



HAL
open science

Promotion de l'activité physique adaptée chez les patients atteints de mucoviscidose : approche socio-écologique et mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique

Raphaëlle Ladune

► **To cite this version:**

Raphaëlle Ladune. Promotion de l'activité physique adaptée chez les patients atteints de mucoviscidose : approche socio-écologique et mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique. Physiologie [q-bio.TO]. Université Côte d'Azur, 2023. Français. NNT : 2023COAZ4105 . tel-04615717

HAL Id: tel-04615717

<https://theses.hal.science/tel-04615717>

Submitted on 18 Jun 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.

THÈSE DE DOCTORAT

Promotion de l'Activité Physique Adaptée chez les patients atteints de Mucoviscidose

Approche socio-écologique et mesure de la balance décisionnelle
pour l'activité physique

Raphaëlle LADUNE

Laboratoire Motricité Humaine Expertise Sport Santé (LAMHESS – UPR 6312)

**Présentée en vue de l'obtention
du grade de docteur en
Sciences du Mouvement Humain
d'Université Côte d'Azur**

Dirigée par : Fabienne d'Arripe-
Longueville, Professeure, et Anne
Vuillemin, Professeure

Soutenue le : 14 décembre 2023

Devant le jury, composé de :

Fabienne d'Arripe-Longueville, Professeure,
Université Côte d'Azur - Directrice de thèse
Anne Vuillemin, Professeure, Université
Côte d'Azur - Directrice de thèse
Julien Bois, Professeur, Université de Pau et
des Pays de l'Adour, Rapporteur
Claudine Fabre, Professeure, Université de
Lille, Rapporteuse
Aurélie Van Hoye, Maitresse de
conférences, Université de Lorraine,
examinatrice
Mathieu Gruet, Professeur, Université de
Toulon, examinateur
Marc Stern, Docteur en médecine,
pneumologue, invité



Promotion de l'Activité Physique Adaptée chez les patients atteints de Mucoviscidose :

Approche socio-écologique et de la mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique

Résumé - L'activité physique adaptée est une thérapie non médicamenteuse recommandée chez les personnes atteintes de mucoviscidose. Si de nombreux bénéfices associés à la pratique ont été relevés, la pratique d'une activité physique par les personnes atteintes de mucoviscidose reste en-dessous des recommandations en vigueur. Bien que la littérature sur les bénéfices de l'activité physique pour cette population abonde, les mécanismes de l'engagement dans l'activité physique ont été peu explorés, en particulier chez les adultes. De même, il existe une importante hétérogénéité des prises en charge au sein des centres de ressources et de compétences de la mucoviscidose. Il est ainsi essentiel de mieux comprendre les perceptions liées à l'activité physique adaptée chez ces personnes et de développer des stratégies de promotion de l'activité physique adaptée, en développant des outils adaptés aux spécificités des personnes touchées par la mucoviscidose.

L'objectif de cette thèse est de contribuer à la définition de stratégies de promotion de l'activité physique adaptée et à la conception d'outils pratiques visant à améliorer l'évaluation de la motivation des patients envers l'activité physique et l'activité physique adaptée. Elle se fonde à la fois sur les apports du modèle socio-écologique de la santé, et sur le concept de balance décisionnelle du modèle transthéorique. Une première étude qualitative a identifié les barrières et les leviers liés à la pratique de l'activité physique chez les adultes atteints de mucoviscidose (Étude 1). Une seconde étude qualitative, basée sur la méthode de capitalisation d'expérience, a porté sur l'identification des stratégies d'intervention et des conditions d'efficacité en matière de promotion de l'activité physique adaptée au sein de centres spécialisés (Étude 2). Une troisième étude a permis le développement et la validation d'un outil de mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique chez les adultes atteints de mucoviscidose, le MUCO_BDEX (MUCOviscidose Balance Décisionnelle à l'Exercice (Étude 3). Une quatrième étude a fait l'objet du développement de l'outil MUCO_BDEX sous une version numérique, l'application MUCO_BALAD (MUCOviscidose BALance Décisionnelle), à destination des personnes atteintes de mucoviscidose majeures, des professionnels de santé spécialisés dans la mucoviscidose et des chercheurs (Étude 4). Enfin, une cinquième étude a permis le développement et la validation d'outils de mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique adaptée spécifiques aux patients mucoviscidose âgés de onze à dix-sept ans (Étude 5).

Ce travail doctoral a contribué à la production de nouvelles connaissances scientifiques sur les facteurs de l'engagement dans l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, et plus largement à la définition de modalités de promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée au sein des centres spécialisés. Il a également permis l'élaboration d'outils de mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique adaptée, adaptés aux spécificités des personnes atteintes de mucoviscidose, chez les adultes et chez les enfants.

Mots clés : Activité physique, Activité physique adaptée, Mucoviscidose, Balance décisionnelle, Approche socio-écologique.

Promotion of Adapted Physical Activity in cystic fibrosis patients:

A socio-ecological approach and measurement of the decisional balance for physical activity

Summary - Adapted physical activity is a non-drug therapy recommended for people with cystic fibrosis. Although a number of benefits have been identified, physical activity levels among people with cystic fibrosis remain below current recommendations. Although there is an abundance of literature on the benefits of physical activity for this population, the mechanisms of engagement in physical activity have been little explored, particularly in adults. Similarly, there is considerable heterogeneity in the way people with cystic fibrosis are treated by the specialized centers. It is therefore essential to gain a better understanding of the perceptions associated with adapted physical activity among these people and to develop strategies for promoting adapted physical activity, by developing tools tailored to the specific characteristics of people with cystic fibrosis.

The aim of this thesis is to contribute to the definition of strategies for promoting APA and the design of practical tools aimed at improving the assessment of people with cystic fibrosis motivation toward PA and APA. The research is based both on the contributions of the socio-ecological model of health and on the concept of decisional balance in the transtheoretical model. An initial qualitative study identified the barriers and levers to PA in adult people with cystic fibrosis (Study 1). A second qualitative study, based on the experience capitalization method, focused on identifying intervention strategies and the conditions for effectiveness in promoting APA within specialized centers (Study 2). A third study led to the development and validation of a tool to measure the decisional balance for exercise in people with cystic fibrosis, the CF_DB_PA (Cystic Fibrosis _ Decisional Balance _ Physical Activity) (Study 3). A fourth study involved the development of a digital version of the CF_DB_PA tool, the CF_DB_PAApp (Cystic Fibrosis _ Decisional Balance _ Physical Activity Application) application, aimed at people with cystic fibrosis, healthcare professionals specializing in cystic fibrosis, and researchers (Study 4). Finally, a fifth study involved the development and validation of decisional balance measurement tools for APA to people with cystic fibrosis aged 11 to 17 years (Study 5).

This doctoral work contributes to the production of new scientific knowledge on the factors influencing commitment to PA in people with cystic fibrosis and, more broadly, to the definition of ways of promoting PA in specialist centers. It has also led to the development of tools for measuring the decisional balance for physical activity adapted to the specific needs of people with cystic fibrosis, both adults and children.

Key words: Physical activity, Adapted physical activity, Cystic fibrosis, Decisional balance, Socio-ecological approach.

Remerciements

Se lancer dans une thèse est un peu comme se lancer dans le monde de l'équitation. C'est un voyage exigeant, un parcours exaltant, une aventure parsemée de défis, d'obstacles et de triomphes. Tout comme un cavalier doit développer une relation unique avec son cheval, nous construisons un lien spécial avec notre sujet de recherche. Dans cette section de remerciements, je souhaite rendre hommage à ceux qui ont été mes mentors, guides, soutiens, juges, et compagnons de voyage. Je souhaite exprimer ma gratitude envers ceux qui ont partagé avec moi les joies de la réussite et ont été présents dans les moments de challenge. Que ce soit sur le dos d'un cheval ou au bureau de recherche, l'apprentissage, la persévérance, la passion, et le travail acharné sont des éléments-clés de mon parcours.

Je tiens à exprimer ma profonde reconnaissance à mes directrices de thèse, les professeures Fabienne d'Arippe-Longueville et Anne Vuillemin, pour leur guidance experte, leur soutien inestimable, et leur engagement infailible tout au long de cette aventure. Leurs conseils éclairés ont guidé mes pas dans le labyrinthe de la recherche, et leur expertise a contribué à façonner ce travail. J'exprime également ma reconnaissance envers le laboratoire LAMHESS au sein de l'Université Côte d'Azur et l'ensemble de son équipe. Leur environnement stimulant et leurs contributions à la recherche ont créé un contexte académique favorable à l'exploration et à l'innovation, contribuant ainsi à l'essence de cette thèse.

J'exprime ma profonde gratitude envers l'Association Grégory Lemarchal et l'Association Vaincre la Mucoviscidose, dont le soutien a été déterminant pour la réalisation de cette recherche. Leur engagement dans la recherche scientifique est un pilier d'espoir pour les progrès dans la prise en charge de la mucoviscidose. L'Association Grégory Lemarchal soutient ces travaux depuis plus de sept ans, et l'Association Vaincre la Mucoviscidose l'a rejoint plus récemment avec le développement de l'application numérique, permettant la réussite de ce projet. Leur dévouement mérite une reconnaissance sans bornes pour leurs efforts incessants en faveur de la recherche et de l'amélioration de la qualité de vie des patients atteints de mucoviscidose. Ce travail, fruit de plusieurs années de labeur et de leur soutien, incarne la synergie entre la rigueur académique et la mission humanitaire.

Je souhaite également remercier chaleureusement l'équipe du Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose de Giens, plus particulièrement le Docteur Laurent Mely, et Mesdames Nadège Goriot-Raynaud et Odile Chatron, avec lesquels j'ai eu le privilège de collaborer depuis 2016. Leur engagement et leur expertise dans le domaine de la mucoviscidose ont été essentiels pour la réussite de cette thèse. Leur partage de connaissances et de ressources a enrichi ma recherche de manière inestimable, et j'ai été honoré de faire partie de cette équipe dévouée.

J'aimerais également exprimer ma gratitude envers les membres de mon jury de thèse, le professeur Julien Bois et la professeure Claudine Fabre, d'avoir accepté d'être les rapporteurs de cette thèse, ainsi que la professeure Aurélie Van Hoyer et le professeur Mathieu Gruet pour leur rôle d'examineurs. Je vous remercie pour l'évaluation de ce travail et l'expertise que vous allez y apporter.

Je suis profondément reconnaissante pour le soutien indéfectible de mes parents et de ma sœur tout au long de cette aventure académique. Leur amour inconditionnel et leurs encouragements constants ont constitué une boussole morale et émotionnelle dans les moments de doute et de fatigue. Leur présence à mes côtés a été une source inestimable de motivation, me rappelant constamment l'importance de persévérer et de viser l'excellence.

Enfin, à mes amis, je vous remercie pour votre amitié précieuse, votre compréhension, et votre soutien moral sans faille lorsque j'en avais le plus besoin. Votre présence a apporté un équilibre essentiel à ma vie, et votre amitié a fait de cette étape de ma vie une expérience plus riche et plus agréable. Une pensée toute particulière à mes amies de l'écurie de Caraville, aux doctorantes plongées dans la même aventure que moi, et à mes profondes amitiés des quatre coins de la France et de l'Europe.

