité de vie altérée⁽⁹⁾. Ces formes chroniques représentent un vrai challenge, les traitements ayant des résultats très limités pour eux.

Bien que des progrès aient été faits dans la compréhension du phénomène douloureux, la physiopathologie du SDRC reste

encore imparfaitement connue et est probablement multifactorielle⁽²⁾. Les hypothèses actuelles concernent l'implication éventuelle de mécanismes inflammatoires, immunitaires, sympathiques ou des modifications du système nerveux central (douleur nociplastique, modifications du cortex somatosensoriel)^(6,10). Il en résulte des difficultés dans le traitement mais aussi pour le diagnostic dû au manque de « gold standard »⁽¹¹⁾.

Par le passé, de nombreux auteurs ont proposé des définitions et diagnostics non standardisés basés sur leur expérience clinique qui n'ont pas rencontré de reconnaissance large. Aussi, au milieu de ce que *Harden et al* nomment un « chaos diagnostique »⁽¹²⁾, l'*International Association for the Study of Pain (IASP)* a organisé des conférences d'experts afin d'adopter des définitions consensuelles et d'établir des règles diagnostiques.

Objectif

Le diagnostic est une étape importante dans le parcours du patient car un diagnostic tardif, courant dans le SDRC, peut contribuer au développement de formes chroniques. Les prises en charges précoces sont associées à un meilleur pronostic⁽⁹⁾. La place du diagnostic est donc particulièrement importante.

Cette revue narrative a pour objectif la présentation des recommandations actuelles basées sur les preuves concernant le diagnostic du SDRC ainsi que des possibilités de prise en charge.

Developpement

Historiquement, *Claude Bernard* (1813-1878) a été le premier à mentionner un syndrome douloureux lié à une dysfonction du système nerveux sympathique⁽¹³⁾. *Silas Weir Mitchell* a quant à lui été le premier à employer le terme de causalgie (du grec *kausos*: chaleur et *algos*: douleur) pour regrouper des signes et symptômes observés chez des soldats pendant la guerre de Sécession, en 1864⁽¹⁴⁾. Il décrit des douleurs à type de brûlure, des œdèmes, des changements de couleur et de température des membres, de l'allodynie ainsi que des douleurs et raideurs des articulations comme résultat de lésions nerveuses dues à des blessures par balles⁽¹⁵⁾. En 1900, *Sudeck* rapporte une atrophie osseuse sévère,

rapide et douloureuse se développant après le traumatisme⁽¹⁶⁾. Cette description comprenait de nombreuses caractéristiques relevées par *Mitchell* dans « sa » causalgie. *Sudeck* y attribuait une origine inflammatoire et la « maladie de *Sudeck* » ou « atrophie de *Sudeck* » ont été nommées d'après ses travaux. Il a notamment identifié l'atrophie osseuse localisée grâce à l'émergence de la radiographie⁽¹⁾. En 1916, le chirurgien français *Leriche* rapportait que la causalgie pouvait être traitée par sympathectomie chirurgicale. En 1946, *Evans* proposa le nom « *reflex Sympathetic Dystrophy* » (RSD), sous-entendant l'implication du système nerveux sympathique dans la pathophysiologie de la maladie. *Bonica* reprit le terme dans la première édition de son livre « *The Management of Pain* »⁽¹⁷⁾. Il décrit également l'évolution du syndrome en 3 phases, largement reprise après lui.

Ceci n'est qu'un échantillon des noms et auteurs que l'on retrouve dans l'histoire du SDRC. En effet, approximativement 80 différents noms existent en langue anglaise, 32 en français et d'autres encore dans différentes langues, pour ce qui peut être réuni sous le même syndrome⁽¹⁸⁾. Par exemple, le terme algodystrophie, algoneurodystrophie ou syndrome épaule-main, encore populaires en France, sont peu utilisés en langue anglaise où les termes « *Reflex Sympathetic Dystrophy* » (RSD) ou « *causalgia* », étaient beaucoup utilisés jusqu'à récemment⁽¹⁵⁾.

L'existence de tous ces syndromes/maladies avec des dénominations différentes a entraîné une certaine confusion, chaque expert proposant ses critères diagnostiques et son hypothèse pathophysiologique tirés de sa propre expérience clinique^(13,19).

En 1986, une description formelle du RSD est publiée par l'IASP, sans critères diagnostiques clairs⁽¹²⁾.

En 1994, afin de clarifier les sources potentielles d'incertitude et de confusion diagnostique l'IASP a organisé une conférence de consensus (*Special Consensus Workshop*) à Orlando, Floride. Cette réunion d'expert avait pour but de proposer une nouvelle taxonomie et des critères diagnostiques pour unifier les pratiques. Le nom *Complex Regional Pain Syndrome* (CRPS) ou Syndrome Douloureux Régional Complexe (SDRC) en français est ainsi adopté à cette occasion. Cette dénomination se veut neutre et évite de mentionner une physiopathologie, étiologie ou caractéristique particulière du syndrome. Le terme SDRC a pour objectif de regrouper les précédentes appellations et de les remplacer afin de clarifier les discours.

Cette conférence de consensus a également introduit la distinction entre SDRC de type I et de type II, ce dernier étant défini par la présence d'une lésion nerveuse.

Il existe également quasiment autant de critères diagnostiques que de noms de syndromes⁽²⁰⁾. On peut remarquer que les critères utilisés dans la littérature étaient fréquemment les propres critères développés par l'équipe de recherche à l'origine de leur définition ou bien ceux publiés dans le même pays que l'auteur. Ceci a été également vecteur de confusion, notamment pour mener des études cliniques de qualité.

Lors de la conférence d'Orlando, les critères diagnostiques furent donc codifiés et réunis par *Merskey* et *Bogduk* dans un livre publié par l'IASP⁽²¹⁾. Le diagnostic se voulait descriptif et

sans référence à la physiopathologie. Dans cette version, le diagnostic est basé sur l'identification d'un facteur déclenchant (traumatisme ou cause d'immobilisation), une douleur disproportionnée (allodynie ou hyperalgésie), la description de symptômes que présente le patient (œdème, troubles vasculaires, troubles vasomoteurs) et l'absence d'autre pathologie expliquant les symptômes. Il n'était fait aucune mention de troubles moteurs ou trophiques dans les critères diagnostiques mais ces signes et symptômes sont listés dans la taxonomie. Les signes vasomoteurs et sudomoteurs étaient réunis dans le même critère et seuls les symptômes rapportés par le patient dans l'histoire de la maladie étaient pris en compte.

Dans une étude portant sur une série de 123 patients afin d'étudier la validité interne des critères⁽²²⁾, la sensibilité de ces critères était de 0.98 et la spécificité de 0.36. Outre la méthodologie du consensus, les limites résidaient dans la faible spécificité amenant en un fort taux de surdiagnostic. En effet, les critères en l'état ne permettaient pas de discriminer de manière satisfaisante les patients atteints de SDRC de patients souffrant de douleurs neuropathiques (environ 40% de diagnostic correct).

Dans les faits, ces critères dits de l'IASP ont été peu utilisés dans la littérature, à cause notamment de résistances de groupes d'experts⁽²³⁾.

Les nouveaux critères de l'IASP dits critères de Budapest

Pour y remédier, l'IASP organise en 2003 à Budapest une autre conférence sous la forme d'un « *workshop* » sur invitation de 35 experts, ayant pour objectif l'amélioration des critères, notamment pour optimiser la spécificité.

Afin de palier au fort taux de surdiagnostic lié aux critères précédemment émis par l'IASP, des modifications ont été proposées⁽²³⁾, puis validées⁽¹²⁾ par des études de validité interne et externe. Les modifications ont consisté en l'ajout de catégories (troubles moteurs et trophiques), tout en différenciant les signes cliniques et les symptômes et en combinant les règles de décisions. En suivant les critères dits cliniques, un patient doit rapporter au moins trois symptômes et l'examineur observer deux signes lors de l'examen clinique dans des catégories différentes (troubles vasomoteurs, sudomoteurs, sensitifs et moteurs/trophiques). Cette règle de décision privilégie une forte sensibilité afin de ne pas « manquer » le diagnostic d'un patient (sensibilité 0.99 et spécificité 0.68). Une autre règle de décision dite de recherche vise à minimiser les faux positifs en privilégiant une forte spécificité (sensibilité 0.78, spécificité 0.90). En pratique quotidienne au cabinet, il est recommandé d'utiliser les critères cliniques. Ces nouveaux critères ont amélioré la reproductibilité inter-examineur ($\kappa = 0.66-0.69$) par rapport aux critères initiaux de l'IASP ($\kappa = 0.43-0.66$). On peut remarquer qu'il n'est plus obligatoire de rapporter un événement déclencheur. Les critères de douleur disproportionnée et l'absence d'autre diagnostic expliquant les signes et symptômes sont toujours présents. Les critères de Budapest sont présentés dans la [Figure 1](#).

L'utilisation des critères de Budapest amènerait à des diagnostics de SDRC corrects à 88%, avec des patients ayant des douleurs neuropathiques correctement identifiés 97% du temps⁽¹²⁾.

A) Le patient a des douleurs continues, disproportionnées par rapport à l'événement initial		<input type="checkbox"/>	
B) Le patient présente au moins un signe au moment de l'évaluation dans 2 ou plus des catégories suivantes		<input type="checkbox"/>	
C) Le patient rapporte au moins un symptôme dans 3 ou 4 des catégories suivantes		<input type="checkbox"/>	
D) Il n'existe pas d'autre diagnostic qui explique mieux les signes et symptômes		<input type="checkbox"/>	
Catégorie		Signe (vous pouvez voir ou détecter un problème)	Symptôme (le patient rapporte un problème)
1. Somatosensorielle	hyperalgésie (pic/touche) et/ou allodynie (au toucher léger et/ou pression profonde et/ou mouvement articulaire)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> (y compris l'hyperesthésie)
2. Vasomoteur	différence de température et/ou changement de couleur de peau et/ou différence de couleur de peau	<input type="checkbox"/> (la différence de température doit être au minimum de 1°)	<input type="checkbox"/>
3. Sudomoteur / œdème	œdème et/ou changement de la sudation et/ou différence de sudation	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. Moteur / trophique	amplitudes articulaires diminuées et/ou dysfonction motrice (faiblesse, tremblements, dystonie) et/ou changements trophiques (poils, ongles, peau)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

> Figure 1: Les critères de Budapest (adaptés de Harden, 2010) — Note pour l'utilisation des critères: Si A, B, C et D sont cochés, le diagnostic de SDRC peut être établi (sensibilité 0.99 et spécificité 0.68) ; en cas de doute, il convient de référer le patient à un centre spécialisé.

Une autre catégorie de diagnostic, CRPS-NOS (Not Otherwise Specified) a été créée pour réunir les patients (environ 15%) qui ne correspondent pas aux critères mais dont les signes et symptômes ne sont pas mieux expliqués par un autre diagnostic. Ce sous-groupe a pour vocation de disparaître avec l'avancée des connaissances en termes de diagnostic et de physiopathologie⁽¹³⁾.

Ces critères sont maintenant largement utilisés dans la littérature et font l'objet de recommandations internationales^(24,25). En janvier 2019, l'European Pain Federation a publié des standards concernant le diagnostic et le traitement du SDRC. Le Standard n°1 indique que les critères de Budapest doivent être utilisés pour le diagnostic⁽²⁶⁾ (Figure 1).

Les troubles psychologiques (anxiété, dépression ou psychose) n'excluent pas le diagnostic de SDRC.

Comme précisé auparavant, une autre règle de décision, spécifique à la recherche peut être utilisée : 4 catégories de symptômes, au moins 2 signes des 4 catégories (sensibilité 0.78, spécificité 0.90).

Si le patient a un nombre de signes/symptômes ne permettant pas le diagnostic clair mais que ses signes/symptômes ne peuvent pas être expliqués par un autre diagnostic, le diagnostic SDRC-NOS (Not Otherwise Specified) peut être posé. Ceci inclut les patients qui ont présenté des signes/symptômes de SDRC dans le passé.

La distinction entre SDRC de type I et de type II (avec lésion nerveuse avérée) peut être renseignée mais a peu d'influence sur le traitement.

Qu'en est-il des facteurs psychologiques dans le diagnostic et le développement du SDRC ?

Parmi les hypothèses pathophysiologiques de développement du SDRC, l'influence des facteurs psychologiques est depuis longtemps sur le devant de la scène. Certains auteurs considéraient que le SDRC était une pathologie hautement psychosomatique⁽¹⁾ par le passé. Cependant, nous ne retrouvons pas de facteur psychologique dans les critères diagnostics: est-ce un oubli ?