Toutes ces personnes ont joué un rôle essentiel dans la réalisation de ce travail, et je ressens une vive gratitude envers chacune d'entre elles. Leurs contributions ont été bien plus que des simples gestes ; elles ont été des piliers fondamentaux de ce projet. Leur dévouement, leurs conseils et leur soutien ont été les fondations sur lesquelles repose ce travail de recherche. Chacun, à sa manière, a apporté une valeur inestimable, enrichissant non seulement le contenu de cette thèse, mais aussi mon propre développement académique et personnel. C'est avec une immense reconnaissance que je les remercie pour leur contribution exceptionnelle à cette entreprise.

Et pour conclure, une pensée émue à Grégory Lemarchal, en espérant de tout cœur que mes modestes travaux aient contribué à son combat contre la mucoviscidose.

Index des figures

Figure n°1 : Survie globale en fonction du niveau d'activité physique, cohorte de 2 386 sujets mucoviscidose, Van de Weert-Van et al., 2014.....	26
Figure n°2 : Modèle transthéorique du changement de comportement, d'après Prochaska & Diclemente (1983).....	35
Figure n°3 : Représentation de la balance décisionnelle du modèle de Janis & Mann (1977), illustrée dans l'étude de Satge et al., 2013.....	36
Figure n°4 : Les déterminants de la santé, d'après le ministère de la Santé et des services sociaux du gouvernement du Québec, 2010.....	40
Figure n°5. Modèle socio-écologique, d'après McLeroy et al., 1988.....	44
Figure n°6. Modèle socio-écologique inversé, d'après Golden et al., 2015.....	45
Figure n°7. Modèle socio-écologique adapté au domaine des activités physiques et sportives, d'après Pratt et al., 2015.....	48
Figure n°8 : Modèle socio-écologique, d'après Sallis et al., 2006.....	49

Index des tableaux

Tableau n°1 : Perceptions de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose (Denford et al., 2020 ; Ladune et al., 2021).....	176
--	-----

Sommaire

INTRODUCTION.....	- 15 -
1^{ERE} PARTIE : CADRE THEORIQUE	- 21 -
CHAPITRE 1. LA PROMOTION DE L'ACTIVITE PHYSIQUE ET DE L'ACTIVITE PHYSIQUE ADAPTEE CHEZ LES PERSONNES ATTEINTES DE MUCOVISCIDOSE.....	- 23 -
1.1. LE ROLE DES CENTRES DE RESSOURCES ET DE COMPETENCES DE LA MUCOVISCIDOSE DANS LA PROMOTION DE L'ACTIVITE PHYSIQUE	- 23 -
1.2. LES BENEFICES DE L'ACTIVITE PHYSIQUE CHEZ LES PERSONNES ATTEINTES DE MUCOVISCIDOSE	- 25 -
1.2.1. <i>Les bénéfices physiologiques de l'activité physique</i>	- 25 -
1.2.2. <i>Les bénéfices psychosociaux de l'activité physique</i>	- 26 -
1.2.3. <i>Les bénéfices médicaux de l'activité physique</i>	- 27 -
1.3. LES RECOMMANDATIONS EN ACTIVITE PHYSIQUE CHEZ LES PERSONNES ATTEINTES DE MUCOVISCIDOSE	- 27 -
1.4. LES CONDITIONS D'EFFICACITE DES INTERVENTIONS EN ACTIVITE PHYSIQUE CHEZ LES PERSONNES ATTEINTES DE MUCOVISCIDOSE	- 28 -
1.5. SYNTHESE DU CHAPITRE 1	- 29 -
CHAPITRE 2. LES PERCEPTIONS DE L'ACTIVITE PHYSIQUE CHEZ LES PERSONNES ATTEINTES DE MUCOVISCIDOSE	- 31 -
2.1. LES PERCEPTIONS DE L'ACTIVITE PHYSIQUE CHEZ LES PERSONNES ATTEINTES DE MUCOVISCIDOSE	- 31 -
LES PERSONNES ATTEINTES DE MUCOVISCIDOSE ONT DES PERCEPTIONS DE L'ACTIVITE PHYSIQUE DIFFERENTES DE LA POPULATION GENERALE EN RAISON DES CONSEQUENCES DE LEUR MALADIE. CES PERCEPTIONS EVOLUENT EGALEMENT EN FONCTION DE L'AGE, EN RAISON DES CONTRAINTES SPECIFIQUES LIEES AUX STADES DE L'ENFANCE, DE L'ADOLESCENCE ET DE L'AGE ADULTE.	- 31 -
2.1.1. <i>Chez les enfants et les adolescents</i>	- 31 -
2.1.2. <i>Chez les adultes</i>	- 33 -
2.2. LE MODELE TRANSTHEORIQUE DES CHANGEMENTS DE COMPORTEMENT.....	- 34 -
2.3. LE ROLE DE LA BALANCE DECISIONNELLE DANS LES COMPORTEMENTS DE SANTE	- 36 -
2.4. SYNTHESE DU CHAPITRE 2	- 38 -
CHAPITRE 3. MODELES DE PROMOTION DE LA SANTE ET ACTIVITE PHYSIQUE : LE CHOIX DE L'APPROCHE SOCIO-ECOLOGIQUE	- 39 -
3.1. CONCEPTUALISATION DE LA SANTE	- 39 -
3.1.1. <i>Les déterminants de la santé</i>	- 39 -
3.1.2. <i>Définition de la santé</i>	- 40 -
3.2. LES DIFFERENTS MODELES DE PROMOTION DE LA SANTE	- 41 -
3.3. LE MODELE SOCIO-ECOLOGIQUE	- 42 -
3.4. L'INFLUENCE DE L'APPROCHE SOCIO-ECOLOGIQUE DANS LE DOMAINE DES ACTIVITES PHYSIQUES ET SPORTIVES. - 46 -	- 46 -
3.4.1. <i>Influence des facteurs environnementaux et sociaux</i>	- 46 -
3.4.2. <i>Stratégies de promotion de l'activité physique : Adaptation aux normes sociales et culturelles</i> . - 47 -	- 47 -
3.4.3. <i>Modèles écologiques : Un cadre pour des interventions efficaces</i>	- 48 -
3.4.4. <i>Impact des interactions sociales : Façonner les comportements à travers le contexte</i>	- 49 -
3.5. SYNTHESE DU CHAPITRE 3	- 50 -
CHAPITRE 4. LA CAPITALISATION DES EXPERIENCES : DONNER LA PAROLE AUX ACTEURS DE TERRAIN	- 51 -
4.1. LA CAPITALISATION DES EXPERIENCES : DEFINITION ET METHODOLOGIE.....	- 51 -
4.1.1. <i>Définition de la capitalisation des expériences</i>	- 51 -
4.1.2. <i>Méthodologie de la capitalisation des expériences</i>	- 52 -
4.2. IMPLICATION DE LA CAPITALISATION DES EXPERIENCES DANS LA PROMOTION DE LA SANTE	- 52 -
4.2.1. <i>Historique de la démarche de la capitalisation des expériences</i>	- 53 -
4.2.2. <i>Intérêt de la capitalisation des expériences dans la promotion de la santé</i>	- 54 -
4.3. LA DEMARCHE DE CAPITALISATION ET L'APPROCHE SOCIO-ECOLOGIQUE.....	- 54 -
4.4. SYNTHESE DU CHAPITRE 4	- 55 -
PROBLEMATIQUE ET PROGRAMME DE RECHERCHE	- 57 -

2^{EME} PARTIE ÉTUDES EMPIRIQUES.....	- 61 -
AXE 1 : APPROCHE DESCRIPTIVE DE LA PROMOTION EN ACTIVITE PHYSIQUE CHEZ LES PERSONNES ATTEINTES DE MUCOVISCIDOSE	- 63 -
ÉTUDE 1. PERCEPTIONS OF BARRIERS TO AND FACILITATORS OF PHYSICAL ACTIVITY IN ADULTS WITH CYSTIC FIBROSIS ^{1,2} ...	65 -
<i>Synthèse de l'étude 1</i>	- 79 -
ÉTUDE 2. PHYSICAL ACTIVITY PROMOTION IN FRENCH CYSTIC FIBROSIS CENTERS: CAPITALIZING ON EXPERIENCE ^{1,2,3} .	81 -
<i>Synthèse de l'étude 2</i>	- 103 -
AXE 2 : CONCEPTION D'OUTILS DE PROMOTION DE L'ACTIVITE PHYSIQUE SPECIFIQUES AUX PERSONNES ATTEINTES DE MUCOVISCIDOSE.....	- 105 -
ÉTUDE 3. DEVELOPMENT AND VALIDATION OF THE CYSTIC FIBROSIS DECISIONAL BALANCE FOR PHYSICAL ACTIVITY SCALE (CF-DB-PA) ^{1,2,3} .	- 107 -
<i>Synthèse de l'étude 3</i>	- 118 -
ÉTUDE 4.	- 121 -
DEVELOPMENT OF A WEB APP TO ENHANCE PHYSICAL ACTIVITY IN PEOPLE WITH CYSTIC FIBROSIS: CO-DESIGN AND ACCEPTABILITY EVALUATION BY PATIENTS AND HEALTH PROFESSIONALS ^{1,2,3,4,5,6} .	- 121 -
ACKNOWLEDGEMENTS.....	- 141 -
CONFLICT OF INTEREST	- 142 -
ABBREVIATIONS.....	- 142 -
REFERENCES	- 143 -
<i>Synthèse de l'étude 4</i>	- 147 -
ÉTUDE 5. DEVELOPPEMENT ET VALIDATION DE L'ECHELLE MUCO_BDEX ADAPTEE AUX ADOLESCENTS (11-17 ANS) ¹	149 -
<i>Synthèse de l'étude 5</i>	- 161 -
DISCUSSION GENERALE	- 163 -
LIMITES	- 172 -
PERSPECTIVES DE RECHERCHE	- 175 -
PERSPECTIVES CLINIQUES	- 178 -
CONCLUSION	- 181 -
BIBLIOGRAPHIE.....	- 183 -
ANNEXES	- 199 -

Introduction

La mucoviscidose est la maladie génétique rare et incurable la plus fréquente en France (Gennari & Fuchs, 2016) avec une estimation de 7 000 cas, et une naissance toutes les 4 500 (soit une naissance tous les trois jours environ, Inserm). Héritaire, cette maladie se transmet selon le mode autosomique récessif, c'est-à-dire par la présence sur le gène de deux allèles mutés. Le gène mis en cause dans le cadre de la mucoviscidose est le gène CFTR (Cystic Fibrosis Transmembrane Conductance Regulator) présent sur le bras long du chromosome 7 (7q31). Ce gène code pour la protéine CFTR que l'on retrouve dans la membrane des cellules de différentes muqueuses (e.g., principalement au niveau des voies respiratoires, du tube digestif, du foie, des glandes sudoripares et du tractus génital) et qui intervient dans la régulation du transport des ions chlorure. Aujourd'hui, on recense plus de 2 000 mutations, dont la plus fréquente est la mutation F508delta qui touche environ 80% des personnes atteintes de mucoviscidose en France. On constate ainsi une importante hétérogénéité des manifestations cliniques, de la sévérité de l'évolution et de l'atteinte respiratoire, et ainsi du pronostic vital.