Les principaux facteurs psychologiques étudiés incluent les croyances à propos des blessures physiques, la peur liée à la douleur, le catastrophisme, l'anxiété, le stress et la dépression. De nombreuses études ont été conduites et il est maintenant acquis que les facteurs psychologiques ne sont pas des causes de développement du SDRC⁽⁷⁾. Cependant, ils sont certainement des facteurs importants à prendre en compte dans le traitement. En effet, ils semblent influencer la récupération, les patients qui présentent des forts niveaux d'anxiété, de peur liée à la douleur et d'incapacité ayant de plus mauvais résultats.

Les facteurs psychologiques ne font donc pas partie du diagnostic du SDRC. Il semble cependant important de les évaluer, leur

influence dans le décours du syndrome étant négative, comme dans la plupart des pathologies douloureuses chroniques.

Et les examens complémentaires ?

Le recours à des examens complémentaires comme la scintigraphie osseuse et l'imagerie par résonance magnétique (IRM) pour le diagnostic du SDRC demeure source de controverse.

Il existe des opinions d'experts recommandant l'utilisation de la scintigraphie⁽²⁷⁾. Une revue systématique avec méta-analyse⁽²⁸⁾ indique quant à elle, avec 12 études incluses, qu'une « scintigraphie osseuse positive n'est pas nécessairement concordante avec la présence ou l'absence de SDRC ». Outre ces résultats discordants, ils retrouvent que les hommes ont plus de chances d'avoir une scintigraphie positive que les femmes bien que celles-ci soient plus souvent atteintes. De plus, il n'existe pas à ce jour suffisamment d'études pour évaluer le caractère pronostique de la scintigraphie osseuse. Les auteurs de la revue systématique concluent que leurs résultats ne permettent pas de recommander l'utilisation de la scintigraphie osseuse dans le diagnostic du SDRC. Ceci est concordant avec les résultats d'une autre revue systématique sur le sujet⁽²⁹⁾.

À ce jour, l'utilisation des examens complémentaires est recommandée dans la recherche de pathologies autres afin de les exclure et ne pas manquer un diagnostic différentiel⁽²⁴⁾. Les diagnostics différentiels les plus communs à considérer sont l'insuffisance artérielle, l'arthrose, l'arthrite, les traumatismes osseux ou des tissus mous, le syndrome des loges, les infections, ainsi que les obstructions veineuse ou lymphatique⁽⁹⁾. Les méthodes d'imagerie (radiographie, IRM, etc) ne sont pas capables d'identifier des changements spécifiques au SDRC par rapport à des changements attendus après traumatisme⁽³⁰⁾. Elles ne sont donc pas recommandées pour confirmer ou infirmer le diagnostic de SDRC.

L'*European Pain Federation* spécifie dans son Standard n°2 que le diagnostic du SDRC ne nécessite pas de tests diagnostiques, sauf dans le but d'exclure d'autres diagnostics⁽²⁶⁾. De même, les recommandations du Royal College of Physicians du Royaume-Uni ne préconisent pas l'usage de tests additionnels aux critères de Budapest⁽²⁴⁾.

L'électromyographie est considérée comme un examen à titre exceptionnel, du fait qu'il est douloureux et n'apporte généralement pas d'information importante pour la suite du traitement.

Qu'en est-il des 3 phases d'évolution du SDRC ?

Historiquement, 3 étapes d'évolution du SDRC ont été décrites par certains auteurs⁽³¹⁾ d'après leur expérience. Il s'agissait d'une évolution à partir d'une phase « chaude » initiale (caractérisée par un membre œdématié, chaud avec de l'hypersudation et des douleurs importantes), puis une phase « dystrophique » intermédiaire et enfin une phase froide dite « atrophique » caractérisée par des raideurs articulaires importantes, des changements trophiques et membre froid, cyanosé⁽⁶⁾ et moins douloureux⁽³²⁾. La phase initiale et la phase intermédiaires étaient censées durer 3 à 6 mois chacune. La phase dystrophique était considérée comme séquellaire.

L'existence de ces phases n'est pas supportée par la littérature^(6,13,32) et il est conseillé de ne plus les utiliser comme facteur pronostic ou comme information pour le patient.

Récemment, certains auteurs ont proposé l'utilisation de « phénotypes douloureux » caractérisant les patients par leurs symptômes prédominants. Deux sous-groupes se distingueraient : un SDRC « chaud » caractérisé par la chaleur, la rougeur, l'œdème et l'hypersudation du membre, et un SDRC « froid » caractérisé par le fait que le membre soit froid, bleu et moins œdémateux. Approximativement 70 % des patients présenteraient un sous-type « chaud » contre 30 % un sous-type « froid »⁽³³⁾. Les patients présentant un phénotype douloureux de type froid associé à des troubles de la sensibilité auraient un moins bon pronostic⁽⁷⁾. *Bruehl et al*⁽³²⁾ ont proposé l'existence de 3 sous-types de SDRC : un syndrome relativement limité avec des signes vasomoteurs prédominants, un syndrome relativement limité avec des douleurs de type neuropathique et des troubles sensoriels prédominants et un syndrome avec des signes moteurs, trophiques et vasomoteurs plus marqués.

Ces sous-groupes font actuellement l'objet d'études afin de déterminer si certains patients répondent mieux à des traitements spécifiques suivant leur phénotype douloureux. En effet, la physiopathologie étant complexe, les présentations cliniques multiples et la recherche malaisée, il est difficile de proposer un seul traitement pour l'ensemble des patients atteints de SDRC. Il est recommandé d'avoir recours à une prise en charge multidisciplinaire dans les cas sévères⁽²⁶⁾. Les deux principaux axes de traitement sont le contrôle de la douleur (traitement médicamenteux) et la rééducation⁽²⁵⁾.

Discussion

Un diagnostic correct et le plus précoce possible est crucial pour la prise en charge des patients atteints de SDRC. En effet, cela permet à un traitement adapté d'être mis en place tôt, ce qui pourrait réduire la durée du SDRC et préserver la fonction du membre^(8,26). Ce facteur positif de récupération⁽²⁴⁾ est non négligeable dans cette pathologie pouvant être très invalidante. Dans cette optique, les physiothérapeutes sont en première ligne pour repérer ces patients et diminuer le délai de prise en charge. Ils sont également au cœur du traitement. Le standard n° 14 des recommandations de l'*European Pain Federation task force*⁽²⁶⁾ spécifie que « les patients doivent avoir accès à un traitement de rééducation (physiothérapie et/ou ergothérapie), le plus tôt possible dans leur parcours thérapeutique ».

Outre un traitement médicamenteux adapté destiné à réduire la douleur, la rééducation est le traitement le plus souvent recommandé⁽²⁴⁻²⁶⁾. Le traitement antalgique est la première étape de prise en charge, mais il n'est pas rare de voir des patients arrêter toute prise médicamenteuse en raison des forts effets indésirables concomitants. La physiothérapie et l'ergothérapie sont les deux professions de rééducation en ligne de front. Les objectifs thérapeutiques sont l'amélioration de la fonction, la récupération des activités et l'amélioration de la participation aux activités de la vie quotidienne.

La plupart des patients s'améliorent en quelques mois et n'auraient pas besoin de consultation spécialisée, une

prise en charge ambulatoire étant suffisante. Cependant, pour ceux dont la douleur ou la fonction ne s'améliore pas après 2 mois de traitement, une prise en charge spécialisée et pluridisciplinaire semble indiquée. Le délai de 2 mois est préconisé par certains auteurs comme «raisonnable»⁽²⁶⁾ alors que d'autres recommandent un délai d'un mois⁽²⁴⁾.

Les approches thérapeutiques sont variées et toutes n'ont pas fait l'objet d'études contrôlées randomisées. Deux revues Cochrane ont été publiées en 2013 et 2016 sur ce sujet^(34,35). Leurs conclusions ne permettent pas de produire de recommandations de traitement solides, les preuves étant de qualité faible à très faibles. Les approches de physiothérapie peuvent faire appel à des techniques passives et des techniques actives comprenant les exercices, les techniques de rééducation ciblant le cortex sensori-moteur et l'éducation à la douleur.

Différentes techniques passives visant les symptômes trophiques et vasculaires sont adaptées par les rééducateurs⁽³⁴⁾ à la symptomatologie du patient et à ses réactions (exemples : bains contrastés, TENS, massage, cryothérapie, ...). Il n'existe pas de niveau de preuves suffisant pour les recommander.

Parmi les différentes recommandations européennes, l'éducation est largement citée. Il s'agit d'informer le patient sur la pathologie, son caractère bénin et le cours habituel de la maladie. Suivant le courant actuel, l'éducation à la neurophysiologie de la douleur a également sa place, afin de recontextualiser la douleur et d'aborder la différence entre douleur et lésion tissulaire⁽²⁴⁾.

L'activité physique générale, non spécifique au membre atteint, et le renforcement musculaire sont recommandés dans un but d'améliorer la fonction et la qualité de vie du patient. Plus spécifiquement au membre atteint, les exercices visant la mobilité et la fonction sont à privilégier. Dans cette optique, la physiothérapie par exposition à la douleur («Pain exposure» physical therapy ou PEPT)⁽³⁶⁾ semble être une piste de traitement intéressante. La PEPT est un programme d'exercices de remise en charge progressive avec une prise en compte des comportements de peur-évitement du patient, sans l'utilisation de médication antalgique. Cette technique peut être vue comme ciblant la non-utilisation et les comportements de peur-évitement. Il s'agit également d'inciter le patient à être plus actif et à utiliser son membre dans la vie quotidienne, avec notamment des massages et des exercices. L'attention ici est alors portée sur la fonction et non pas sur la douleur. Des essais cliniques ont montré l'absence d'évènements indésirables majeurs avec cette technique.

Parmi les techniques de réentraînement visant le cortex, l'imagerie motrice graduelle (*Graded Motor Imagery* ou *GMI*) a fait l'objet de nombreuses études d'efficacité sur le SDRC. Il s'agit de l'enchaînement d'exercices de reconnaissance de latéralité, de visualisation mentale du membre et de thérapie miroir. Les preuves sont de basse qualité, mais semblent recommander l'utilisation du GMI par rapport à la rééducation traditionnelle⁽³⁵⁾. La thérapie miroir utilisée seule a des résultats positifs sur la douleur et la fonction⁽³⁷⁾. Des preuves de faible qualité suggèrent que le GMI et la thérapie miroir peuvent davantage

réduire la douleur et améliorer la fonction que la physiothérapie classique⁽³⁴⁾.

Les techniques de désensitisation et d'entraînement à la discrimination tactile sont également largement utilisées. De même, les prises en charges de type méditation en pleine conscience, techniques de relaxation, thérapies cognitivo-comportementales, etc. se retrouvent fréquemment⁽³⁸⁾.

A ce jour, parmi les techniques de rééducation, le GMI et la thérapie miroir semblent être les traitements spécifiques de choix. De nombreuses techniques existent mais trop peu de littérature est disponible pour conclure concernant leur efficacité.

Conclusion

Les challenges des critères de Budapest dans le futur

Si les critères de Budapest bénéficient d'un consensus international, ils font toujours l'objet de réflexions afin de les améliorer.

Par exemple, la catégorie CRPS-NOS, correspondant aux patients dont les signes/symptômes ne permettent pas le diagnostic de SDRC avec les critères de Budapest, mais, pour lesquels aucun autre diagnostic n'est satisfaisant, est l'objet d'études. Il s'agira d'identifier si ces patients font partie intégrante du SDRC, et donc de modifier les critères pour les inclure de façon nette, ou bien de déterminer s'ils représentent une catégorie à part.

De même, la distinction entre les types I et II, si elle est spécifiée dans les études cliniques et historiquement justifiée, n'a pas d'intérêt clinique important. En effet, le diagnostic et le traitement sont les mêmes pour les deux. Enfin, les caractéristiques psychométriques (notamment reproductibilité inter-examineurs et spécificité) devront être améliorées.

La standardisation des pratiques n'est pas encore complètement atteinte. Les critères de Budapest sont maintenant largement utilisés dans la littérature et font partie des recommandations internationales. Cependant, leur utilisation dans la pratique courante doit *a priori* être encore améliorée. En 2017, 1/3 des praticiens (kinésithérapeutes, ergothérapeutes et infirmiers spécialisés) participant à une enquête répondaient n'utiliser aucun critère diagnostique et seulement un peu plus de la moitié les critères de Budapest⁽³⁸⁾. Cette étude recommande l'implantation plus large de ces critères pour mieux diagnostiquer et donc mieux traiter les patients.

Les critères de Budapest sont, à l'heure actuelle, le meilleur outil diagnostique disponible pour établir le diagnostic d'un SDRC. Il n'existe pas de test biologique, ni examen d'imagerie, ni de test clinique. L'amélioration des critères et leur validation est un processus continu. Nul doute qu'ils seront modifiés dans le futur, en parallèle avec les avancées dans la compréhension de la physiopathologie du syndrome.

En pratique quotidienne, un diagnostic adéquat et identifié suffisamment tôt représente une meilleure chance de récupération pour le patient. En recherche, l'utilisation de ces critères codifiés est essentielle afin de permettre une uniformisation des pratiques et d'améliorer la qualité des études.

Implications pour la pratique

- La physiopathologie du SDRC reste imparfaitement connue, malgré des avancées notables.
- Le traitement du SDRC reste un véritable challenge, ce qui renforce l'importance d'un diagnostic précoce.
- Le diagnostic du SDRC est clinique et doit se faire en suivant les critères de Budapest.
- Il n'existe pas d'examen complémentaires permettant de confirmer ou infirmer le diagnostic de SDRC.
- Les physiothérapeutes sont en première ligne pour repérer les patients atteints de SDRC.
- La prise en charge en physiothérapie, axée sur la fonction, est recommandée dans le traitement du SDRC.

Contact

Contact: Sessi Acapo, 5 rue Nina Simone, 44000 Nantes
sessi.acapo@gmail.com

Références

- Schott GD. Complex? Regional? Pain? Syndrome? *Practical Neurology*. 2007;7(3):145-57.
- Gierthmühlen J, Binder A, Baron R. Mechanism-based treatment in complex regional pain syndromes. *Nature Reviews Neurology*. 2014;10(9):518-28.
- Grieve S, Jones L, Walsh N, McCabe C. What outcome measures are commonly used for Complex Regional Pain Syndrome clinical trials? A systematic review of the literature. *European Journal of Pain*. 2016;20(3):331-40.
- Pons T, Shipton EA, Williman J, Mulder RT. Potential Risk Factors for the Onset of Complex Regional Pain Syndrome Type 1: A Systematic Literature Review. *Anesthesiology Research and Practice*. 2015;1-15.
- Stanton-Hicks M. Complex regional pain syndrome. *Anesthesiology Clinics of North America*. 2003;21(4):733-44.
- Cockx S, Berquin A. Syndrome douloureux régional complexe : diagnostic et physiopathogénie. *Lett Med Phys Readapt*. 2012;28(2):70-5.
- Bean DJ, Johnson MH, Heiss-Dunlop W, Lee AC, Kydd RR. Do psychological factors influence recovery from complex regional pain syndrome type 1? A prospective study. *PAIN*. 2015;156(11):2310-8.
- Gillespie S, Cowell F, Cheung G, Brown D. Can we reduce the incidence of complex regional pain syndrome type I in distal radius fractures? The Liverpool experience. *Hand Therapy*. 2016;21(4):123-30.
- Lee JW, Lee SK, Choy WS. Complex Regional Pain Syndrome Type 1: Diagnosis and Management. *The Journal of Hand Surgery (Asian-Pacific Volume)*. 2018;23(01):1-10.
- Birklein F, Ajit SK, Goebel A, Perez RSGM, Sommer C. Complex regional pain syndrome — phenotypic characteristics and potential biomarkers. *Nature Reviews Neurology*. 2018;14(5):272-84.
- Harden NR, Bruehl S, Perez RSGM, Birklein F, Marinus J, Maihofner C, et al. Development of a severity score for CRPS: Pain. 2010;151(3):870-6.
- Harden NR, Bruehl S, Perez RSGM, Birklein F, Marinus J, Maihofner C, et al. Validation of proposed diagnostic criteria (the "Budapest Criteria") for Complex Regional Pain Syndrome: Pain. 2010;150(2):268-74.
- Harden RN, Oaklander AL, Burton AW, Perez RS, Richardson K, Swan M, et al. Complex regional pain syndrome: practical diagnostic and treatment guidelines. *Pain Medicine*. 2013;14(2):180-229.
- Gallagher RM. Diagnostic Criteria for CRPS: Balancing the Needs of Clinicians and Investigators. *Pain Medicine*. 2007;8(4):289-92.
- Borchers AT, Gershwin ME. Complex regional pain syndrome: A comprehensive and critical review. *Autoimmunity Reviews*. 2014;13(3):242-65.
- Sudeck P. Über die akute entzündliche Knochenatrophie. *Arch Klin Chir*. 1900;(62):147-56.
- Bonica JJ, Hoffman JF. The Management of Pain with Special Emphasis on the Use of Analgesic Blocks in Diagnosis, Prognosis, and Therapy. 1954;34(5):57-8.
- Todorova J, Dantchev N, Petrova G. Complex regional pain syndrome acceptance and the alternative denominations in the medical literature. *Med Princ Pract*. 2013;22(3):295-300.
- de Sire A, Paoletta M. Complex regional pain syndrome: facts on causes, diagnosis and therapy. *Clinical Cases in Mineral and Bone Metabolism*. 2018;15(2):166-72.
- van de Beek W-JT, Schwartzman RJ, van Nes SI, Delhaas EM, van Hilten JJ. Diagnostic criteria used in studies of reflex sympathetic dystrophy. *Neurology*. 2002;58(4):522-6.
- Merskey H, Bogduk N. Classification of chronic pain: Descriptions of chronic pain syndromes and definitions of pain terms. *Pain, Suppl 3*, 226.; 1986.
- Harden RN, Bruehl S, Galer BS, Saltz S, Bertram M, Backonja M, et al. Complex regional pain syndrome: are the IASP diagnostic criteria valid and sufficiently comprehensive? *Pain*. 1999;83:211-9.
- Harden RN, Bruehl S, Stanton-Hicks M, Wilson PR. Proposed new diagnostic criteria for complex regional pain syndrome. *Pain Medicine*. 2007;8(4):326-31.
- Goebel A, Barker CH, Turner-Stokes L et al. *Complex regional pain syndrome in adults: UK guidelines for diagnosis, referral and management in primary and secondary care*. 2nd ed. London: RCP; 2018
- Henderson J. Updated guidelines on complex regional pain syndrome in adults. *Journal of Plastic, Reconstructive & Aesthetic Surgery*. 2019;72(1):1-3.
- Goebel A, Barker C, Birklein F, Brunner F, Casale R, Eccleston C, et al. Standards for the diagnosis and management of Complex Regional Pain Syndrome: results of a European Pain Federation task force. *European Journal of Pain*. 2019;23:641-51.
- Zyluk A. The Usefulness of Quantitative Evaluation of Three-Phase Scintigraphy in the Diagnosis of Posttraumatic Reflex Sympathetic Dystrophy. *Journal of Hand Surgery*. 1999;24(1):16-21.
- Wertli MM, Brunner F, Steurer J, Held U. Usefulness of bone scintigraphy for the diagnosis of Complex Regional Pain Syndrome 1: A systematic review and Bayesian meta-analysis. *Harhaus L, rédacteur. PLoS ONE*. 2017;12(3).
- Ringer R, Wertli M, Bachmann LM, Buck FM, Brunner F. Concordance of qualitative bone scintigraphy results with presence of clinical complex regional pain syndrome 1: Meta-analysis of test accuracy studies: Qualitative bone scintigraphy results. *European Journal of Pain*. 2012;16(10):1347-56.
- Schurmann M, Zaspel J, Tutic M. Imaging in Early Posttraumatic Complex Regional Pain Syndrome. *Clinical Journal of Pain*. 2007;23(5):9.
- Dommerholt J. Complex regional pain syndrome — 1: history, diagnostic criteria and etiology. *Journal of Bodywork and Movement Therapies*. 2004;8(3):167-77.
- Bruehl S, Harden RN, Galer BS, Saltz S, Backonja M, Stanton-Hicks M. Complex regional pain syndrome: are there distinct subtypes and sequential stages of the syndrome? *Pain*. 2002;95(1):119-124.
- Eberle T, Doganci B, Krämer HH, Geber C, Fecher M, Magerl W, et al. Warm and cold complex regional pain syndromes Differences beyond skin temperature? *Neurology*. 2009;72(6):505-512.
- O'Connell NE, Wand BM, McAuley J, Marston L, Moseley GL. Interventions for treating pain and disability in adults with complex regional pain syndrome. *Cochrane Database Syst Rev*. 2013(4):Cd009416.
- Smart KM, Wand BM, O'Connell NE. Physiotherapy for pain and disability in adults with complex regional pain syndrome (CRPS) types I and II. *Cochrane Database Syst Rev*. 2016;2:Cd010853.
- van de Meent H, Oerlemans M, Bruggeman A, Klomp F, van Dongen R, Oostendorp R, et al. Safety of "pain exposure" physical therapy in patients with complex regional pain syndrome type 1: Pain. 2011;152(6):1431-8.
- Méndez-Rebolledo G, Gatica-Rojas V, Torres-Cueco R, Albornoz-Verdugo M, Guzmán-Muñoz E. Update on the effects of graded motor imagery and mirror therapy on complex regional pain syndrome type 1: A systematic review. *Journal of Back and Musculoskeletal Rehabilitation*. 5 2017;30(3):441-9.
- Miller C, Williams M, Heine P, Williamson E, O'Connell N. Current practice in the rehabilitation of complex regional pain syndrome: a survey of practitioners. *Disability and Rehabilitation*. 2017;1-7.

Annals of Physical and Rehabilitation Medicine

Translation, cross-cultural adaptation and validation of the Bath Complex Regional Pain Syndrome Body Perception Disturbance Scale in French --Manuscript Draft--

Manuscript Number:	REHAB-D-23-00628
Article Type:	Letter to the Editor
Keywords:	Complex Regional Pain Syndrome; body perception disturbances; Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale; neglect-like symptoms; chronic pain
Corresponding Author:	Sessi Acapo, MSc, PhD student Nantes University FRANCE
First Author:	Sessi Acapo, MSc, PhD student
Order of Authors:	Sessi Acapo, MSc, PhD student Julien NIZARD Thomas RULLEAU Nicolas KACKI Sabine CHABALIER Thibault MURA Arnaud DUPEYRON
Suggested Reviewers:	Valéry Legrain Maître de recherche FNRS Professeur, Catholic University of Louvain valery.legrain@uclouvain.be has published several articles on body perception disturbances in CRPS Florian Brunner Head Physician Physical medicine and Rheumatology, Balgrist University Hospital florian.brunner@balgrist.ch Clinician and researcher specialized in CRPS; fluent in French and German Candida McCabe Professor of Clinical Research and Practice, University of Bristol Candy.Mccabe@uwe.ac.uk expert in CRPS; has contributed to the original scale

Editor-in-Chief
Professor Dominic Pérennou, MD, PhD

September, 30th, 2023

Dear Editor-in-chief and Editorial board:

I, as corresponding author on behalf of all the authors, would like to submit the enclosed manuscript entitled **“Translation, cross-cultural adaptation and validation of the French version of the Bath Body Perception Disturbance Scale in Complex Regional Pain Syndrome”** to be considered for publication in your journal the *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine* as a **letter to the editor**.

Complex Regional Pain Syndrome (CRPS) is challenging for clinicians, researchers and of course, patients. Body perception disturbances, also known as “neglect-like syndrome”, are a frequent feature reported by people with Complex Regional Pain Syndrome. They report feeling their affected limb larger than it really is, having hostile feelings towards their limb or a strong desire to amputate it. This rather recent subject is gaining interest among researchers and clinicians and several articles are published every year regarding pathophysiology and treatment. The Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale is a validated Patient Reported Outcome Measure (PROM) which is commonly used in clinical and research settings.

To date, it has been translated and validated in German and Japanese but it has no French version. Therefore, this study aimed to develop a French version of the Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale. According with the COSMIN checklist (Consensus-based Standards for the Selection of Health Status Measurement Instruments), validity and reliability were explored, using Exploratory Factor Analysis. Strengths of the study rare its robust design using the COSMIN checklist and its direct utility in research and clinical practice.

I confirm that this manuscript is original, has not been published before, is not currently being considered for publication elsewhere either whole or in part and that all co-authors have approved the manuscript.

There are no conflicts of interest associated with this publication, and there has been no financial support for this work that could have influenced its outcome. Ethical approval was obtained and participants provided oral consent. Due to regulatory requirements concerning this methodology and local research practice, database registration was not sought after.

The manuscript is composed of a main text (1799 words) and 3 tables and one additional material.