Le dépistage néonatal systématique a été mis en place dès 2002 pour les bébés sur l'ensemble du territoire français (métropole et Outre-mer). A l'aide d'une prise de sang dans le talon, le dosage d'une enzyme produite par le pancréas, la trypsine immunoréactive (TIR), est réalisé afin de relever des taux anormalement élevés, signe d'anomalie pancréatique. Cette méthode permet de repérer environ 95% des nourrissons atteints de mucoviscidose, mais également des nourrissons sains. Ainsi, si le taux TIR est anormalement élevé, une analyse génétique est effectuée afin de chercher des mutations du gène CFTR. Dans le cas de la présence d'au moins une mutation, un test de sueur est réalisé. Sinon, un dosage de l'enzyme TIR est répété trois semaines plus tard, avec la réalisation d'un test de sueur en cas de taux toujours élevés. Avant 2002 et le dépistage néonatal, le diagnostic était posé après l'observation de signes cliniques comme l'encombrement des voies respiratoires, des infections récidivantes des voies respiratoires, des diarrhées grasses ou encore une occlusion intestinale chez le nouveau-né, qui est l'expression la plus précoce et la plus grave de la mucoviscidose.

Multi-systémique, la mucoviscidose se traduit par un épaississement du mucus avec une hausse de sa viscosité et génère principalement des troubles respiratoires (e.g. essoufflement, expectorations), première cause de mortalité chez les personnes atteintes de mucoviscidose

(Prasad & Cerny, 2002), et des troubles digestifs (e.g. douleurs abdominales, mauvaise absorption des graisses). Elle s'accompagne de pathologies associées, telles le diabète insulino-dépendant (environ 2% des enfants, 20% des adolescents et 50% des adultes) lié aux dommages sur le pancréas, une atrophie des métabolismes aérobiques (i.e., capacité des poumons, du cœur et de l'appareil circulatoire à transporter l'oxygène aux muscles lors de l'effort physique) et anaérobiques (i.e., énergie fournie aux muscles sur un effort bref et intense sans transport d'oxygène) (Selvadurai et al., 2004). On observe aussi de l'ostéopénie et de l'ostéoporose du fait d'une malabsorption des vitamines liposolubles (i.e., A, D, E et K), ou encore une altération des appareils reproducteurs (malformation des canaux déférents chez l'homme, sécrétions cervicales trop épaisses chez la femme), sans altération de la fonction sexuelle. Ainsi, l'espérance de vie des personnes atteintes de mucoviscidose est étroitement liée à certains paramètres physiologiques, tels leur Volume Expiratoire Maximum par Seconde (VEMS), leur indice de masse corporelle (IMC) ou encore leur masse musculaire (Fogarty et al., 2012), qu'il est donc primordial de stabiliser à des valeurs les plus optimales possibles.

L'espérance de vie des patients atteints de mucoviscidose augmente depuis plus de 30 ans (MacKenzie et al., 2014), avec un âge moyen actuel estimé à 47 ans (Cystic Fibrosis Trust, 2013), contre 5 ans dans les années 1960 (Inserm). Depuis 2013, le pourcentage de patients adultes dépasse celui des patients enfants (Simmonds, 2013). Ces améliorations sont la résultante de la mise en place du dépistage néonatal, de l'amélioration de l'état nutritionnel via des prises en charges adaptées ainsi que des progrès réalisés dans les traitements, les médicaments et leur administration (Simmonds et al., 2009), mais également l'identification du gène CFTR mis en cause dans la mucoviscidose en 1989 (association Vaincre la Mucoviscidose). Néanmoins, cette hausse de l'espérance de vie s'accompagne de l'apparition de comorbidités liées au mode de vie et à l'âge (e.g., hypertension, tumeur maligne, etc, Simmonds et al., 2009).

Des progrès significatifs ont été réalisés dans le traitement, avec l'existence principale de trois types de médicaments : les modulateurs de la CFTR, les anti-inflammatoires et les thérapies symptomatiques. Les modulateurs ciblent et corrigent la fonction défectueuse de la protéine CFTR pour améliorer le transport du chlorure dans les cellules. Pour l'instant, ces modulateurs sont adaptés à la mutation la plus courante, et de nouveaux sont en développement pour traiter un plus large éventail de mutations. Les anti-inflammatoires sont là dans le but de diminuer l'inflammation des voies respiratoires afin de prévenir et soigner les infections pulmonaires, fréquentes conséquences de la mucoviscidose. Les approches symptomatiques regroupent les autres approches thérapeutiques qui traitent les symptômes et les complications

Introduction

de cette pathologie. On retrouve notamment la kinésithérapie respiratoire, la supplémentation en vitamines, les enzymes pancréatiques, etc. De nouvelles thérapies ont fait leur apparition ces dernières années, notamment l'association Kaftrio®/Kalydeco®, accessible depuis 2019 aux États-Unis, depuis 2021 en France pour les adultes et depuis 2022 pour les enfants à partir de 6 ans. Ce traitement est une association de deux substances qui augmentent le nombre de protéines CFTR (le tezacaftor et l'alexacaftor), et une substance qui améliore l'activité de la protéine CFTR défectueuse (l'ivacaftor) et qui présente à ce jour des résultats qualifiés de miraculeux chez près de 80% de la population totale de personnes atteintes de mucoviscidose. Rappelons également que les progrès dans les traitements de la mucoviscidose se poursuivent, et de nouvelles thérapies et approches sont régulièrement développées et évaluées.

Les prises en charge relatives à la mucoviscidose sont nombreuses et variées dans leurs modalités d'application (Rand et al., 2013). L'activité physique vient s'inscrire dans ces prises en charge comme une thérapie non médicamenteuse à part entière (Gennari & Fuchs, 2016 ; Karila et al., 2010 ; Le Gal et al., 2016 ; Rand et al., 2013). L'activité physique est définie par les travaux de Piggin (2020), et « implique des personnes qui bougent, agissent et se produisent dans des espaces et des contextes culturellement spécifiques, et qui sont influencées par un ensemble unique d'intérêts, d'émotions, d'idées, d'instructions et de relations ». Ainsi, l'activité physique regroupe le sport, l'activité physique adaptée et les activités de loisirs (Savage et al., 2014). Ses bénéfices impactent les trois dimensions de la santé d'après sa définition par l'Organisation Mondiale de la Santé (OMS) : « La santé est un état de complet bien-être physique, mental et social et ne consiste pas seulement en une absence de maladie ou d'infirmité ». Les recommandations en activité physique spécifiques aux personnes atteintes de mucoviscidose regroupent de pratiquer une activité physique et de loisirs dans le but de maintenir sa condition physique (Reychler et al., 2009), avec des exercices comme l'entraînement fractionné de haute intensité, la course à pied, le squash, la natation, le cyclisme, etc. (Saynor et al., 2023). Dans l'idéal, l'accompagnement des personnes en activité physique doit se faire sous la forme d'une approche multidisciplinaire et en tenant compte des caractéristiques individuels (e.g., facteurs physiologiques, psychologiques et logistiques) dans l'optique de mettre en place l'activité physique de manière durable dans le temps (Gruet et al., 2022). L'activité physique apporte la particularité d'être une thérapie non médicamenteuse sans aucun effet secondaire négatif (Radtke et al., 2017), et ne comportant que très peu de contre-indications (i.e., intensité trop vigoureuse pour des personnes atteintes à de graves stades, activité sportive se rapprochant de l'apnée et de la plongée sous-marine). Ces contre-indications

ne sont pas exhaustivement liées à la maladie mais plutôt aux complications annexes qui en découlent (Karila et al., 2010 ; e.g., l'hypertension artérielle pulmonaire non compensée). Elle offre ainsi l'avantage d'être pratiquée par une importante majorité de personnes atteintes de mucoviscidose. Enfin, l'activité physique n'a montré aucun effet néfaste sur les paramètres du VEMS, sur la Capacité Vitale Forcée (CVF) ou sur la consommation maximale en oxygène (VO₂max) (Le Gal et al., 2016).

Néanmoins, en dépit des nombreux bénéfices apportés par l'activité physique, les patients atteints de mucoviscidose ont une pratique insuffisante au regard des recommandations (Cox et al., 2013 ; Prasad & Cerny, 2002), inférieure à celle de leurs pairs d'âge équivalent (Jantzen et al., 2016 ; Selvadurai and al., 2004) et inférieure en termes d'intensité du niveau de pratique (Burnett et al., 2021). Les barrières à l'activité physique ont majoritairement été étudiées chez les enfants atteints de mucoviscidose, révélant des freins liés à des facteurs influençant négativement l'adhésion à la pratique, tels les symptômes de la maladie et ses exacerbations (Prasad & Cerny, 2002), des barrières internes à l'individu (e.g., l'essoufflement et la fatigue, Gruet, 2018 ; Shelley et al., 2018) et des barrières externes (e.g., traitements chronophages, Swicher & Erickson, 2008). D'autres freins ont été identifiés, liés aux perceptions négatives de l'activité physique des patients mucoviscidose, incluant le manque de soutien des pairs (Moola & Faulkner, 2012), le manque d'installations sportives (Shelley et al., 2018), le manque d'intérêt envers l'activité physique (Prasad & Cerny, 2002 ; Denford et al., 2019c) notamment induit par la vision d'une vie raccourcie suscitant l'envie de profiter (Moola & Faulkner, 2012), et enfin les expériences passées d'activité physique négatives (Denford et al., 2019). Les rares études existant sur la population des adultes montrent des barrières similaires aux enfants (e.g., fatigue), et d'autres spécifiques aux adultes telles les occupations familiales ou professionnelles (White et al., 2007).

Ainsi au regard des connaissances scientifiques actuelles, et de l'augmentation de l'espérance de vie des personnes touchées par la mucoviscidose, il apparaît primordial de mieux identifier les mécanismes d'engagement durable dans l'activité physique chez les patients adultes et de mettre au jour les stratégies de promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée auprès de cette population. Dans cette perspective, l'objectif de ce travail doctoral sera de contribuer à définir des modalités de promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée et de développer des outils concrets permettant de mieux évaluer la motivation pour l'activité physique des patients.

Introduction

Cette thèse s'articule autour de deux parties principales : le cadre théorique général, d'une part, et les contributions empiriques, d'autre part. La première partie concernant le cadre théorique se partagera en trois chapitres. Le premier chapitre fera référence aux bénéfices de l'activité physique chez les patients atteints de mucoviscidose et les recommandations actuelles de pratique relevées dans la littérature scientifique. Le second chapitre aura pour objectif de décrire les barrières et les facilitateurs liés à l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose ; ce chapitre exposera également le concept de balance décisionnelle. Le troisième chapitre s'intéressera aux modèles de promotion de la santé avec un intérêt particulier pour l'approche socio-écologique dans le domaine des activités physiques et sportives. Ce cadre théorique général se conclura sur la présentation de la problématique de ce travail doctoral et de son programme de recherche.

La seconde partie de cette thèse doctorale présentera les cinq études empiriques composant le programme de recherche de cette thèse selon deux axes majeurs. Le premier axe sera consacré à la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose ; il adoptera une approche descriptive et compréhensive et regroupera deux études. Une première étude qualitative sera consacrée à l'identification des barrières et des leviers liés à la pratique de l'activité physique chez les adultes atteints de mucoviscidose. Cette étude constituera une base importante pour la suite du travail doctoral et la création d'outils spécifiques aux personnes majeures atteintes de mucoviscidose. La seconde étude, également qualitative, portera sur l'identification des stratégies d'intervention et des conditions d'efficacité en matière de promotion de l'activité physique adaptée au sein des Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose (CRCM). Elle aura pour objectif de formaliser le fonctionnement de deux centres expérimentés dans le domaine de la promotion de l'activité physique adaptée chez les personnes atteintes de mucoviscidose en France, à partir d'une méthodologie de capitalisation d'expérience. Le second axe sera dédié à la conception d'outils de mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique spécifiques aux personnes atteintes de mucoviscidose et sera composé de trois études. Une première étude (étude 3) portera sur le développement et la validation d'un outil de mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique chez les personnes majeures atteintes de mucoviscidose. Cette étude explicitera notamment les étapes de validation de l'outil MUCO_BDEX (MUCOviscidose _ Balance Décisionnelle à l'EXercice). La quatrième étude est la continuité de l'étude précédente et explicitera le développement de l'outil MUCO_BDEX sous une version numérique, l'application MUCO_BALAD (MUCOviscidose_ BALance Décisionnelle), à destination des personnes atteintes de mucoviscidose majeures, des

professionnels de santé spécialisés dans la mucoviscidose et des chercheurs. Enfin, la cinquième étude sera dédiée au développement et à la validation d'outils de mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique adaptés aux patients mucoviscidose âgés de onze à dix-sept ans.

Une discussion générale sera ensuite réalisée afin de mettre en perspective les résultats obtenus dans ces études au regard des questions posées dans le cadre de ce travail doctoral. Il sera inclus dans cette discussion générale les principaux résultats obtenus, les limites relevées au sein des travaux réalisés et les pistes de recherche envisagées, ainsi que les implications pratiques du programme de recherche.

1^{ERE} PARTIE :

CADRE THEORIQUE

Chapitre 1.

La promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée chez les personnes atteintes de mucoviscidose

La mucoviscidose est une maladie génétique héréditaire qui affecte principalement les systèmes respiratoire, digestif et endocrinien. En France, la mucoviscidose est la maladie génétique grave la plus fréquente, touchant environ 1 naissance sur 4 500 à 5 000 naissances (Burgel et al., 2017). L'objectif de ce chapitre est de présenter le rôle des centres de ressources et de compétences de la mucoviscidose dans la promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée, les bénéfices de la pratique physique ainsi que les recommandations et les conditions d'efficacité en matière de promotion de l'activité physique.

1.1. Le rôle des Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose dans la promotion de l'activité physique

En France, il existe actuellement quarante-sept Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose répartis sur l'ensemble du territoire (source Filière Muco CFTR). Ces centres sont présents dans différentes régions et villes, afin d'assurer une proximité géographique pour les patients atteints de mucoviscidose. La majorité de ces centres sont mixtes, c'est-à-dire qu'ils prennent en charge à la fois les enfants et les adultes atteints de mucoviscidose. Certains sont spécifiquement dédiés à la prise en charge des enfants, et proposent des services adaptés aux besoins des enfants et des adolescents. Enfin, d'autres centres sont exclusivement axés sur la prise en charge des adultes.

Ces centres spécialisés sont des références dans la prise en charge de la mucoviscidose en France. Ils jouent un rôle essentiel dans l'évaluation des patients, la mise en place des traitements appropriés, le suivi régulier, l'éducation thérapeutique, la recherche clinique et l'amélioration des pratiques médicales. Ils contribuent ainsi à optimiser la qualité de vie et l'espérance de vie des personnes atteintes de mucoviscidose. Ils travaillent également en étroite collaboration avec les autres acteurs du réseau de soins de la mucoviscidose, tels que les centres de transplantation pulmonaire et les associations de patients. Les personnes atteintes de mucoviscidose ont des rendez-vous réguliers dans ces centres. Un bilan annuel est réalisé,

consistant en une évaluation médicale complète pour surveiller l'état de santé général et repérer le plus précocement possible tout changement dans la fonction pulmonaire et ainsi ajuster le traitement en conséquence. S'il peut exister quelques disparités en fonction des centres, le bilan annuel est généralement composé d'une évaluation de la fonction pulmonaire via spirométrie, de radiographies thoraciques pour contrôler les poumons et détecter les infections, analyses sanguines afin de contrôler les marqueurs de la santé générale comme les niveaux de glucose, d'électrolytes, de glucose et autre, et même de tests d'évaluations fonctionnelles comme le test de marche de 6 minutes afin d'avoir une estimation des capacités aérobiques et durables des personnes. Ces tests annuels sont complétés par des examens trimestriels. Ces derniers sont généralement constitués d'un temps d'échange avec le médecin et d'une analyse de la fonction pulmonaire, et peuvent être complétés si l'état de santé de la personne le requiert. Ces examens permettent d'avoir un suivi des patients, et une évolution de leur état de santé, dans un but de prise en charge optimal et personnalisé.

Les équipes médicales œuvrant au sein de ces centres sont pluridisciplinaires et travaillent en étroite collaboration. Chacun d'entre eux participe à l'élaboration du parcours de soin des patients, et donc à la promotion de l'activité physique chacun à leur niveau. Les médecins vont pouvoir évaluer l'état de santé des personnes, et ainsi donner leur aval ou non pour la pratique physique. Ils pourront également fixer des recommandations personnalisées en fonction des capacités cardio-respiratoires, comme la pratique avec oxygène ou avec des seuils maximaux à ne pas dépasser. Les infirmiers coordinateurs joueront également un rôle dans la promotion de l'activité physique en aiguillant les personnes vers les professionnels du centre et en dehors. Les kinésithérapeutes peuvent avoir un rôle majeur dans la promotion de l'activité physique, notamment si les centres sont dépourvus d'enseignants en activité physique adaptée.

Ainsi, ces centres spécialisés sont des lieux clés à la promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée auprès des personnes atteintes de mucoviscidose non seulement de par leur constitution et leur fonctionnement, mais également pour leur place majeure dans le quotidien des patients.

1.2. Les bénéfices de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose

Les bénéfices des patients atteints de mucoviscidose liés à l'activité physique concernent (a) les bénéfices physiologiques de l'activité physique, (b) les bénéfices psychosociaux de l'activité physique et (c) les bénéfices médicaux de l'activité physique.

1.2.1. Les bénéfices physiologiques de l'activité physique

D'un point de vue physiologique, la pratique d'une activité physique régulière de type aérobie ou anaérobie a un effet positif sur le développement des fonctions pulmonaires (Bradley & Moran, 2008), dès 30 minutes par jour d'activité physique d'intensité modérée à élevée (Cox et al., 2016). Sur le long terme, les effets bénéfiques de l'activité physique sont observables sur les fonctions pulmonaires avec notamment l'observation d'un pourcentage de déclin du Volume Expiratoire Maximal par Seconde ralenti pour les patients pratiquant une activité physique régulière, *a contrario* des patients ne pratiquant pas d'activité physique (Schneiderman et al., 2014). Ces bénéfices sur la fonction pulmonaire sont des atouts majeurs de l'activité physique, puisque le déclin de la fonction pulmonaire est la première cause de mortalité chez les personnes atteintes de mucoviscidose.

L'activité physique joue également un rôle bénéfique sur les capacités aérobiques et anaérobiques (Klijn et al., 2004), améliorant ainsi la capacité d'exercice, les fonctions endurantes et l'augmentation de la masse musculaire (Bradley & Moran, 2008 ; Gruet et al., 2013, 2016). Des travaux de la dernière décennie ont d'ailleurs montré la corrélation entre une masse musculaire importante et la réduction du risque de mortalité (Fogarty et al., 2012). De la même manière, l'activité physique impacte de manière positive la densité minérale osseuse et améliore les aspects nutritionnels ainsi que la prise de poids (Collaco et al., 2014 ; Gennari & Fuchs, 2016). Tous ces bénéfices permettent d'aider à améliorer et / ou stabiliser l'indice de masse corporelle, directement relié à l'espérance et la qualité de vie (Hebestreit et al., 2015).

Pour terminer, la pratique d'une activité physique régulière et inscrite dans le long terme permet d'améliorer l'état de santé physique général des patients ou de le maintenir à un stade optimum, avec notamment une diminution de la fatigue, à la fois générale et physique et induite par la mucoviscidose (Orava et al., 2018), une augmentation de l'énergie (Swisher & Erickson, 2008) et un allongement de l'espérance de vie. Ainsi, l'espérance de vie est positivement

corrélée avec le Volume Expiratoire Maximal par Seconde (Hulzebos et al., 2014 ; Nixon et al., 1992) et le niveau en activité physique (figure n°1, Van de Weert-Van et al., 2014).

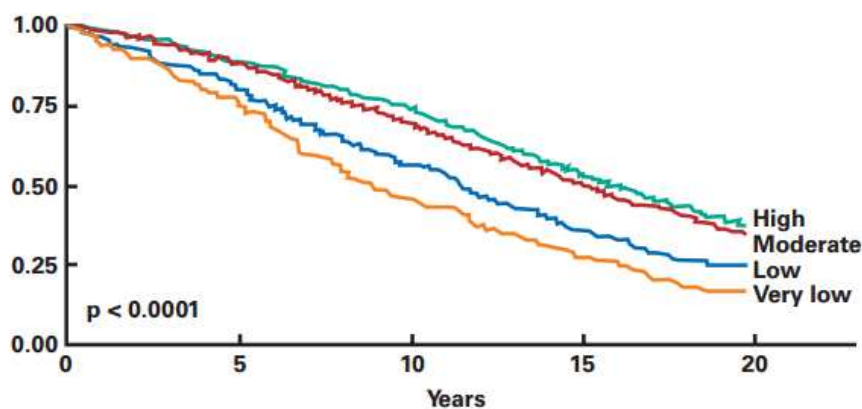


Figure n°1 : Survie globale en fonction du niveau d'activité physique, cohorte de 2 386 sujets mucoviscidose, Van de Weert-Van et al., 2014.

1.2.2. Les bénéfices psychosociaux de l'activité physique

Du côté des bénéfices psychologiques, il a été constaté que l'activité physique joue un rôle bénéfique sur la qualité de vie chez les personnes atteintes de mucoviscidose (Hebestreit et al., 2015 ; Klijn et al., 2004 ; Radtke et al., 2017). Cela s'explique notamment par les bénéfices physiologiques apportés par l'activité physique, qui se répercute par une plus grande capacité d'exercice et ainsi par plus de facilité à réaliser les activités de la vie quotidienne.

De la même manière, l'activité physique participe à renforcer les sentiments de bien-être général et d'estime de soi (De Jong et al., 1997 ; Orenstein et al., 1989 ; Strauss et al., 1987). Pratiquée spécifiquement dans le cadre de thérapie dans le parcours de soin du patient mucoviscidose, l'activité physique développe le sentiment de prise en charge de la maladie chez les personnes atteintes de mucoviscidose (i.e., perception de contrôle), rendant ainsi les patients acteurs de leur prise en charge et favorisant l'adhésion à la pratique physique sur du long terme (Prasad & Cerny, 2002).

Enfin, la pratique régulière d'une activité physique permet chez les personnes atteintes de mucoviscidose de développer et de renforcer les liens sociaux (Swisher & Erickson, 2008), et d'augmenter la pratique d'activités physiques récréatives avec les pairs (Fereday et al., 2009).

1.2.3. Les bénéfices médicaux de l'activité physique

Des bénéfices d'ordres médicaux ont été relevés suite à la pratique d'une activité physique. En effet, il a été constaté que les patients adultes pratiquant une activité physique quotidienne régulière (e.g., environ 30 minutes par jour d'activité physique d'intensité modérée à vigoureuse) étaient hospitalisés moins souvent ainsi que sur des périodes moins longues (Cox et al., 2015b ; Hebestreit et al., 2015 ; Urquhart et al., 2012).

De même, la hausse de l'espérance de vie chez les personnes atteintes de mucoviscidose s'accompagne d'un accroissement de l'apparition de comorbidités avec l'avancée en âge (i.e., affections liées au mode de vie et à l'âge comme l'hypertension, l'apparition de tumeur maligne, de cas de diabète, etc. ; Simmonds et al., 2009). La pratique d'une activité physique régulière permet de réduire l'apparition de celles-ci (Cox et al., 2015b ; Urquhart et al., 2012).