As a French physical therapist and young researcher in musculoskeletal and pain disorders, I am a keen reader of your esteemed journal and I am pleased to be able to submit our work to this particular journal.

We hope you find our manuscript suitable for publication and look forward to hearing from you.

Thank you for your consideration,

Sincerely,

Sessi ACAPO, PT, MSc, PhD student

sessi.acapo@gmail.com

+33623357213

*EA4391 Therapeutic and Nervous Excitability, Universite Paris-Est Creteil Val de Marne, Creteil
University Hospital of Nantes, University of Nantes, Nantes, France*

Translation, cross-cultural adaptation and validation of the French version of the Bath Body Perception Disturbance Scale in Complex Regional Pain Syndrome

Sessi ACAPO^{1,2}, Julien NIZARD^{1,2}, Thomas RULLEAU², Nicolas KACKI³, Sabine CHABALIER⁴, Thibault MURA⁴, Arnaud DUPEYRON^{5,6}

1. EA4391 Therapeutic and Nervous Excitability, Université Paris-Est Creteil Val de Marne, Creteil, France
2. Nantes Université, Nantes University Hospital, UIC 22 Multidisciplinary Pain, Palliative and Supportive Care Department ; Movement - Interactions - Performance, MIP, UR 4334, F-44000 Nantes, France
3. Clinical research unit, Vendée Hospital, La Roche Sur Yon, France
4. Department of Biostatistics, PublicHealth, and Innovation in Methodology (BESPIM), CHU Nîmes, University Montpellier, Nîmes, France
5. *EuroMov Digital Health in Motion, Univ Montpellier, IMT Mines Ales, CHU Nimes, Nimes, France*
6. *Department of Physical Medicine and Rehabilitation, CHU Nimes, Nimes, France*

Correspondance :

Sessi ACAPO, sessi.acapo@gmail.com

5 rue Nina Simone, 44000 Nantes, France

Declaration of interest : none.

Key words: Complex Regional Pain Syndrome, body perception disturbances, Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale, neglect-like symptoms, chronic pain.

Word count: 1799

3 tables

1 additional material

**Translation, cross-cultural adaptation and validation of the French version of the Bath
Body Perception Disturbance Scale in Complex Regional Pain Syndrome**

Sessi ACAPO^{1,2}, Julien NIZARD^{1,2}, Thomas RULLEAU², Nicolas KACKI³, Sabine
CHABALIER⁴, Thibault MURA⁴, Arnaud DUPEYRON^{5,6}

1. EA4391 Therapeutic and Nervous Excitability, Université Paris-Est Creteil Val de Marne, Creteil, France
2. Nantes Université, Nantes University Hospital, UIC 22 Multidisciplinary Pain, Palliative and Supportive Care Department ; Movement - Interactions - Performance, MIP, UR 4334, F-44000 Nantes, France
3. Clinical research unit, Vendée Hospital, La Roche Sur Yon, France
4. Department of Biostatistics, PublicHealth, and Innovation in Methodology (BESPIM), CHU Nîmes, University Montpellier, Nîmes, France
5. *EuroMov Digital Health in Motion, Univ Montpellier, IMT Mines Ales, CHU Nimes, Nimes, France*
6. *Department of Physical Medicine and Rehabilitation, CHU Nimes, Nimes, France*

Correspondance :

Sessi ACAPO, sessi.acapo@gmail.com

5 rue Nina Simone, 44000 Nantes, France

Declaration of interest : none.

Key words: Complex Regional Pain Syndrome, body perception disturbances, Bath CRPS
Body Perception Disturbance Scale, neglect-like symptoms, chronic pain.

Word count: 1799

3 tables

1 additional material

1
2
3
4
5
6
7
8
9
10
11
12
13
14
15
16
17
18
19
20
21
22
23
24
25
26
27
28
29
30
31
32
33
34
35
36
37
38
39
40
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60
61
62
63
64
65

Dear editor,

Patients with Complex Regional Pain Syndrome (CRPS) experience severe and continuous pain, along with a broad spectrum of symptoms such as vasomotor (change or asymmetry in temperature or skin color), sudomotor, trophic, and motor (decreased range of motion, weakness, tremor, dystonia) changes[1]. In addition, a large proportion of patients with CRPS report body perception disturbances (prevalence ranging from 54 to 84% [2–4]) which alter their perception when it comes to the size, the temperature or the position of their affected limb[4,5]. They can also report not feeling the limb as their own, or having strong negative emotions towards it. Body perception disturbances are believed to be more frequent and intense in CRPS compared to other chronic limb pain [6]. They are now recognized as a relevant clinical feature [7].

Different assessment tools exist, such as the Bath CRPS Body Perception Disturbances Scale (B-CRPS-BPDS). The B-CRPS-BPDS is the most used [8], and provides a large assessment of different modalities of perception disturbances. It has shown good internal consistency, good construct validity and positive relationship with pain intensity, fear of movement, depression and upper limb disability [9], suggesting that it is a valid measure. It has been translated and validated in German [10] and Japanese [11] but not in French.

Therefore, the aim of this study was to provide a French version of the Bath BPD Scale, and to assess its validity with French participants with CRPS.

After obtaining the agreement of the original authors and developer of the Bath BPD Scale, we translated the original scale using the translation-back translation method with cross-cultural adaptation's guidelines [12]. The forward translation was independently conducted by two English native speakers fluent in French. A synthesized version was then produced and discussed with an expert committee composed of a pain expert, a rehabilitation expert and a rehabilitation clinician, all with experience in the treatment of CRPS. The version was then back translated independently in English by two bilingual French native speakers. The expert

1 committee and translators examined the back-translations and produced a consensual
2 prefinal version. This version was tested on 3 patients with CRPS who provided insights
3 about the meaning and the clarity of the items and proposed changes. Th expert committee
4 and test with 3 other patients with CRPS provided the final version (see additional material).
5
6 It was then submitted to the developer of the scale and received approval.
7
8
9

10
11 Measurement properties of the final version of the Bath BPD Scale in French were
12 evaluated, according to the COSMIN checklist (Consensus-based Standards for the
13 Selection of Health Status Measurement Instruments) [13]. Criterion validity was assessed
14 through a correlation analysis (Spearman rank correlation) between B-CRPS-BPDS-F, pain
15 intensity, severity score and domains of PROMIS 29. A correlation was considered excellent
16 (≥ 0.9), good ($\geq 0.7 - < 0.9$), moderate ($\geq 0.5 - < 0.7$), poor ($> 0.3 - < 0.5$) or negligible (\leq
17 0.3) [14].
18
19
20
21
22
23
24
25
26

27
28 Structural validity was assessed using Exploratory Factor Analysis (EFA was performed to
29 extract common latent factors in the items by principal component analysis). Internal
30 consistency was assessed using Cronbach's α coefficient (a value between 0.7 and 0.9 was
31 considered good). Per item, we computed the item-total correlations using Spearman rank
32 correlation, for which values of ≥ 0.30 are recommended.
33
34
35
36
37
38
39

40 Test-retest reliability between the first and second assessments was determined by
41 calculating intra-class correlation (ICC, 95% confidence interval) and was interpreted as
42 excellent (≥ 0.9), acceptable (≥ 0.8) or weak (≥ 0.6). The Smallest Detectable Change (SDC)
43 which is the smallest observable change that cannot be attributed to measurement error
44 when assessing a patient, was calculated using the formula $SDC = SEM \times 1.96 \times \sqrt{2}$ (where
45 the Standard Error of Measurement $SEM = SD \times \sqrt{1 - ICC}$) [15].
46
47
48
49
50
51
52
53

54 Demographic characteristics of the participants were described using mean with standard
55 deviation (SD) or median with quartile Q1; Q3 according with data distribution for quantitative
56 variables and number and proportion for qualitative variables.
57
58
59
60
61
62
63
64
65

1 All statistical analyses were performed using the statistical software SAS version 9.4 (SAS
2 Institute, Cary, NC, USA).
3

4
5 The participants were adults with CRPS diagnosed with the Budapest criteria, recruited from
6
7 specialized multidisciplinary pain centers. Participants with severe psychiatric disorders or
8
9 unable to read or speak French were excluded. Information about the research was provided
10
11 and participants gave oral consent before data collection. Data were collected during routine
12
13 examination by experienced healthcare professionals. One week after, participants were
14
15 contacted to complete the Bath BPD Scale-F a second time.
16
17

18
19 **Body perception disturbances** were evaluated using the French version of the B-CRPS-
20
21 BPDS (B-CRPS-BPDS-F). The scale is composed of 7 items exploring different aspects of
22
23 self-perception toward the affected limb (sense of ownership, limb position awareness,
24
25 attention paid to the limb, emotional feelings towards the limb and desire to amputate, on a
26
27 0-10 scale) and the subjective perception of changes in size, weight, pressure and
28
29 temperature (presence or absence of perception difference) [16]. The final item is a drawing
30
31 of the mental image of the patient's limbs (affected and non-affected). Eyes closed, the
32
33 participant describes the image and the assessor draws it. Verbal descriptions were added to
34
35 the side, and participants were asked to confirm the accuracy of the drawing. It is graded on
36
37 a 3-point scale from "no distortion", "distortion" (changes in size, shape, color) to "severe
38
39 distortion" (missing segments or limb). The maximum score is 57, representing a greater
40
41 body perception disturbance [17].
42
43
44
45

46
47 **Pain** was assessed with pain intensity (mean pain, pain at rest, pain in movement during the
48
49 last 7 days) and pain interference (item in PROMIS 29) using the Numeric Pain Rating Scale.
50

51 **Quality of life** was assessed with PROMIS 29, a generic standardized questionnaire
52
53 measuring self-reported health status in seven domains (depression, anxiety, physical
54
55 function, pain interference and pain intensity, fatigue, sleep disturbance and ability to
56
57 participate in social roles and activities). **CRPS Severity** was assessed with CRPS Severity
58
59 Score [18].
60
61
62
63
64
65

1
2
3 In total, forty-two participants were assessed between August 2022 and March 2023. Among
4 them, 5 did not meet the Budapest criteria at the time of the assessment, and 5 did not
5 complete the questionnaires. In total, 32 participants were included in the study, of which 21
6 completed the B-CRPS-BPDS-F a second time. Demographics and CRPS-related
7 characteristics are presented in **Table 1**.
8
9

10
11
12 Regarding validity, no floor or ceiling effects were observed for the total score.
13
14

15
16
17 **Table 2** shows correlations between B-CRPS-BPDS-F and clinical outcomes. B-CRPS-
18 BPDS-F was significantly correlated with average pain at rest (Spearman's rho (r) =0.34),
19 PROMIS 29 total score (r =0.40) and anxiety/depression dimensions of PROMIS 29 (r =0.35).
20
21
22 EFA results indicated that there were 2 factors with an eigenvalue >1 (factor 1 = 2.09; factor
23 2 = 1.03) which explain respectively 63 % and 31% of the total variance of the score (table
24 2). We can observe that all items have moderate to large positive loading on factor 1, except
25 for item 3 and 7. Item 7, 5 and 4 have positive loading on factor 2, item 3 have negative
26 loading on this factor (table 3).
27
28
29
30
31
32
33
34
35
36
37
38
39

40 Regarding reliability, the internal consistency for the B-CRPS-BPDS-F is questionable
41 (Cronbach's α = 0.65). Item 3 showed the lowest item-total correlation (0.04) and item 7 was
42 also below 0.30 (0.14). After removing item 3, Cronbach's α = 0.70, indicating adequate
43 internal consistency.
44
45
46
47
48

49 21 participants completed the B-CRPS-BPDS-F a second time (mean = 19.86(10.51)). The
50 test-retest validity was found to be acceptable (ICC = 0.92 [0.81;0.96]), with a low bias
51 between the two tests (-0.42, [SD=3.89]. The 95% limits of agreement for the second
52 measurement were 7.20; -8.04. The overall SDC was 6.85 (SEM = 2.47). See table 2 for a
53 summary of the measurement properties.
54
55
56
57
58
59
60
61
62
63
64
65

1
2
3 Our results showed that the B-CRPS-BPDS-F internal consistency (Cronbach's $\alpha = 0.65$) is
4 similar to that reported by the original authors (i.e. 0.66) which they considered as adequate
5 [17]. Cronbach's α after excluding item 3 on attention improve (Cronbach's $\alpha = 0.70$;
6
7 acceptable), which is consistent with results reported by Ten Brink et al [9]. They proposed a
8
9 revised version excluding this item, which they found was not sufficiently specific compared
10
11 to a pain-free control group. This study supports their proposition of a revised version of the
12
13 Bath BPD Scale.
14
15
16
17

18
19 The drawing (Item 7) also showed a low internal consistency. In our experience, this item
20
21 may be difficult to apprehend for non-experienced clinicians who expressed difficulties during
22
23 patient's guidance, and for patients who had not practiced imagined movement previously.
24
25 However, the drawing provided a qualitative and thorough description, as well as the
26
27 possibility for patients to explore their perception with more detail. Scoring might be too
28
29 limited (0-2) to reflect the heterogeneity of the experiences as this item provides other useful
30
31 information which is not scored here. Overall, this evaluation seems to represent a significant
32
33 part of the construct body perception. Item 4 on emotional feelings proved to be difficult to
34
35 translate, as emotions and feelings refer to different concepts in French. During the
36
37 translation process, people with CRPS expressed that they can have strong feelings about
38
39 their affected limb, but had difficulties expressing them as positive or negative. Scoring of this
40
41 item may benefit from further clarification.
42
43
44
45

46
47 Exploratory Factor Analysis described a multidimensional scale, with 2 main factors. This
48
49 may reflect the fact that the construct body perception itself comprehends a "constellation of
50
51 symptoms" [19] and several aspects of perception [17]. Galer et al. separated cognitive and
52
53 motor neglect in their neuro-behavioral questionnaire while Lewis et al. indicate several
54
55 "components" [20]. Factor 2 include Item 7 along with Item 4 on emotional feelings and item
56
57 5 describing perceptual differences. This association illustrates the complementary nature of
58
59
60
61
62
63
64
65

1
2
3
4
5
6
7
8
9
10
11
12
13
14
15
16
17
18
19
20
21
22
23
24
25
26
27
28
29
30
31
32
33
34
35
36
37
38
39
40
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60
61
62
63
64
65

the two items. Here also, the item on attention has a negative or poorly loading on factor 2 and factor 1.