1.3. Les recommandations en activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose

Les programmes d'activité physique se sont largement développés au cours de ces dernières décennies, comme nous le montre la méta-analyse de Le Gal et al. (2016) qui recense et compare dix-sept protocoles, dont deux spécifiques aux adultes (Donà et al., 2006 ; Gruber et al., 2014) et trois aux adolescents (dès 12 ans) et adultes (Hebestreit et al., 2009 ; Schmidt et al., 2011 ; Turchetta et al., 2004). Ces protocoles recommandent des exercices combinant force et aérobie (Donà et al., 2006) ou sur le modèle de l'intervalle training (Gruber et al., 2014) pour améliorer la capacité d'exercice. Une étude récente menée en 2022 par Saynor et ses collaborateurs montre également que des activités aérobiques quotidiennes d'une durée d'au moins vingt minutes consécutives avec une intensité amenant à un essoufflement modéré étaient plus efficaces que les thérapies traditionnelles de kinésithérapie respiratoire dans le désencombrement des voies respiratoires. Des activités comme la course à pied, la natation, le cyclisme ou encore l'entraînement fractionné de haute intensité sont notamment mises en avant.

Malgré les efforts réalisés ces dernières années pour tendre vers des recommandations normalisées de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, il n'existe à ce jour aucune régularisation au sein des centres spécialisés français, ni même dans les centres spécialisés d'autres pays (Cox et al., 2014 en Australie ; Denford et al., 2020 au Royaume-Uni), créant de ce fait une importante hétérogénéité.

1.4. Les conditions d'efficacité des interventions en activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose

Si aucune recommandation officielle n'existe sur l'activité physique adaptée au sein des centres spécialisés, la revue de la littérature menée par Cox et al. (2014) recommande des programmes à domicile avec un suivi annuel, et les retours des professionnels de santé étudiés par Denford et al., (2019b) mettent l'accent sur les facteurs plaisir et salutaires de l'activité physique (Reychler et al., 2009). La notion de plaisir est fondamentale à prendre en compte afin de renforcer la motivation autodéterminée de chaque patient, et ainsi optimiser les chances de maintenir l'activité physique sur du long terme. Les recommandations émises mettent également l'accent sur un enseignement individualisé et adapté aux objectifs, besoins, préférences, motivations et attentes du patient, avec un suivi et un rappel récurrent des bénéfices découlant d'une pratique régulière en activité physique. Enfin, rendre l'activité physique « normale » et non plus simplement médicale permettrait de l'inscrire dans la vie quotidienne des patients, en y sensibilisant les individus au sein d'institutions « normales » (i.e., écoles, club sportifs) pour insister sur la pratique d'une AP comme une habitude et non comme un traitement.

Les récents travaux de Gruet et ses collaborateurs (2022) mettent en lumière l'importance de la qualité et de la spécificité de l'exercice contre la seule réalisation d'activité physique de manière quantitative. Ils insistent également sur l'intérêt de sensibiliser à l'activité physique les personnes atteintes de mucoviscidose dès leur plus jeune âge, afin de favoriser l'ancrage de ces comportements positifs sur le long terme. Ces travaux soulignent aussi de ne pas considérer uniquement les facteurs individuels (i.e., objectifs et préférences en matière d'activité physique) mais d'intégrer les facteurs interpersonnels (i.e., la famille, les amis) et environnementaux (i.e., disponibilité des installations).

1.5. Synthèse du Chapitre 1

Le chapitre 1 traite de la promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée chez les personnes atteintes de mucoviscidose. Il met en évidence le rôle des Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose dans cette promotion, et de l'impact de l'AP chez les personnes atteintes de mucoviscidose. Les bénéfices de l'activité physique chez ces personnes sont retrouvés sur différents aspects : physiologiques, psychosociaux et médicaux. Les recommandations en matière d'activité physique pour les personnes atteintes de mucoviscidose sont discutées, soulignant l'importance des programmes d'exercices combinant force et aérobie, ainsi que des activités comme la course à pied, la natation et le cyclisme. Bien que les recommandations normalisées soient en développement, l'hétérogénéité persiste. Les conditions d'efficacité des interventions en activité physique sont abordées, notamment l'importance du plaisir dans la pratique, l'individualisation des programmes, le suivi régulier et la sensibilisation dès le jeune âge. La qualité et la spécificité de l'exercice sont mises en avant, ainsi que l'inclusion des facteurs interpersonnels et environnementaux.

Chapitre 2.

Les perceptions de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose

Ce chapitre se penche sur les perceptions de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose et sur la manière dont elles interfèrent dans la pratique physique régulière. Il abordera le modèle transthéorique du changement de comportement, développé par Prochaska et DiClemente (1983), qui offre un cadre théorique pour comprendre comment les individus passent par différentes étapes lorsqu'ils envisagent de modifier leur comportement. Enfin, la balance décisionnelle sera étudiée comme un élément crucial dans ce processus, où les avantages et les inconvénients de l'activité physique sont minutieusement pesés.

2.1. Les perceptions de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose

Les personnes atteintes de mucoviscidose ont des perceptions de l'activité physique différentes de la population générale en raison des conséquences de leur maladie. Ces perceptions évoluent également en fonction de l'âge, en raison des contraintes spécifiques liées aux stades de l'enfance, de l'adolescence et de l'âge adulte.

2.1.1. Chez les enfants et les adolescents

Jusqu'en 2010, la plupart des études se concentraient sur les enfants atteints de mucoviscidose. Récemment, Denford et ses collaborateurs (2020b) ont recensé sept études qualitatives portant sur les motifs, les freins et les leviers à l'activité physique chez les jeunes de 4 à 18 ans atteints de mucoviscidose. Neuf thèmes principaux ont ainsi été identifiés : (1) les perceptions de l'activité physique (positives et négatives), (2) la valeur attribuée à l'activité physique (forte ou faible), (3) les influences sociales (rôle des parents, des professionnels de santé et des groupes d'amis), (4) les priorités concurrentes, (5) les fluctuations de santé, (6) le sentiment de normalité, (7) les croyances en matière de contrôle de la maladie, (8) les stratégies

d'adaptation mise en place pour tendre à pratiquer régulièrement une AP, et (9) la disponibilité des installations. A partir de cette classification, il est possible de distinguer, d'une part, les barrières à l'activité physique, et d'autre part les facilitateurs de l'activité physique, et de les classer en fonction de leur nature : physique, psychologique et environnementale.

Les barrières à la pratiques physiques chez les enfants et les adolescents atteints de mucoviscidose

Les barrières à l'activité physique comprenaient (a) les obstacles physiques tels que les perceptions physiques négatives causées par les symptômes de la mucoviscidose (e.g., diminution de la capacité d'exercice, perte de la capacité aérobie et anaérobie) et les fluctuations de santé qui en découlent (e.g., fatigue), (b) les barrières psychologiques telles que les perceptions négatives de l'exercice, la faible valeur attribuée à l'activité physique et la conscience de soi exacerbée par le sentiment d'être différent et de ne pas maîtriser sa maladie, et (c) les barrières environnementales telles que les influences sociales négatives (e.g., comparaisons sociales négatives, stigmatisation sociale), le manque de soutien social, le manque de temps et le manque d'accès à des installations diversifiées.

Les facilitateurs à la pratiques physiques chez les enfants et les adolescents atteints de mucoviscidose

Parmi les facilitateurs de l'activité physique (Denford et al., 2020b ; Prasad & Cerny, 2002), on retrouve (a) les facilitateurs physiques tels que l'amélioration de l'état de santé général et la gestion des maladies, (b) les facilitateurs psychologiques tels que les perceptions positives de l'activité physique et le sentiment de contrôlabilité ou de normalité, et (c) les facilitateurs environnementaux tels que les influences sociales positives, l'accès à des installations diversifiées et des programmes d'activité physique de haute qualité. Enfin, une étude menée en 2022 par Shelley et ses collaborateurs montrent l'influence positive sur le comportement en activité physique des enseignants en activités physiques adaptées spécialisés dans la mucoviscidose et de la famille, notamment pendant l'adolescence.

2.1.2. Chez les adultes

Des études plus récentes commencent à s'intéresser aux perceptions de l'activité physique chez les adultes atteints de mucoviscidose.

Les barrières à l'activité physique chez les adultes atteints de mucoviscidose

On retrouve des barrières communes à la population générale, comme le manque de temps et d'autodiscipline, et les activités concurrentes (Burnett et al., 2021), ou encore la météo et le manque de confiance en soi liée à l'exercice (Hurley et al., 2021). D'autres barrières sont plus spécifiques à l'état de santé, comme la fatigue, le manque d'énergie et de bonne santé (Burnett et al., 2021 ; Hurley et al., 2021), ainsi que l'ensemble des symptômes respiratoires (Shelley et al., 2018).

Les facilitateurs à l'activité physique chez les adultes atteints de mucoviscidose

De la même manière, des facilitateurs similaires à la population générale ont été mis en avant, comme le plaisir, le bien-être, l'amélioration du sentiment de compétence, la régulation des affects (Burnett et al., 2021 ; Hurley et al., 2021). Des facilitateurs spécifiques à l'état de santé ont également été mis en avant, avec une diminution de la fatigue et une amélioration de l'élimination des crachats (Hurley et al., 2021). De même, l'activité physique représentait une opportunité de ralentir le rythme du déclin de la santé générale engendré par la mucoviscidose et de gérer les symptômes associés. Enfin, il a été notifié une préférence pour les programmes d'activité physique à domicile par rapport aux programmes en salle de sport ou en milieu hospitalier (Hurley et al., 2021).

Pour mieux explorer la manière dont les individus abordent et embrassent les changements de comportement, nous pouvons nous tourner vers le modèle transthéorique. Ce cadre conceptuel offre des perspectives éclairantes sur les différentes étapes et facteurs qui influencent le processus de modification comportementale.

2.2. Le modèle transthéorique des changements de comportement

Le modèle transthéorique des changements de comportements (Prochaska & Di Clemente, 1983) décrit les étapes par lesquelles les individus passent lorsqu'ils cherchent à changer un comportement identifié comme problématique ou à adopter un comportement sain. Ce modèle théorique repose sur cinq stades (figure n°2), représentant chacun une dimension temporelle spécifique permettant de comprendre avec précision quand ce changement est au plus près de se produire.

- (1) **Pré-contemplation** : les personnes ne sont pas conscientes ou n'admettent pas qu'elles ont un problème de comportement et n'ont pas l'intention de le changer lors des six prochains mois. Elles peuvent être dans le déni ou minimiser le comportement problématique.
- (2) **Contemplation** : aussi appelé stade de réflexion, les personnes prennent conscience du comportement problématique et commencent à envisager son changement lors des six prochains mois. Elles évaluent les avantages et les inconvénients du changement et de la situation actuelle, et peuvent éprouver de l'ambivalence quant à leur capacité à changer.
- (3) **Préparation** : les personnes ont l'intention de changer leur comportement dans un avenir proche et commencent à prendre des mesures concrètes en vue du changement. Elles peuvent chercher des informations, fixer des objectifs et se préparer à la fois sur les plans psychologique et physique à modifier leur comportement. Ce stade représente également la ou les tentatives pour essayer de changer le comportement identifié comme problématique.
- (4) **Action** : les personnes mettent en œuvre activement des stratégies pour modifier leur comportement problématique ou adopter un mode de vie sain. Elles prennent des mesures concrètes et visibles pour changer et acquièrent de nouvelles compétences et habitudes depuis moins de six mois.
- (5) **Maintien** : le comportement souhaité a été adopté, et les personnes doivent continuer à faire des efforts pour maintenir le nouveau comportement sur le long terme (au-delà de six mois) et éviter de revenir à leur ancien comportement.