This is the first time such an analysis is conducted. It will benefit from confirmatory factor analysis.

This study has limitations. Sample size was small. Compared with the other studies, ours included more participants in an acute phase and had more lower limb CRPS. We did not perform construct validity with the neurobehavioral questionnaire by Galer [3], as it is not available in French. Participants were not asked if they were familiar with motor imagery tasks, nor were their motor imagery abilities and performance evaluated. We believe it may influence their ability to produce a mental image and describe it with detail in a limited amount of time.

In conclusion, assessing body perception disturbances in clinical and research setting is important to unravel the relationship between body perception disturbances, pain and CRPS symptoms onset and maintenance. The B-CRPS-BPDS offers extensive information on body perception disturbances, qualitative and quantitative. This study provides a validated French version of the Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale. It showed good test-retest reliability, no floor or ceiling effect, poor correlations with pain at rest and quality of life and, excluding Item 3, it showed adequate internal consistency.

Disclosures and Acknowledgments

Ethical approval was obtained from the local ethic committee (Groupe Nantais d’Ethique dans le Domaine de la Santé (GNEDS)-). All participants provided oral consent.

1
2 The authors would like to acknowledge all health professionals and participants who were
3 involved in this project as long as the research team, especially Jean-Benoit Hardouin,
4 University of Nantes, for his help conceiving the statistical analysis and Hospital of Vendée.
5
6

7 This work received funding support from Société Française de Physiotherapy (SFP).
8
9

10 The authors declare no conflicts of interest.
11
12

13 Data will available on request.
14
15
16
17
18

19 References 20

- 21
22 [1] Harden RN, Oaklander AL, Burton AW, Perez RS, Richardson K, Swan M, et al.
23
24 Complex regional pain syndrome: practical diagnostic and treatment guidelines. *Pain*
25
26 *Medicine* 2013;14:180–229.
27
28 [2] Forderreuther S, Sailer U, Straube A. Impaired self-perception of the hand in complex
29
30 regional pain syndrome (CRPS). *Pain* 2004;110:756–61.
31
32 <https://doi.org/10.1016/j.pain.2004.05.019>.
33
34 [3] Galer BS, Jensen M. Neglect-like symptoms in complex regional pain syndrome: results
35
36 of a self-administered survey. *Journal of Pain and Symptom Management* 1999;18:213–
37
38 7. [https://doi.org/10.1016/S0885-3924\(99\)00076-7](https://doi.org/10.1016/S0885-3924(99)00076-7).
39
40 [4] Lewis, Kersten P, McCabe CS, McPherson KM, Blake DR. Body perception
41
42 disturbance: A contribution to pain in complex regional pain syndrome (CRPS): *Pain*
43
44 2007;133:111–9. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2007.03.013>.
45
46 [5] Moseley GL. Distorted body image in complex regional pain syndrome. *Neurology*
47
48 2005;65:773. <https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000174515.07205.11>.
49
50 [6] Frettlöh J, Hüppe M, Maier C. Severity and specificity of neglect-like symptoms in
51
52 patients with complex regional pain syndrome (CRPS) compared to chronic limb pain of
53
54 other origins: *Pain* 2006;124:184–9. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2006.04.010>.
55
56
57
58
59
60
61
62
63
64
65

- 1
2
3
4
5
6
7
8
9
10
11
12
13
14
15
16
17
18
19
20
21
22
23
24
25
26
27
28
29
30
31
32
33
34
35
36
37
38
39
40
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60
61
62
63
64
65
- [7] Goebel A, Barker C, Birklein F, Brunner F, Casale R, Eccleston C, et al. Standards for the diagnosis and management of Complex Regional Pain Syndrome: results of a European Pain Federation task force. *European Journal of Pain* 2019;23:641–51. <https://doi.org/10.1002/ejp.1362>.
- [8] Acapo S, Osinski T, Rulleau T, Dupeyron A, Nizard J. Assessment of body perception disturbances in complex regional pain syndrome: A systematic review using the COSMIN guideline. *European Journal of Pain* 2022:ejp.2032. <https://doi.org/10.1002/ejp.2032>.
- [9] Ten Brink AF, Halicka M, Vittersø AD, Jones HG, Stanton TR, Bultitude JH. Validation of the Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale. *The Journal of Pain* 2021:S1526590021002157. <https://doi.org/10.1016/j.jpain.2021.04.007>.
- [10] Tschopp M, Swanenburg J, Wertli MW, Langenfeld A, McCabe CS, Lewis J, et al. Die deutsche Version der Bath Body Perception Disturbance Scale (BBPDS-D): Übersetzung, kulturelle Anpassung und linguistische Validierung an Patienten mit komplexem regionalem Schmerzsyndrom. *Schmerz* 2018;32:195–200. <https://doi.org/10.1007/s00482-018-0294-6>.
- [11] Mibu A, Nishigami T, Uematsu H, Tanaka K, Shibata M, Matsuda Y, et al. Validation of the Japanese version of the Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale for CRPS. *J Anesth* 2020. <https://doi.org/10.1007/s00540-020-02853-0>.
- [12] Beaton DE, Bombardier C, Guillemin F, Ferraz MB. Guidelines for the process of cross-cultural adaptation of self-report measures. *Spine* 2000;25:3186–91.
- [13] Mokkink LB, Terwee CB, Knol DL, Stratford PW, Alonso J, Patrick DL, et al. The COSMIN checklist for evaluating the methodological quality of studies on measurement properties: A clarification of its content. *BMC Medical Research Methodology* 2010;10:22. <https://doi.org/10.1186/1471-2288-10-22>.
- [14] Hinkle DE, Wiersma W, Jurs S. *Applied statistics for the behavioral sciences* 5th ed. Boston: Houghton Mifflin; 2003.

- 1
2
3
4
5
6
7
8
9
10
11
12
13
14
15
16
17
18
19
20
21
22
23
24
25
26
27
28
29
30
31
32
33
34
35
36
37
38
39
40
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60
61
62
63
64
65
- [15] Harvill LM. Standard Error of Measurement. *Educational Measurement: Issues and Practice* 1991;10:33–41. <https://doi.org/10.1111/j.1745-3992.1991.tb00195.x>.
- [16] Lewis, McCabe CS. Body perception disturbance (BPD) in CRPS. *Practical Pain Management* 2010;10:60–6.
- [17] Lewis, Schweinhardt P. Perceptions of the painful body: The relationship between body perception disturbance, pain and tactile discrimination in complex regional pain syndrome: Perceptions of the painful body in complex regional pain syndrome. *European Journal of Pain* 2012;16:1320–30. <https://doi.org/10.1002/j.1532-2149.2012.00120.x>.
- [18] Harden RN, Maihofner C, Abousaad E, Vatine J-J, Kirsling A, Perez RSGM, et al. A prospective, multisite, international validation of the Complex Regional Pain Syndrome Severity Score: *PAIN* 2017;158:1430–6. <https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000000927>.
- [19] Haggard P, Iannetti GD, Longo MR. Spatial Sensory Organization and Body Representation in Pain Perception. *Current Biology* 2013;23:R164–76. <https://doi.org/10.1016/j.cub.2013.01.047>.
- [20] Lewis, Kersten P, McPherson KM, Taylor GJ, Harris N, McCabe CS, et al. Wherever is my arm? Impaired upper limb position accuracy in Complex Regional Pain Syndrome: *Pain* 2010;149:463–9. <https://doi.org/10.1016/j.pain.2010.02.007>.

Table 1. Demographics and clinical characteristics of patients

	n=32
Age (years; mean; SD)	46.09 (14.72)
Gender (female; n; %)	25 (78.1%)
Duration of symptoms (years; median [Q1; Q3])	0.96 [0.63;1.96]
Affected side (right; n; %)	19 (59.4%)
Affected limb (upper; n; %)	14 (43.8%)
CRPS severity score (mean; SD)	9.13 (2.74)
Body Perception Disturbances (B-CRPS-BPDS-F) (median; [Q1; Q3])	16 [14;24.5]
Pain (mean intensity week) (mean; SD)	6.25 (1.72)
Pain movement (mean; SD)	6.91 (1.51)
Pain rest (mean; SD)	5.28 (2.41)
Promis 29 (total) (mean; SD)	83.56 (10.05)

Table 2 : Summary of psychometric properties of the Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale - French

Properties	Values
Validity	
No floor or ceiling effect	
Criterion validity (Spearman's correlation) [IC95%]	0.34 [0.05;0.56]
Correlation with pain at rest	0.40 [0.12;0.62]
Correlation with PROMIS 29 total score	0.35 [0.06;0.59]
Correlation with anxiety (PROMIS 29)	0.35 [0.06;0.58]
Correlation with depression (PROMIS 29)	
Structural validity (Exploratory Factor Analysis)	
Factor 1 (Eigenvalues ; variance)	2.09; 63%
Factor 2 (Eigenvalues ; variance)	1.03; 31%
Reliability	
Internal consistency (Cronbach's α) total score	0.65
Internal consistency (Cronbach's α) without item 3*	0.70
Test-retest reliability	
Intra-class Correlation (ICC; CI 95%)	0.92 [0.81;0.96]
Smallest Detectable Change (SDC)	6.85

* A Cronbach's alpha without item 3 was estimated because of its very low correlation with the overall score.

Table 3. Pattern factor loadings for Exploratory Factor Analysis

	Factor 1	Factor 2
1. Detachment	0.44	0.27
2. Awareness	0.42	0.17
3. Attention	0.14	-0.45
4. Emotional Feelings	0.48	0.48
5. Size/temperature/pressure/weight	0.44	0.55
6a. Amputation	0.80	-0.32
6b. Amputation degree	0.78	-0.29
7. Mental image	0.17	0.55



Click here to access/download
Additional material
renamed_8892d.docx

L'échelle Bath de perturbation de la perception corporelle
chez le patient atteint de SDRC

1) Sur une échelle de 0 à 10, dans quelle mesure ressentez-vous votre membre affecté comme faisant partie intégrante de votre corps ?

partie intégrante = 0 1 2 3 4 5 6 7 8 9 10 = complètement étrangère

2) Sur une échelle de 0 à 10, dans quelle mesure êtes-vous conscient(e) de la position physique de votre membre ?

complètement conscient(e) = 0 1 2 3 4 5 6 7 8 9 10 = pas du tout conscient(e)

3) Sur une échelle de 0 à 10, quelle attention accordez-vous à votre membre : Le regardez-vous et y pensez-vous souvent ?

attention permanente = 0 1 2 3 4 5 6 7 8 9 10 = aucune attention

4) Sur une échelle de 0 à 10, quelle est la force des émotions ressenties à l'égard de votre membre ?

très positifs = 0 1 2 3 4 5 6 7 8 9 10 = très négatifs

5) Y a-t-il une différence entre l'aspect visuel ou la sensation au toucher de votre membre affecté et ce que vous ressentez concernant les points suivants :

Taille	oui non	commentez
Température	oui non	commentez
Pression	oui non	commentez
Poids	oui non	commentez

6a) Avez-vous déjà eu envie de faire amputer votre membre ? oui non

6b) Si oui, quelle est la force de cette envie maintenant ?

Aucune = 0 1 2 3 4 5 6 7 8 9 10 = extrêmement forte

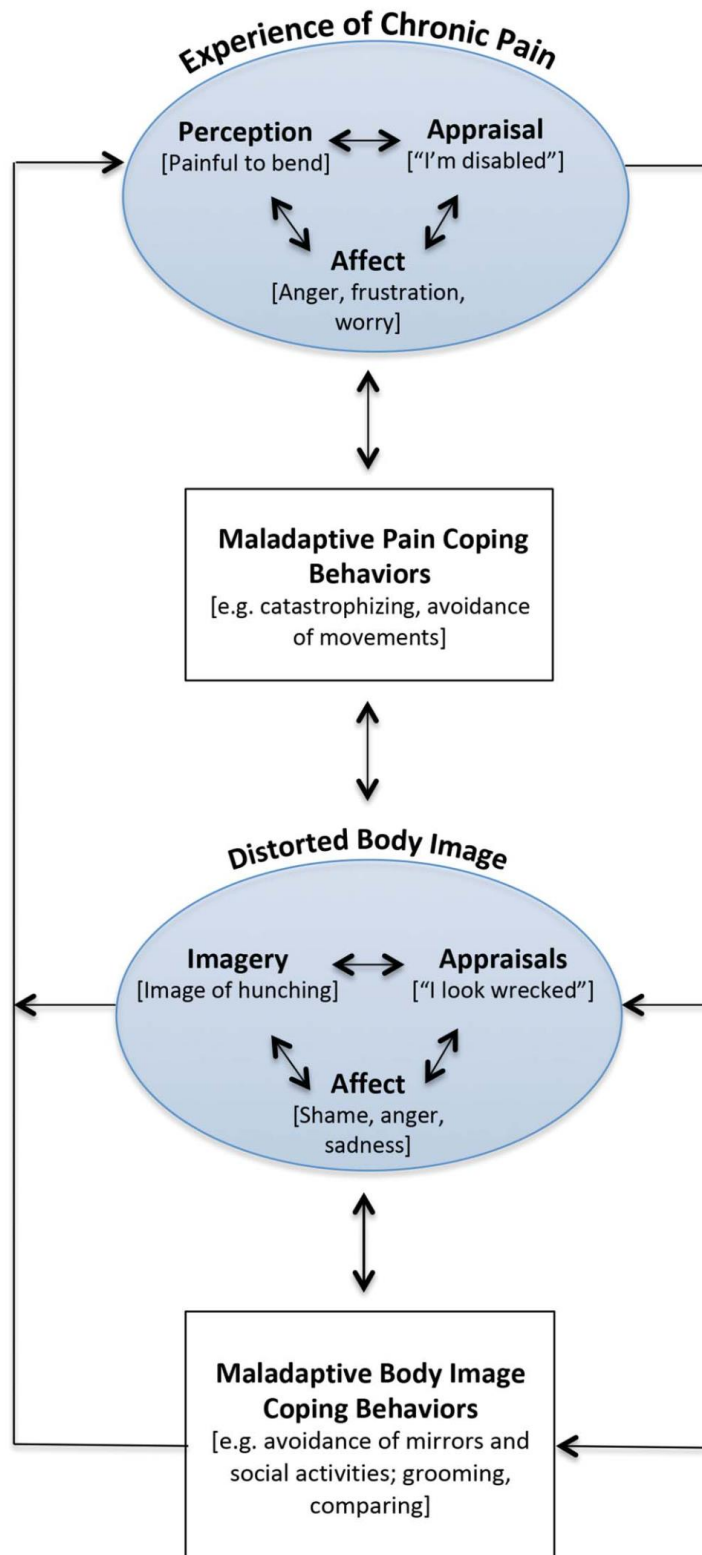
7) Les yeux fermés, décrivez une image mentale des parties de votre corps, affectées et non affectées (dessin réalisé par l'évaluateur lors de la description du patient puis vérifié par le patient).

Ceci est une représentation précise de l'image que j'ai de la partie affectée de mon corps.

Annexe 6 : modèle cognitivo-comportemental de l’image du corps et de la douleur chronique

Sündermann, O., Flink, I., & Linton, S. J. (2020). My body is not working right: A cognitive behavioral model of body image and chronic pain. *PAIN*, 161(6), 1136.

<https://doi.org/10.1097/j.pain.0000000000001822>



PHRIP-23-0070

Porteur de projet / Project holder : Mme Sessi ACAPO

Porteur de projet / Project holder Profession :

Ville / City :

Nantes

Site hospitalier d'exercice français - Détails / Current French Health center - Details :

CHU DE NANTES

0 Résumé public du projet/Public abstract

0.0 . [Résumé public] /[Public abstract] :

0.1 . Résumé en français - Recommandation : 2000car / structuré comme suit : contexte, objectifs, méthodes, perspectives./0.1 Abstract in French :

Contexte : Les patients atteints de Syndrome Dououreux Régional Complexe (SDRC) souffrent de douleurs intenses, disproportionnées et de symptômes comme des changements ou asymétrie de couleur ou de température. Les patients rapportent des perceptions perturbées de leur membre comme une sensation de déformation ou de non-appartenance du membre atteint. L'ensemble de ces symptômes ont un retentissement important sur la qualité de vie. La prise en charge thérapeutique du SDRC est difficile pour les formes longues (environ 25% des patients) et les options sont limitées. Parmi elles, les traitements orientés vers la réorganisation corticale comme l'Imagerie Motrice Graduelle (IMG) ont montré des preuves d'efficacité sur la douleur et la fonction. Cependant, les preuves sont limitées et émergentes concernant les troubles de la perception du corps. Objectifs : évaluer les effets de l'Imagerie Motrice Graduelle sur les troubles de la perception du corps chez des patients atteints de SDRC au membre supérieur. Méthodes : étude contrôlée randomisée Groupe intervention : exercices thérapeutiques + IMG pendant 6 semaines (imagerie motrice implicite, imagerie motrice explicite puis thérapie miroir) Groupe contrôle : exercices thérapeutiques Critères d'évaluation : troubles de la perception du corps (échelle de Bath), douleur (Echelle Numérique), qualité de vie (EuroQol), catastrophisme (PCS), score de sévérité du SDRC, impression globale de changement du patient et consommation médicamenteuse. Intervention réalisée en cabinet de ville par des kinésithérapeutes libéraux ; évaluateur aveugle. Un volet qualitatif explorera les expériences et ressentis des patients vis-à-vis des troubles de la perception du corps. Perspectives : Améliorer les propositions thérapeutiques pour la prise en soin en ville du SDRC ; améliorer la reconnaissance et le traitement des troubles de la perception du corps

0.2 . Résumé en anglais (max. 2000 caractères)./0.1 Abstract in English (Writing instructions 2000 char and should be structured as follows: context, objectives, methods, perspectives.) :

Background Patients with Complex Regional Pain Syndrom (CRPS) suffer from intense, disproportionate pain and symptoms such as changes in color or temperature. Patients report disturbed perceptions of their limb, such as a feeling of deformity or of not belonging to the affected limb. These symptoms have a significant impact on quality of life. Treatment of CRPS is difficult for long-standing forms (around 25% of patients), and options are limited. Among them, treatments geared towards cortical reorganization such as Gradual Motor Imaging have shown evidence of efficacy on pain and function. However, evidence is limited and emerging for body perception disorders. Aims: to evaluate the effects of Gradual Motor Imaging on body perception disorders in patients with upper limb CRPS. Methods: Randomized controlled trial. Intervention group: therapeutic exercises + GMI for 6 weeks (implicit motor imagery, explicit motor imagery, and mirror therapy). Control group: therapeutic exercises Evaluation criteria: disturbances in body perception (Bath scale), pain (Simple Numerical Scale), quality of life (EuroQol), catastrophism (PCS), CRPS severity score, Patient Global Impression of Change (PGIC) and drug use. Intervention is carried out in private practice by physiotherapists; evaluators are blinded. A qualitative component will explore patients' experiences and feelings about body perception disturbances. Perspectives Improve therapeutic proposals for the care of CRPS in private practice settings; improve recognition and treatment of body perception disturbances

0.3 . Ces résumés seront utilisés durant le processus d'évaluation à destination des évaluateurs./These summaries will be used during the evaluation process for the experts. :

0.4 . En cas de sélection pour financement ils pourront être diffusés par la DGOS à des fins de communication et de promotion./Then they may be also published in case of selection for funding for communication and promotional purpose :

1 Porteur de projet/Project coordinator

1.1.1 . Civilité/Civility :

Mme

1.1.2 . Nom/Last Name :

ACAPO

1.1.3 . Prénom/First name :

Sessi

1.1.4 . Ville/City :

Nantes

1.1.5 . Courriel/Email :

sessi.acapo@gmail.com

1.2.1 . Profession du porteur de projet/Profession :

Autre

1.2.2 . Si 'Autre' préciser laquelle/If 'other', please specify which one :

Kinesitherapeute

1.2.3 . Domaine/Domain :

Médecine physique et réadaptation

1.2.4 . Spécialité/Speciality :

Algologie - douleur chronique - rééducation

1.3.1 . Financements antérieurs obtenus par le porteur de projet dans le cadre des appels à projet de la DGOS (PHRC national, régionaux, inter régionaux, PRT, PRT K, PRC, STIC, PREQHOS, PREPS, PHRI, PRME, ReSP-IR!, Rech-MIE, Messidore...) :/Previous funding obtained by the project leader for institutional projects :

Non

1.3.2 . Si oui, préciser/If yes, please specify (year of submission, type of call for proposals, coordinator, number, progress: in instruction, implemented, in progress, analysis phase, original publication, terminated) :

2 Structures/Organizations

2.1 . Etablissement de santé ou GCS coordonnateur gestionnaire des fonds/Affiliated institution responsible for the budget from the ministry of health :

CHU DE NANTES / 44093 / NANTES / 7 ALLEE DE L'ILE GLORINETTE

2.2 . Nom du correspondant gestionnaire financier/Financial manager :

[CHU Nantes-GesFin] Sandrine Renaud

2.3 . Structure responsable de la gestion de projet/Organization responsible for project management :

CHU de Nantes

2.4 . Structure responsable de l'assurance qualité /Organization responsible for quality insurance :

CHU de Nantes

2.5 . Structure responsable de la gestion de données et des statistiques/Organization responsible for data management and statistics :

CHU de Nantes

2.6 . Nombre prévisionnel de centres d'inclusion (NC)/Planned number of recruiting centres (NC) :

19

3 Projet de recherche/Research project

3.01.1 . Titre du projet FR/Project title FR :

Projet Bath-MiN "Effet de l'imagerie motrice graduelle sur les troubles de la perception du corps dans le Syndrome Douloureux Régional Complexe (SDRC) : étude randomisée contrôlée

3.01.2 . Titre du projet UK/Project title EN :

Effect of graded motor imagery on body perception disturbances in Complex Regional Pain Syndrome (CRPS): A randomized controlled trial

3.01.3 . Acronyme (sans espace)/Acronym (w/o space) :

Bath-MiN

3.02.1 . Première soumission de ce projet à un appel à projet DGOS/First submission to DGOS calls for proposals :

Oui

3.02.2 . Si non, préciser (année, programme (et GIRCI concerné si PHRC-I ou Respir!), numéro, Acronyme, Porteur, et si non retenu au stade de la lettre d'intention ou du dossier complet)/If non, please specify (edition, program (and GIRCI if PHRC-I or Respir!), number, Acronym, coordinator) :

3.02.3 . Les modalités de soumission des lettres d'intention sont homogènes et permettent, le cas échéant, un reclassement des lettres d'intention d'un appel à projets à l'autre, sans perte de temps pour les équipes candidates. Acceptez-vous un éventuel reclassement par les jurys ? /The methods of submitting letters of intent are uniform and, if necessary, which allows a transfer towards another call for proposals , without time loss for the applicants. Would you be willing to a possible transfer by the juries? :

Oui

3.03 . Domaine du projet de recherche/Field of study :

3.03.1 . Le projet concerne-t-il le domaine de l'oncologie ?/Does the project concern the field of oncology? :

Non

3.03.2.1 . Le projet concerne-t-il une maladie rare ?/Does the project concern a rare disease ? :

Oui

3.03.2.2 . Si oui, préciser son code ORPHA/If yes, please specify the ORPHA number :

83452

3.03.2.3 . et le nom de la maladie rare/If yes, specify the rare disease name :

Syndrome Dououreux Régional Complexe

3.03.3 . Discipline principale/Main :

Médecine physique et réadaptation

3.03.4 . Discipline secondaire/Secondary :

Rhumatologie

3.03.5 . Discipline libre/Other :

Kinésithérapie

3.03.6 . Mots clés libres/Free keywords :

Imagerie motrice graduelle, syndrome douloureux régional complexe, kinésithérapie, douleur, thérapie miroir

3.04.1 . Priorité(s) thématique(s)/Thematic priority(ies) :

Autre

3.04.2 . Plan de santé publique/Public health plan :

PNMR : PN Maladies Rares.