En plus de ces étapes, le modèle admet la possibilité de rechutes (i.e., abandon du comportement sain après l'étape de maintien), qui sont considérées comme partie intégrante du processus et peuvent être une opportunité d'apprentissage et de réajustement des stratégies.

Le modèle transthéorique met en évidence que le changement de comportement est un processus progressif et dynamique, et que les individus peuvent se trouver à différentes étapes à un moment donné. Il souligne également l'importance de l'auto-efficacité, de l'environnement social et des stratégies d'accompagnement dans la réussite du changement de comportement. Ce modèle est utilisé dans divers domaines de la santé, tels que le sevrage tabagique, la gestion du poids, la prévention des maladies, et bien sûr, la pratique de l'activité physique.

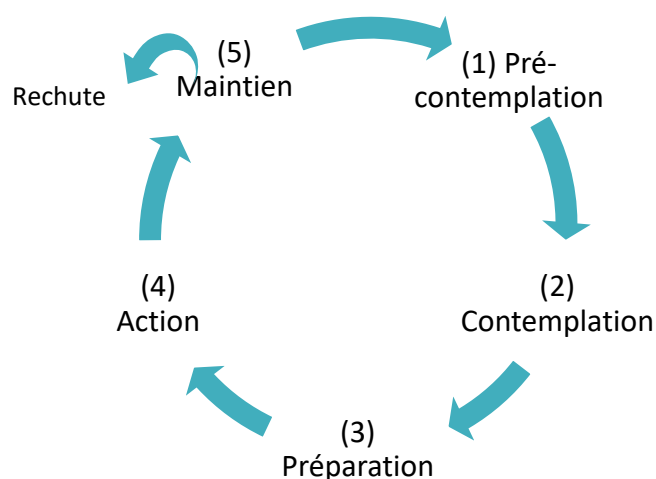


Figure n°2 : Modèle transthéorique du changement de comportement, d'après Prochaska & Diclemente (1983).

Enfin, ce modèle repose sur quatre construits qui interagissent pour aider à comprendre comment les individus envisagent, entreprennent et maintiennent des changements comportementaux (Burkholder & Nigg, 2002). Le premier construit est celui des étapes de changement, visant à identifier les différentes phases pour changer un comportement. Le second construit est celui des processus de changement et englobe les stratégies mentales et comportementales mises en place pour progresser d'une étape à une autre dans le processus de changement. Il regroupe les processus de changement cognitifs (e.g., la prise de conscience, la réévaluation des croyances) et comportementaux (e.g., l'aide sociale, la substitution d'activités). Le troisième construit concerne les niveaux de décision et fait référence à la manière dont le changement est considéré par les individus et les décisions qui en découlent. On retrouve les décisions dites « affectives » (i.e., centrées sur les émotions), « comportementales » (i.e., centrées sur les actions) et « cognitives » (i.e., centrées sur la réflexion rationnelle). Enfin, le quatrième construit est celui de l'équilibre décisionnel, aussi appelé balance décisionnelle, et fait référence à l'ambivalence qu'il existe entre les avantages perçus du comportement actuel et ceux du comportement souhaité. Lorsque l'équilibre penche en faveur du changement, les individus sont plus enclins à passer à l'action.

2.3. Le rôle de la balance décisionnelle dans les comportements de santé

La balance décisionnelle, également connue sous le nom de balance bénéfices-risques, est un construit décrivant le processus de prise de décision dans des situations où une personne est confrontée à des choix difficiles, notamment dans des contextes où les avantages et les inconvénients d'une décision sont perçus de manière ambivalente (Janis & Mann, 1977). Selon ce construit, lorsqu'une personne est confrontée à une décision, elle évalue les différentes options en pesant les bénéfices potentiels de chaque option par rapport aux coûts ou aux risques associés (figure n°3). Les avantages et les inconvénients sont évalués et pondérés pour aider à la décision finale. Ils sont souvent subjectifs et basés sur les perceptions individuelles.

Dans le modèle de la balance décisionnelle, les avantages et les inconvénients sont représentés sous la forme d'une balance avec deux plateaux, où chaque option est évaluée en fonction de sa contribution positive (i.e., les avantages, sur un plateau) et négative (i.e., les inconvénients, sur le second plateau) perçue. Le choix final est influencé par l'équilibre perçu entre les deux côtés de la balance. Si les avantages perçus d'une décision l'emportent sur les inconvénients, la personne sera plus encline à choisir cette option. À l'inverse, si les inconvénients perçus sont plus lourds que les avantages, la personne sera moins susceptible de choisir cette décision.

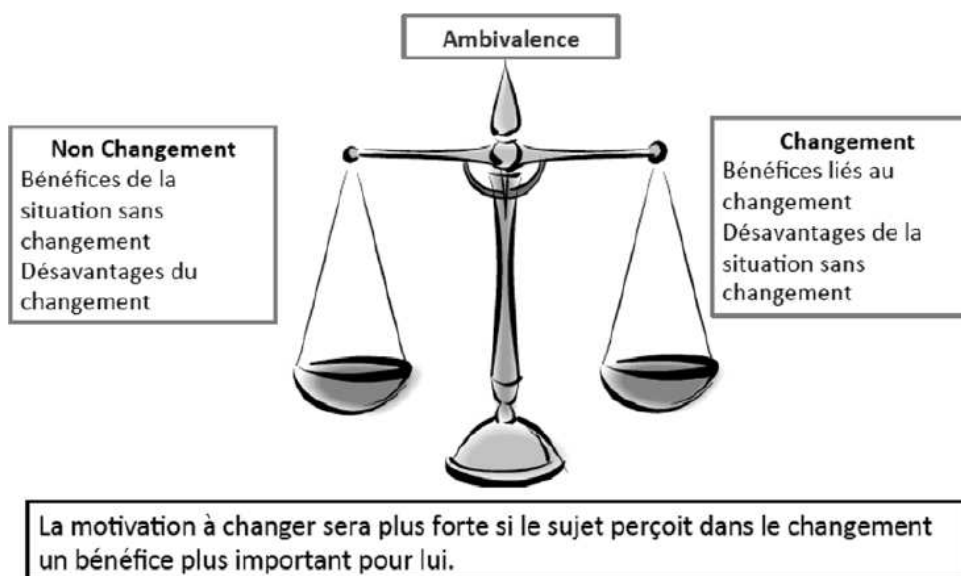


Figure n°3 : Représentation de la balance décisionnelle du modèle de Janis & Mann (1977), illustrée dans l'étude de Satge et al., 2013.

Balance décisionnelle et activité physique

La balance décisionnelle a des applications dans de nombreux domaines, notamment en psychologie, en économie, en gestion, en santé, et dans le domaine des activités physiques et sportives, pour comprendre comment les individus prennent des décisions et comment les facteurs cognitifs et émotionnels influencent leur choix.

Le concept de balance décisionnelle a été appliqué dans le contexte des activités physiques et sportives par Eeckout et ses collaborateurs en 2013. Ce travail a permis d'examiner les perceptions individuelles des avantages et des inconvénients liés à l'engagement dans l'activité physique. Il aide à comprendre comment les individus évaluent les bénéfices et les coûts de l'activité physique, ce qui peut influencer leur motivation et leur décision de s'engager ou non dans cette pratique.

De la même manière, le modèle d'Eeckout est une représentation visuelle avec d'un côté les avantages de l'activité physique et de l'autre les inconvénients de l'activité physique. L'individu est invité à réfléchir aux avantages et aux inconvénients personnels perçus de l'activité physique et à les noter sur les côtés respectifs de la balance. Ensuite, en fonction de la perception globale des avantages et des inconvénients, l'individu peut visualiser l'équilibre entre les deux côtés et prendre une décision éclairée quant à son engagement dans l'activité physique. Ces mêmes auteurs ont développé et validé une échelle française de mesure de la balance décisionnelle adaptée à la pratique physique dans la population générale, sur la base de celle anglosaxonne de Marcus et ses collaborateurs en 1992.

Ainsi, connaître le stade de changement où se situe le patient mucoviscidose vis-à-vis de ses comportements sédentaires et en activité physique permettrait d'avoir plusieurs objectifs. Tout d'abord, de savoir si le comportement sédentaire est perçu comme problématique, et donc de savoir si le moment est opportun pour modifier ce comportement pour un autre davantage tourné vers l'activité physique. De la même manière, le fait de mesurer le stade de changement donne également des indicateurs sur les éléments présents au sein de la balance décisionnelle, et ainsi sur les freins et les facilitateurs à adopter des habitudes régulières en activité physique. Enfin, pour les sujets étant déjà en phase de « maintien », faire un point sur cette balance décisionnelle permet de limiter le risque de rechute vers un comportement sédentaire.

2.4. Synthèse du Chapitre 2

Le Chapitre 2 explore les perceptions de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, en se concentrant d'abord sur les enfants et les adolescents, puis sur les adultes. Jusqu'en 2010, les études se penchaient principalement sur les enfants et les adolescents. Neuf thèmes clés relatifs aux freins et aux leviers de l'activité physique ont été relevés : perceptions positives/négatives, valeur attribuée à l'activité physique, influences sociales, priorités concurrentes, fluctuations de santé, normalité, contrôle de la maladie, stratégies d'adaptation, installations disponibles. Chez les adultes, des barrières similaires à la population générale sont observées (i.e., manque de temps, manque d'autodiscipline), et d'autres spécifiques liées à la mucoviscidose, comme la fatigue et les symptômes respiratoires. Chez les facilitateurs, on retrouve le plaisir, le bien-être, et l'amélioration du sentiment de compétence.

Le Chapitre 2 présente également le modèle transthéorique du changement, qui explique les étapes de changement, au sein duquel l'équilibre décisionnel (balance bénéfices-risques) joue un rôle crucial en influençant les choix basés sur les avantages et les inconvénients perçus. Dans le domaine de l'activité physique, le modèle transthéorique est utile pour comprendre comment les individus abordent le changement comportemental. Il met en évidence l'importance de l'auto-efficacité, de l'environnement social et des stratégies d'accompagnement.

Chapitre 3.

Modèles de promotion de la santé et activité physique : le choix de l'approche socio-écologique

Ce chapitre aborde la santé et ses multiples composantes, afin d'en donner une définition la plus complète et holistique. Il y sera également étudié les différents modèles de promotion de la santé, en s'intéressant plus particulièrement au modèle socio-écologique et à son adaptation dans le domaine des activités physiques et sportives.