3.05 . Ages concernés de la population cible/Ages of studied population :

Adulte et gériatrie

3.06 . Chirurgie/Surgery :

Non

3.07 . Rationnel (contexte et hypothèses)/Rational (context and hypothesis) :

Le Syndrome Dououreux Régional Complexe (SDRC) est une pathologie rare mais hautement invalidante (26/100 000 patients par an en Europe)(1). Elle touche généralement l'extrémité d'un membre et survient après un traumatisme. Environ 25% des personnes atteintes vont développer des symptômes chroniques, avec une qualité de vie fortement dégradée(1). Le SDRC est caractérisé par un ensemble de symptômes : douleur intense et disproportionnée, changements de couleur et température, troubles de la sensibilité et de la perception du corps, désormais reconnus comme typiques¹. Les troubles de la perception du corps, rapportés par 84% des patients, comprennent des sensations d'étrangeté, de non-appartenance du membre, des perceptions de taille ou de forme différentes ou des émotions négatives, allant jusqu'à l'envie d'amputation(2,3). Ces troubles ont été corrélés positivement avec l'intensité de la douleur, l'anxiété, la dépression, la qualité de vie et la durée des symptômes(2). La prise en charge thérapeutique du SDRC est difficile. Les professionnels de santé sont confrontés à un manque d'options et d'efficacité dans les propositions thérapeutiques. Les recommandations placent la rééducation comme un élément central de la prise en soin(1). Parmi les modalités de rééducation, celles visant les changements de représentation corticale du membre comme l'Imagerie Motrice Graduelle (imagerie motrice implicite, explicite et thérapie miroir) semblent être utiles sur la douleur et la fonction, avec cependant des preuves de faible qualité(4). Les kinésithérapeutes sont depuis quelques années de plus en plus formés à ces thérapies et les utilisent au sein de leurs cabinets, sans pour autant examiner et traiter spécifiquement les troubles de la perception du corps. Bien que les hypothèses physiopathologiques et les avis d'experts supportent l'utilisation de ces techniques et leur intérêt dans le traitement des troubles de la perception du corps, les preuves d'efficacité manquent pour soutenir la pratique. Notre hypothèse est que l'Imagerie Motrice Graduelle (IMG) améliorera les troubles de la perception du corps, la douleur et la fonction chez les patients atteints de SDRC

3.08 . Originalité et caractère Innovant/Originality and innovative aspects :

Récemment, plusieurs équipes ont étudié l'effet de thérapies visant la réorganisation corticale, comme la thérapie miroir(5) ou la réalité virtuelle(3) sur les troubles de la perception du corps. Les méthodes montrent l'originalité de la

question : des études de cas uniques, une étude non contrôlée et un essai clinique randomisé (évaluateur non aveugle)(3,5). Les résultats positifs sont prometteurs permettent de poursuivre en ce sens. Ces études supportent le lien entre ces troubles et l'implication de processus centraux. L'originalité de cet essai est d'abord de s'inscrire dans un projet plus complet. La première étape a consisté à traduire et valider une échelle de la perception du corps en français (Acapo et al, In Submission). L'innovation de cette seconde étape est d'évaluer l'effet d'une thérapie avec un design robuste dans le contexte français afin de consolider les recommandations aux médecins, kinésithérapeutes pour le bénéfice des patients, tout en questionnant les professionnels sur les troubles de la perception du corps, encore peu examinés en pratique courante en France.

3.09 . Description des bénéfices attendus pour les patients et/ou pour la santé publique/Expected benefit for patients or public health :

Pour le patient, cette étude permettra d'améliorer la reconnaissance et la prise en soins de ces symptômes dans le traitement du SDRC par leur évaluation grâce à une échelle traduite et validée et leur exploration qualitative. Pour les soignants, l'IMG est une réponse thérapeutique plausible pour cette pathologie difficile. L'IMG est une modalité de traitement peu coûteuse, simple à mettre en place et pouvant faire partie d'exercices d'auto-rééducation. Les patients peuvent y avoir accès facilement dans leur parcours de rééducation et être acteurs de leur traitement. Pour la collectivité, les propositions thérapeutiques de traitement face au SDRC sont limitées et manquent d'efficacité. Les arrêts de travail sont de longue durée et peu de patients retournent au travail sans aménagements. Les troubles de la perception du corps, bien que courants, ne sont pas encore évalués en pratique courante. Les patients semblent peu parler de façon spontanée de ces symptômes qu'ils ressentent comme « bizarres », par peur d'être mal compris ou stigmatisés. Cette étude permettra donc une meilleure prise en compte de ces éléments. Cette étude permettra d'évaluer l'IMG dans un contexte de soin primaire afin d'améliorer la stratégie de prise en soin de cette pathologie ainsi que le traitement

3.10 . Objet de la recherche/Focus of research :

3.10.1 . Technologie de santé/Health technology :

Autre (Autre produit de santé, autre acte, etc).

3.10.2 . Préciser lequel ou lesquels/please specify which one(s) :

Acte professionnel thérapeutique en kinésithérapie

3.10.3 . Dispositif médical : le cas échéant, date de marquage CE (JJ/MM/AAAA)/Date of CE marking :

3.10.4 . Médicament : le cas échéant, date d'AMM (JJ/MM/AAAA)/Date of market authorization :

3.10.5 . RIHN : le cas échéant, code acte et libellé/RIHN (uncovered innovative procedures list) : number and name :

3.11 . Phase ou équivalent pour les dispositifs médicaux/Phase or equivalent for medical devices :

Non Applicable (Justifier/ Justify)

3.11.1 . Si Non applicable, justifier votre choix/If Not applicable, justify your choice :

3.12 . TRL : Niveau de maturité de la technologie de santé /Technology readiness level :

7B

3.13.1.1 . Type d'objectif principal (1)/Main objective (1) :

Efficacité

3.13.1.2 . Type d'objectif principal (2)/Main objective (2) :

Thérapeutique (impact sur des critères de jugement intermédiaires. Exemple : réduction du cholestérol sérique, amélioration sur une échelle de douleur)

3.13.2 . Description de l'objectif principal/Main objective description :

Evaluer l'efficacité de l'Imagerie Motrice Graduelle sur les troubles de la perception du corps dans le Syndrome Douloureux Régional Complexe (SDRC)

3.13.3 . Description des objectifs secondaires/Secondary objectives description :

Evaluation quantitative: 1. Effet de l'intervention sur les troubles de la perception du corps : immédiatement après l'intervention et 3 mois après 2. Effet de l'intervention sur la douleur 3. Effet de l'intervention sur la fonction du membre supérieur 4. Effet de l'intervention sur la qualité de vie du patient 5. Effet de l'intervention sur le catastrophisme 6. Effet de l'intervention sur l'impression globale de changement dû au traitement 7. Etudier la corrélation entre l'intensité de la douleur, la fonction, le catastrophisme et la sévérité du SDRC 8. Effet sur la consommation médicamenteuse// Evaluation qualitative: 1. Décrire et mieux comprendre les effets des troubles de la perception du corps dans le SDRC sur les patients. 2. Montrer les effets de l'IMG dans l'organisation des soins à la fois pour les professionnels impliqués et pour les patients.

3.14 . Critères d'évaluation/End points :

3.14.1 . Critère d'évaluation principal (en lien avec l'objectif principal)/Primary end point (linked to main objective) :

Echelle de Bath des troubles de la perception du corps dans le SDRC après l'intervention de 6 semaines (S6) Elle est composée de 6 questions (sensation d'appartenance, position, attention, émotions, perceptions et envie d'amputation) et d'un dessin (réalisé par l'évaluateur) de l'image mentale décrite par le patient.

3.14.2 . Critères d'évaluation secondaires (en lien avec les objectifs secondaires)/Secondary end points (linked to secondary objectives) :

Quantitatif : 1.Echelle de Bath à S6 et M3 2.Echelle Numérique (EN) (douleur moyenne des deux derniers jours, douleur au mouvement, douleur au repos) à S6 et M3 3.QuickDASH à S6 et M3 4.Euro-Qol à S6 et M3 5.Pain Catastrophizing Scale à S6 et M3 6.Patient Global Impression of Change à S6 et M3 7.EN, Quick DASH, PCS, Score de sévérité du SDRC (CRPS Severity Score) à S6 et M3 8.MQS pour la consommation médicamenteuse à S6 et M3.// Qualitatif : 1.Explorer le vécu des patients avec le SDRC et les troubles de la perception du corps. Les patients seront interrogés avant et après le traitement par IMG pour évaluer ses effets sur leurs représentations sociales des troubles corporels. Le nombre de patients nécessaire à l'échantillonnage sera évalué en fonction de la saturation du discours 2.Faire un état des lieux des professionnels médico-sociaux engagés dans l'IMG et le SDRC et les interroger sur leur niveau de connaissance et de pratique de l'IMG pour comprendre ce que l'introduction de l'IMG dans le parcours de soins change. Appréhender le vécu des patients avec cette prise en soins atypique qu'est l'IMG.

3.15 . Population de l'étude/Study population :

3.15.1 . Principaux critères d'inclusion/Main inclusion criteria :

1. Patients adultes 2. SDRC du membre supérieur diagnostiqué selon les critères de Budapest (Conférence de consensus de Budapest IASP 2004, Douleur disproportionnée, signes cliniques/symptômes, absence de diagnostic différentiel) 3. Absence de prise en soins par imagerie motrice graduelle avant le début du protocole

3.15.2 . Principaux critères de non inclusion/Main exclusion criteria :

1. Troubles psychiatriques 2. Non compréhension du français écrit/parlé 3. Comorbidités pouvant influencer les symptômes du SDRC (pathologie neurologique ou autres douleurs chronique primaire ; ex : AVC, diabète, fibromyalgie) 4. Non maîtrise d'une application smartphone

4 Méthodologie et inclusions/Methodology and inclusions

4.1 . Méthodologiste/Methodologist :

4.1.1 . Civilité/Civility :

Mme

4.1.2 . Nom/Last name :

VOLTEAU

4.1.3 . Prénom/First name :

Christelle

4.1.4 . Ville/City :

Nantes

4.1.5 . Tél./Phone number :

0253526226

4.1.6 . Courriel/Email :

christelle.volteau@chu-nantes.fr

4.2 . Méthodologie du projet/Methodology :

4.2.1 . Plan expérimental (PE)/Experimental design :

Essai de supériorité contrôlé randomisé en bras parallèles

4.2.2 . Si 'Autre' PE préciser/If 'other', please specify :

4.2.3 . Description du plan expérimental/Experimental design description :

Il s'agit d'un essai pragmatique prospectif, contrôlé et randomisé. Le diagnostic de SDRC est réalisé par un médecin (médecin généraliste, chirurgien, algologue, médecin de médecine physique, ...). Celui-ci oriente les patients (prescription de rééducation) vers un kinésithérapeute investigateur libéral expert formé à l'IMG. Avant le début de l'étude, les kinésithérapeutes investigateurs ont reçu une formation d'une demi-journée auprès du porteur du projet, ont accès à un livret d'information et à un référent expert. // Après un bilan-diagnostic standardisé (BASELINE avec passation : EN, QuickDASH, Euro-Qol, Pain Catastrophizing Scale, Patient Global Impression of Change, consommation médicamenteuse) chez le kinésithérapeute, celui-ci vérifiera les critères d'inclusion et de non-inclusion. Après information et avoir donné leur consentement, une randomisation électronique permettra de répartir aléatoirement les patients entre le groupe expérimental (groupe imagerie motrice + exercices thérapeutiques) et le groupe contrôle (exercices thérapeutiques). Avant le début des séances, l'échelle de Bath sera évaluée par appel téléphonique par un technicien d'étude clinique, permettant d'obtenir un évaluateur du critère principal aveugle du bras de randomisation. // Le protocole dure 6 semaines. Les patients voient le kinésithérapeute 1 à 2 fois par semaines avec une prise en soins et des exercices à faire selon leur bras de randomisation. Ils poursuivent leurs exercices à domicile (3 fois 15 minutes par jour) et tiennent un journal d'exercices papier/électronique pour recueillir : la difficulté perçue, les effets indésirables, la douleur pré-post exercices, la moyenne douleur dans la journée. // Les patients seront réévalués à la fin du protocole de soins à 6 semaines (S6) puis à 3 mois (M3) avec les échelles EN, QuickDASH, Euro-Qol, Pain Catastrophizing Scale, Patient Global Impression of Change et consommation médicamenteuse par le kinésithérapeute, et l'échelle de Bath par un appel

téléphonique d'un Technicien d'Etude Clinique. // A la fin de cette dernière évaluation, les patients du bras contrôle bénéficieront de la prise en soins par IMG

4.2.4 . Si groupe comparateur: description du groupe expérimental/Experimental group description :

Groupe comparateur + imagerie motrice graduelle: 6 semaines, 3 phases: 1.l'imagerie motrice implicite (reconnaissance de la latéralité de mains). 2.l' imagerie motrice explicite (imaginer faire un mouvement sans l'exécuter physiquement). 3.la thérapie miroir (mouvements en regardant dans un miroir le reflet de son membre non atteint).

4.2.5 . Si groupe comparateur: description du groupe contrôle/Control group description :

Exercices à visée fonctionnelle, de mobilité, de renforcement, de mobilisation, en passif ou actif. Les exercices ont pour objectif l'augmentation de la mobilité et la fonction du membre atteint.

4.3 . Inclusions/Enrollment :

4.3.1 . Le projet comporte-t-il des inclusions de sujets (ou autres participations) ?/Does the project included enrollment or participation ? :

Oui

4.3.2.1 . Durée de la participation de chaque sujet ou participant (durée)/Duration of participation (duration) :

3

4.3.2.2 . Durée de la participation de chaque sujet ou participant (unité de temps)/Duration of participation (unit of duration) :

Mois

4.3.3 . Durée prévisionnelle de recrutement (DUR) (en mois)/Anticipated duration of recruitment (DUR) (in month) :

18

4.3.4 . Nombre de sujets ou observations prévu(e)s à recruter (NP)/Total number of scheduled participants to be recruited or observations to be collected (NP) :

80

4.3.5 . Justification de la taille de l'échantillon/Sample size justification :

Le critère principal de l'étude est le score à l'échelle BATH à 6 semaines, qui est compris entre 0 et 57 (du meilleur au plus mauvais score). Le calcul du nombre de patients nécessaire se base sur l'étude de Acapo et al (in submission) dont le but était la validation française du questionnaire BATH. Cette étude a également permis de déterminer le MDC (Minimal Detectable Change) qui a été établi à 6.85. A l'inclusion, le score était de 19.9 en moyenne avec un écart-type de 8.7. Pour mettre en évidence une diminution d'au moins 7 points dans le groupe imagerie cérébrale versus 1 point dans le groupe contrôle (soit un score moyen attendu à 6 semaines de 13 versus 19 points) avec un écart-type commun de 9 points, une puissance de 80% et un taux maximal de dropout de 10%, un total de 80 patients doit être randomisé (40 patients dans chaque bras).

4.3.6 . Nombre de sujets ou observations prévu(e)s à recruter/ mois / centre ((NP/DUR)/NC) : Valeur calculée (cf. document liste des centres coinvestigateurs)/Number of participants to be recruited or observations to be collected per month per centre ((NP/DUR)/NC) (cf. sub-investigators centers file) :

0.2

4.3.7 . (NP/DUR)/NC) : Justification si le chiffre est supérieur à 2/If more than 2, please justified :

5 Médico-économie/Health-economics

5.1 . Economiste de la santé/Health economist :

5.1.1 . Un économiste de la santé participe-t-il au projet? (obligatoire pour le PRME ou en cas de volet médico-économique)/Is a health economist involved in the project (mandatory for PRME or in the case of a medico-economic component)? :

Non

5.1.2 . Civilité/Civility :

5.1.3 . Nom/Last name :

5.1.4 . Prénom/First name :

5.1.5 . Ville/City :

5.1.6 . Tél./Phone number :

5.1.7 . Courriel/Email :

5.2 . Analyse médico-économique/Health economic analysis :

5.2.1 . Méthode d'analyse médico-économique/Medico-economic analysis method :

5.2.2 . Description de l'analyse médico-économique/Description of health economic analysis :

5.2.3 . Justification du volet médico-économique dans le projet de recherche proposé/Justification of the medico-economic component in the proposal :

6 Financement/Funding

6.1 . Niveau approximatif de financement DGOS demandé, en euros/Approximate level of required DGOS (MoH) funding, in euros :

240000

6.6 . Autre(s) commentaire(s) d'ordre budgétaire/Additional comment(s) on the budget :

7 Références bibliographiques/Bibliographic references

7.1 . Référence 1 (PMID, année, revue, titre, auteurs)/Reference 1 (PMID, year, review, title, authors) :

PMID: 30620109, 2019, European Journal of Pain, Standards for the diagnosis and management of Complex Regional Pain Syndrome: results of a European Pain Federation task force. Goebel, Barker, Birklein et al.

7.2 . Référence 2 (PMID, année, revue, titre, auteurs)/Reference 2 (PMID, year, review, title, authors) :

PMID: 33759278, 2020, Rehab Medicine and physical therapy, Changing Hand Appearance Using Visual Illusions Modulates Body Perception Disturbance and Pain in Longstanding Complex Regional Pain Syndrome: A Randomised Trial. Lewis, Newport, Taylor, Smith, McCabe

7.3 . Référence 3 (PMID, année, revue, titre, auteurs)/Reference 3 (PMID, year, review, title, authors) :

PMID: 33964412, 2021, The Journal of Pain, Validation of the Bath CRPS Body Perception Disturbance Scale. Ten Brink, Halicka, Vittersø, Jones, Stanton, Bultitude

7.4 . Référence 4 (PMID, année, revue, titre, auteurs)/Reference 4 (PMID, year, review, title, authors) :

PMID: 35579382, 2022, Cochrane Database Syst Rev, Physiotherapy for pain and disability in adults with complex regional pain syndrome (CRPS) types I and II, Smart, Ferraro, Wand, O'Connell

7.5 . Référence 5 (PMID, année, revue, titre, auteurs)/Reference 5 (PMID, year, review, title, authors) :

PMID: 30671237, 2019, British Journal of Pain, The impact of mirror therapy on body schema perception in patients with complex regional pain syndrome after distal radius fractures. Kotiuk, Burianov, Kostrub, Khimion, Zasadnyuk

8 Informations pour les évaluateurs/Information related to the assessment of the project

8.1 . Éléments liés à la mise en œuvre/Elements ensuring feasibility :

8.1.1 . Participation d'un réseau de recherche/Research network participation :

Groupe d'Intérêt Douleur de la Société Française de Physiothérapie dont la porteuse est secrétaire (> 150 kiné) //Activation de la mailing-list des kiné formés par la porteuse du projet (> 100 kiné) //Participation du Réseau recherche paramédicale du GIRCI-GO //Soutien du Centre d'Etude et de Traitement de la Douleur, de la Cellule de Soins Primaires et de la Cellule de Recherche Paramédicale du CHU Nantes //Réseau de Recherche en Soins Primaire

8.1.2 . Participation de partenaires industriels/Industry participation :

Non

8.1.3 . Autres éléments garantissant la faisabilité du projet/Other aspects ensuring feasibility :

Le traitement recommandé inclut la rééducation. Le parcours de soin est déjà mis en place avec les médecins. Le recrutement des kinésithérapeutes investigateurs est assuré grâce aux réseaux professionnels? Ces kinésithérapeutes experts assurent une file active. Pour une pratique standardisée, une formation sera proposée aux co-investigateurs.

8.2 . Expertises antérieures et commentaires/Previous expert reviews and comments :

8.2.1 . Expertises et commentaires du jury antérieurs /Previous expert and jury comments :

NA

8.2.2 . Réponse aux expertises et commentaires du jury antérieurs /Previous expert and jury comments replies :

NA

8.2.3 . Autre(s) commentaire(s) sur le projet/Other comment(s) about the project :

NA

8.4 . Caractéristique du champ d'expertise du rapporteur/Field of expertise of the rapporteur :

8.4.1 . Domaine du rapporteur suggéré/Suggested rapporteur's domaine :

Médecine physique et réadaptation

8.4.2 . Mot-clé libre lié au domaine des évaluateurs/Domain related keyword :

8.4.3 . Ages concernés/Ages of studied population :

8.4.4 . Chirurgie/Surgery :

Non

9 Commentaire général et observations sur le formulaire/Other comments and template improvements

9.0 . Autre(s) commentaire(s) /Other comment(s) :

NA

9.1 . Commentaires utilisateur de la plateforme Innovarc-3 (préciser votre rôle)/Innovarc-3 user feedback (specify your role: expert, investigator, manager, delegate or rapporteur.) :

NA

Titre : Les troubles de la perception du corps dans le Syndrome Douloureux Régional Complexe

Mots clés : Syndrome Douloureux Régional Complexe, troubles de la perception du corps, douleur chronique, syndrome de pseudo-négligence

Résumé : Le Syndrome Douloureux Régional Complexe (SDRC) est une pathologie survenant après un traumatisme, caractérisé par une douleur intense et une variété de symptômes comme des troubles moteurs, de la sensibilité et des troubles de la perception du corps (TPC). Elle entraîne de fortes incapacités et une qualité de vie dégradée. Le traitement, en particulier des formes longues, est difficile.

Les TPC englobent différentes dimensions de la perception comme des changements de forme de taille ou de température du membre atteint. A cela s'ajoutent des sensations de non-appartenance du membre, des émotions négatives allant jusqu'à l'envie d'amputation. Afin de caractériser ces troubles et leurs relations avec les paramètres cliniques comme la douleur, il est essentiel de les évaluer. Nous avons conduit une revue systématique afin de déterminer quels outils sont disponibles et quelles sont leurs propriétés psychométriques. L'Echelle de Bath est l'outil le plus utilisé et le

plus étudié malgré des propriétés psychométriques encore incomplètes. Pas disponible en français, nous avons mené une traduction, adaptation trans-culturelle et validation. La version française de l'Echelle de Bath monte ainsi une cohérence interne adéquate ainsi qu'une excellente reproductibilité. Elle peut être utilisée pour évaluer les TPC.

Les TPC semblent plus fréquents et plus importants dans le SDRC et ont été corrélés à l'intensité de la douleur et à la peur du mouvement.

Les traitements visant les TPC ont montré des résultats préliminaires encourageants. Ils impliquent des thérapies visant des corrections de perceptions et stimulations, comme la thérapie miroir ou l'entraînement sensoriel.

Les hypothèses reliant TPC, douleurs et présentations cliniques du SDRC sont toujours en discussion. Les perspectives cliniques sont ouvertes et possibles pour nos équipes françaises pour poursuivre ces pistes.

Title : Body Perception Disturbances In Complex Regional Pain Syndrome

Keywords : Complex Regional Pain Syndrome, body perception disturbances, neglect-like syndrome, chronic pain

Abstract : Complex Regional Pain Syndrome (CRPS) is a condition that occurs after trauma, characterised by intense pain and a variety of symptoms such as motor disorders, sensitivity disorders and body perception disorders (BPD). It leads to severe disability and a reduced quality of life. Treatment is difficult, particularly for chronic forms.

CPT encompasses different dimensions of perception, such as changes in the shape, size or temperature of the affected limb. Added to this are sensations that the limb does not belong, and negative emotions that can even lead to the desire to amputate. In order to characterise these disorders and their relationship with clinical parameters such as pain, it is essential to assess them. We conducted a systematic review to determine which tools are available and what their psychometric properties are.

The Bath Scale is the most widely used and studied tool, despite its still incomplete psychometric properties. As it was not available in French, we carried out a translation, cross-cultural adaptation. The French version of the Bath Scale thus shows adequate internal consistency and excellent reproducibility. It can be used to evaluate BPD. BPD seem to be more frequent and more important in CRPS and have been correlated with pain intensity and fear of movement. Treatments targeting CPT have shown encouraging preliminary results. They involve therapies aimed at correcting perceptions and stimuli, such as mirror therapy or sensory training.

The hypotheses linking CPT, pain and the clinical presentation of CRPS are still under discussion. The clinical prospects are open and possible for our French teams to pursue