3.1. Conceptualisation de la santé

3.1.1. Les déterminants de la santé

La santé est conditionnée par de multiples déterminants qui interagissent de manière complexe pour construire l'état de santé et les comportements liés à la santé (Braveman & Gottlieb, 2014 ; Organisation Mondiale de la Santé, 2021). Ces déterminants peuvent être classés selon plusieurs catégories, et se distinguent par leur origine, leur nature et leur influence sur la santé (figure n°4). On retrouve les déterminants sociaux, liés à la structure sociale et aux inégalités (e.g., niveau socio-économique, éducation, statut social), influencent l'accès aux ressources et aux opportunités. Les déterminants comportementaux concernent les choix de vie et les comportements de santé (e.g., alimentation, tabac, alcool, activité physique). Les déterminants environnementaux incluent des facteurs comme la qualité de l'air, de l'eau, la pollution, et les conditions de logement. Les déterminants biologiques et génétiques concernent les facteurs héréditaires et le métabolisme. Les déterminants culturels sont liés aux systèmes de valeurs individuels et aux croyances, tandis que les déterminants économiques comprennent l'emploi, les revenus et le coût des soins de santé. Les déterminants politiques sont influencés par les politiques gouvernementales, les réglementations en matière de santé et les allocations de ressources. Enfin, les déterminants liés aux soins de santé englobent l'accès à des services de qualité, la disponibilité des infrastructures et des professionnels de santé. Ces déterminants sont interconnectés et peuvent se renforcer mutuellement, impactant les opportunités de santé et contribuant aux disparités de santé (Organisation Mondiale de la Santé, 2010). Comprendre et agir sur ces déterminants est essentiel pour promouvoir la santé et réduire les inégalités en matière de santé.

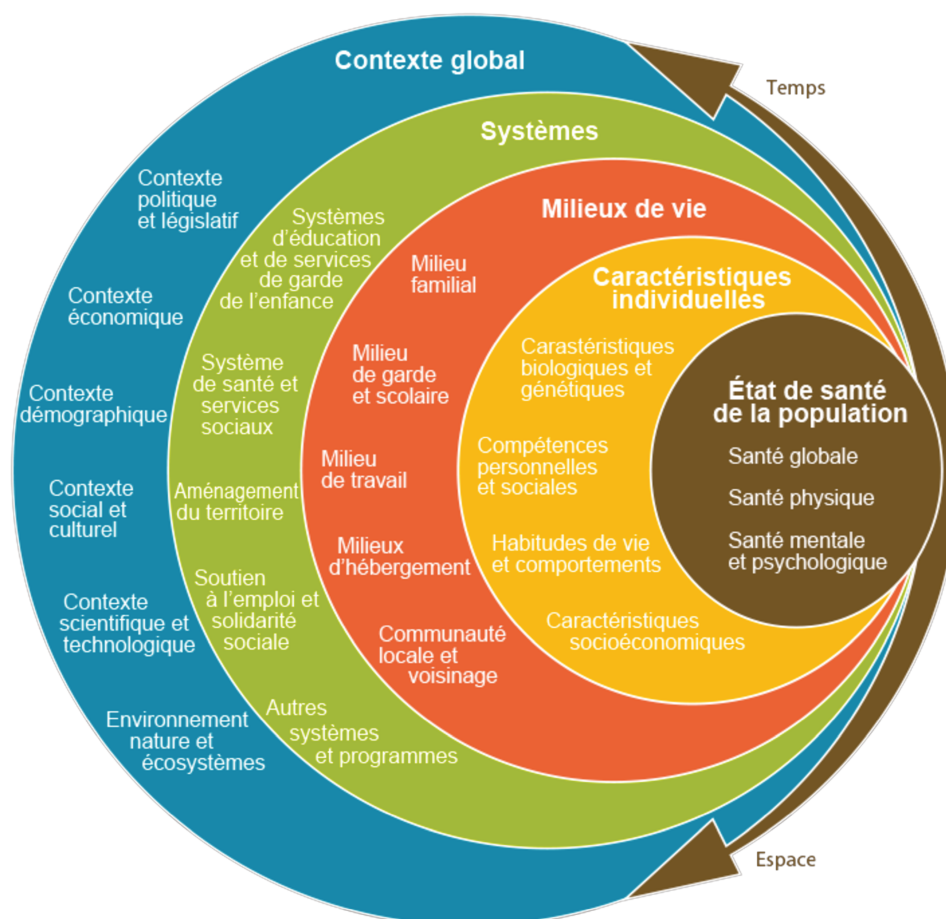


Figure n°4 : Les déterminants de la santé, d'après le ministère de la Santé et des services sociaux du gouvernement du Québec, 2010.

3.1.2. Définition de la santé

Ces déterminants de la santé nous amènent à nous intéresser à la définition de la santé. Complexe, celle-ci a connu d'importantes évolutions avec le temps afin de refléter une compréhension à la fois plus large et holistique de ce concept. En 1946, l'Organisation Mondiale de la Santé a plébiscité une définition de la santé selon laquelle « *La santé est un état de complet bien-être physique, mental et social, et ne consiste pas seulement en une absence de maladie ou d'infirmité* » (Organisation Mondiale de la Santé, 1946). Celle-ci restera pendant de nombreuses années mise en valeur en englobant non seulement l'absence de maladie, mais en appuyant également sur l'importance du bien-être sous trois dimensions : physique, psychologique, et social. L'approche socio-écologique de la santé a par la suite mis l'accent sur le lien étroit entre les individus et leur environnement, à la fois social, culturel et physique, reconnaissant l'influence des déterminants sociaux, économiques, environnementaux et comportementaux (McLeroy et al., 1988).

Enfin, un nouveau consensus a été élaboré lors de la rédaction de la charte d'Ottawa en 1986, et une définition de la santé a été ainsi proposée comme étant « *une ressource de la vie quotidienne et non comme le but de la vie ; il s'agit d'un concept positif mettant en valeur les ressources sociales et individuelles, ainsi que les capacités physiques* » (Organisation Mondiale de la Santé, 1986). Ainsi, la santé devient un concept non plus figé dans le temps mais au sein duquel les individus utilisent leurs ressources personnelles, sociales et leurs capacités physiques afin « *réaliser ses ambitions et satisfaire ses besoins et, d'autre part, évoluer avec le milieu ou s'adapter à celui-ci* » (Organisation Mondiale de la Santé, 1986).

3.2. Les différents modèles de promotion de la santé

Selon Glanz et ses collaborateurs (2008), les modèles de promotion de la santé sont multiples mais ont tous comme but commun de guider la planification, la réalisation et l'évaluation des interventions améliorant la santé et le bien-être des personnes. Chaque modèle de promotion de la santé s'appuie sur des points de vue différents. La diversité de ces modèles permet aux professionnels de la santé d'adopter des approches adaptées à des situations variées, à des populations diverses et à des objectifs spécifiques. Cela permet une flexibilité dans la promotion de la santé et contribue à l'amélioration globale de la santé publique.

Le modèle des croyances de santé (Health Belief Model, Rosenstock, 1974)

Ce modèle met l'accent sur les attitudes et les croyances des populations au sujet de la maladie et des comportements de santé. Il suppose que les personnes mettront en place des mesures pour prévenir ou traiter une maladie si elles sont sensibles de la contracter et que les bénéfices de l'action sont plus importants que les coûts.

Le modèle de l'auto-efficacité (Self-Efficacy Theory, Bandura, 1977)

Ce modèle met en avant la perception des individus sur leurs capacités à réaliser des actions clairement définies pour améliorer leur santé. Il admet que des niveaux jugés élevés d'auto-efficacité sont susceptibles de pousser les individus à adopter des comportements de santé positifs.

Le modèle transthéorique du changement de comportement (Transtheoretical Model, Prochaska & DiClemente, 1983)

Ce modèle suggère que les personnes suivent différentes étapes pour acquérir durablement de nouveaux comportements. Ces étapes sont la pré-contemplation, la contemplation, la préparation, l'action et le maintien, qui ont été davantage explicités dans les chapitres précédents.

Le modèle socio-écologique (McLeroy et al., 1988)

Ce modèle place la santé sous l'influence de facteurs interférant à plusieurs niveaux : individuel, interpersonnel, communautaire, organisationnel et politique. Il admet que les déterminants de la santé sont multidimensionnels et place en son cœur les interactions complexes entre les individus et leur environnement (social et physique).

Le modèle écologique de la santé (Ecological Model of Health, Stokols, 1992)

Ce modèle voit la santé d'un point de vue écologique, c'est-à-dire en distinguant les influences de l'environnement sur la santé à de multiples niveaux, comme l'environnement physique, social et culturel.

Ces modèles proposent des perspectives uniques sur la manière dont les comportements de santé peuvent être influencés. Ces approches ont été largement utilisées pour concevoir et évaluer de manière différente des interventions en promotion de la santé, notamment dans les domaines de la nutrition, de la gestion du stress, du sevrage tabagique ainsi que dans la promotion d'une pratique régulière d'activité physique.

3.3. Le modèle socio-écologique

La décision d'appliquer le modèle socio-écologique à contrario d'un autre modèle de promotion de la santé résultera des particularités des objectifs de l'intervention, des spécificités de la population cible, de la nature du problème de santé à aborder ainsi que des ressources allouées pour traiter cette problématique. Le modèle socio-écologique permet notamment d'aborder les situations via une approche holistique et globale, en prenant en considération les différents niveaux d'influence sur la santé, qu'ils s'agissent de facteurs individuels, collectifs

ou encore environnementaux. La complexité des déterminants de la santé est ainsi prise en compte, et il est possible de comprendre et identifier des leviers d'action pour améliorer la santé sur plusieurs niveaux (Sallis et al., 2008).

Un second atout du modèle socio-écologique est son intérêt pour les interactions entre les individus et leur environnement. Les comportements de santé sont examinés à travers le prisme des facteurs sociaux, environnementaux et comportementaux et leurs interactions les uns avec les autres. De la même manière, en prenant en compte les facteurs communautaires et organisationnels, le modèle socio-écologique met en lumière leur importance et la nécessité de les implémenter dans les programmes de promotion de la santé, aussi bien dans la planification que dans l'exécution des interventions (Stokols, 1992).

Enfin, le modèle socio-écologique apparaît comme particulièrement pertinent pour s'intéresser aux problèmes de santé complexes et persistants en proposant un cadre complet adaptable à différentes populations et contextes socio-culturels. Ce modèle est ainsi fréquemment employé pour traiter les problématiques liées à l'obésité, à la santé mentale, au tabagisme, ou encore aux maladies chroniques. Il permet également d'identifier les inégalités en santé et les déterminants sociaux qui contribuent à ces inégalités, tout en s'adaptant en fonction des caractéristiques de la population et de son environnement (Swinburn et al., 2011).

Dans cette perspective, le modèle socio-écologique apparaît comme un cadre conceptuel puissant dans le domaine de la promotion de la santé. Contrairement aux approches traditionnelles, qui sont centrées sur l'individu, cette approche prend en compte les multiples niveaux d'influence qui composent les comportements de santé et influencés par un large éventail de facteurs qui opèrent à différents niveaux et échelles. On retrouve ainsi cinq niveaux de facteurs, classifiés ci-dessous du plus proche de l'individu au plus éloigné (McLeroy et al., 1988).

- (1) **Le niveau individuel : les facteurs intrapersonnels.** Ce niveau englobe les traits personnels tels que les connaissances, attitudes, croyances, compétences, comportements et caractéristiques de personnalité qui ont le potentiel d'exercer une influence sur la santé.
- (2) **Le niveau interpersonnel : les facteurs interpersonnels.** Ce niveau inclut les liens sociaux, les échanges et les effets mutuels entre les individus, tels que la famille, les amis, les collaborateurs, et autres. Les normes sociales, les modèles de conduite et le soutien social jouent un rôle essentiel dans ce contexte.

- (3) **Le niveau institutionnel : les facteurs institutionnels.** Ce niveau intègre les éléments propres à la communauté où réside l'individu, comprenant des aspects tels que l'accès aux services de santé, les infrastructures, les ressources, les politiques locales ainsi que la cohésion sociale, parmi d'autres éléments.
- (4) **Le niveau organisationnel : les facteurs de la communauté.** Ce niveau implique les institutions et les organisations qui dispensent des services de santé, tels que les établissements de santé, les écoles, les entreprises, etc. Les politiques organisationnelles et les contextes de travail peuvent jouer un rôle crucial dans la promotion de la santé.
- (5) **Le niveau politique et sociétal : les politiques publiques.** Ce niveau englobe les politiques nationales, les systèmes de santé, les lois, les normes culturelles, les valeurs et les éléments économiques et politiques qui exercent une influence sur les comportements liés à la santé à l'échelle de la société.

L'approche socio-écologique admet que ces niveaux d'influence sont en interrelation et se combinent pour modeler les conduites et aboutissements en santé. Il est nécessaire de les considérer et d'adopter une approche holistique intégrant les cadres individuels et environnementaux pour créer des interventions de promotion de la santé efficaces.

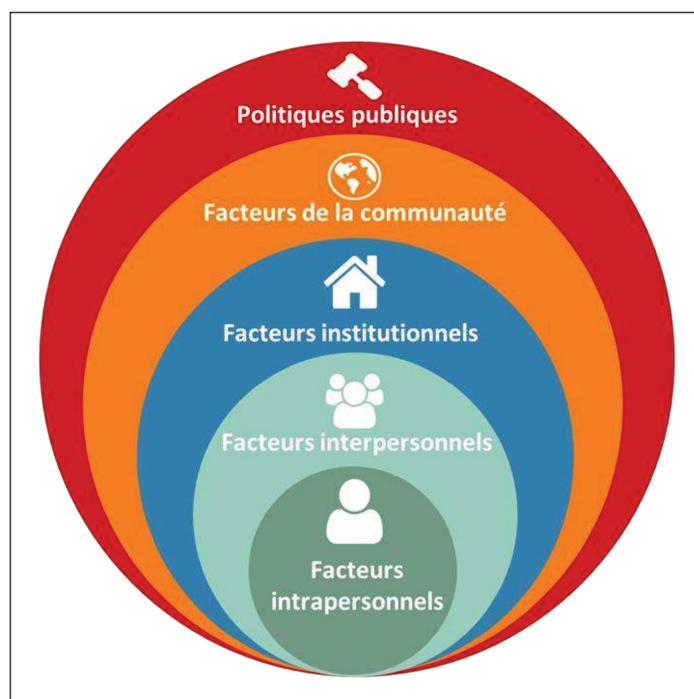


Figure n°5. Modèle socio-écologique, d'après McLeroy et al., 1988.

Le modèle socio-écologique de McLeroy et al. (1988) a longtemps servi de fondement solide pour la compréhension des déterminants de la santé et la mise en place d'interventions de promotion de la santé. Cependant, l'évolution constante de la recherche en santé et l'impératif d'optimisation des ressources nous poussent à explorer de nouvelles voies pour maximiser l'impact des interventions de santé publique. C'est dans ce contexte qu'émerge le modèle inversé de l'approche socio-écologique, proposé par Golden et ses collaborateurs en 2015. Ce modèle novateur suscite un intérêt croissant, car il offre une approche plus ciblée pour aborder les déterminants de la santé. Plutôt que de considérer tous les facteurs d'influence comme ayant un impact égal, le modèle inversé se concentre sur l'identification des déterminants les plus influents, ceux qui ont un effet disproportionné sur un comportement de santé donné.

Le modèle inversé de l'approche socio-écologique de Golden et al., 2015

L'idée principale derrière le modèle inversé (figure n°6) est d'optimiser la pertinence des interventions en identifiant les leviers d'action qui ont le plus grand potentiel pour provoquer des changements positifs dans la santé de la population. Cette approche basée sur des données probantes vise à maximiser l'efficacité des ressources allouées à la promotion de la santé et à accroître l'impact des programmes de prévention.

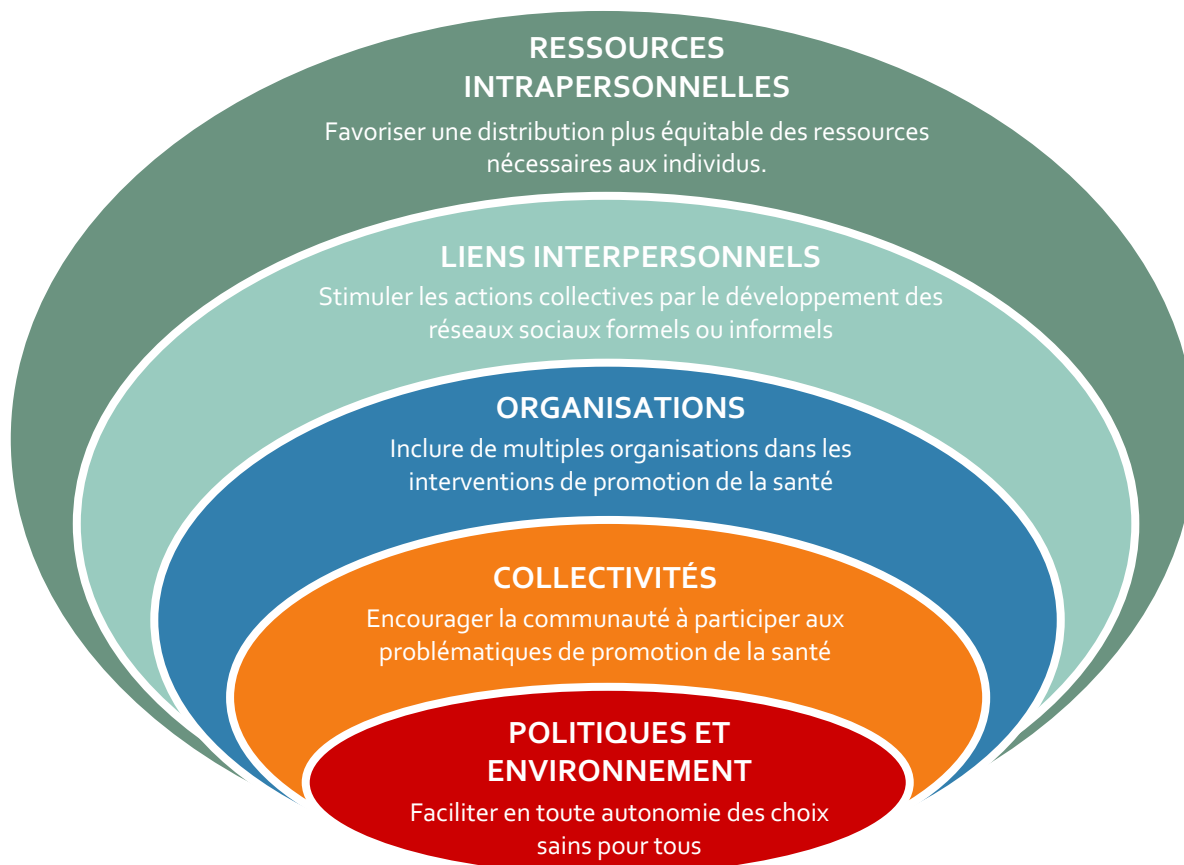


Figure n°6. Modèle socio-écologique inversé, d'après Golden et al., 2015.

Cette approche inversée place les politiques et l'environnement au cœur des choix et des décisions de la population, déterminant alors l'accès aux ressources ou l'exposition aux risques. Les politiques sont conçues et étendues sur différents niveaux de pouvoir, touchant l'ensemble des milieux de vie qui la compose, et pouvant être impliquées comme levier d'action pour proposer des conditions optimales de promotion de la santé. Ainsi, des environnements et des politiques facilitant les choix de comportements sains pour la santé (e.g. lois sur l'assurance maladie, parcs et espaces verts, services de transport) favorisent les actions collective et individuelle de santé. Il est donc essentiel d'attirer l'attention sur les causes environnementales du comportement pour permettre l'identification des interventions susceptibles de les modifier.

3.4. L'influence de l'approche socio-écologique dans le domaine des activités physiques et sportives

L'activité physique a été pendant très longtemps étudiée uniquement dans son cadre récréatif, le champ des loisirs. Or, elle est pratiquée dans divers domaines, pouvant être délimités par le modèle SLOTH (Pratt et al., 2004) : sommeil, temps libre, occupation, transport et activités à domicile. La fréquence de l'activité dans chaque domaine peut varier considérablement en fonction des individus, et peut être favorisée par les politiques publiques et l'environnement. Des corrélats environnementaux de l'activité physique ont été mis en évidence (Bauman et al., 2012), comme l'aménagement du quartier (i.e., la sécurité, l'esthétisme, les aspects piétonniers, la connectivité des rues), reflétant ainsi l'importance de la place de l'environnement et des politiques publiques dans la promotion de comportements favorables à la santé. De ce fait, des partenariats intersectoriels sont à privilégier pour favoriser la pratique d'activité physique, notamment par le biais des environnements et des politiques.

3.4.1. Influence des facteurs environnementaux et sociaux

L'équipe de Booth et ses collaborateurs a proposé en 2001 un modèle initial mettant en avant l'importance des facteurs environnementaux et sociaux dans la prise de décision en matière d'alimentation et d'activité physique (Booth et al., 2001). Il a été largement utilisé dans le domaine de la nutrition et de la santé publique pour orienter les politiques et les interventions visant à améliorer la santé de la population.

Ce modèle suggère que les choix alimentaires et les niveaux d'activité physique des individus sont fortement influencés par leur environnement et la société dans laquelle ils vivent. Il met en évidence le rôle des facteurs environnementaux tels que l'accessibilité aux aliments sains, la disponibilité des infrastructures pour l'exercice, ou encore la publicité alimentaire, ainsi que les facteurs sociaux comme les normes culturelles, les influences sociales et les politiques publiques. Le modèle propose également des points d'intervention, appelés "leviers d'action", qui peuvent être utilisés pour influencer positivement les choix alimentaires et l'activité physique. Ces leviers d'action peuvent inclure des changements dans les politiques de santé publique, la sensibilisation du public, la modification de l'environnement bâti (e.g., la création de parcs publics, de pistes cyclables, etc.), et d'autres stratégies visant à encourager des comportements plus sains.

3.4.2. Stratégies de promotion de l'activité physique : Adaptation aux normes sociales et culturelles

Les stratégies de promotion de l'activité physique sont à adapter aux normes sociales, aux contextes et à la culture, tout en englobant les espaces et équipements publics, dont l'urbanisme et le transport, et en veillant à l'équité et à la sécurité des individus (Pratt et al., 2012, 2015). En effet, l'augmentation de la pratique physique est dépendante de plusieurs facteurs, parmi lesquels on retrouve l'efficacité, la continuité et l'évolutivité des interventions cliniques et de santé publique, les politiques environnementales et de soutien, mais également la culture et le contexte du lieu d'action (Pratt et al., 2012).

L'application du modèle socio-écologique au domaine de l'activité physique conserve une approche sur quatre niveaux d'influence pour être efficace, qui sont (a) le niveau intrapersonnel, regroupant les interventions axées sur les soins de santé, (b) le niveau interpersonnel, concernant les stratégies de soutien social non-familial, (c) le niveau communautaire et organisationnel, qui agit via l'éducation, le soutien et toutes les approches informationnelles, comportementales ou environnementales, et enfin (d) le niveau environnemental et politique, avec la création de lieux dédiés à l'activité physique combinés à des politiques de conception urbaine et d'aménagement du territoire (Pratt et al., 2015, figure n°7). Il est alors déterminant d'adapter les stratégies de promotion de la santé aux normes sociales, au contexte et à la culture.

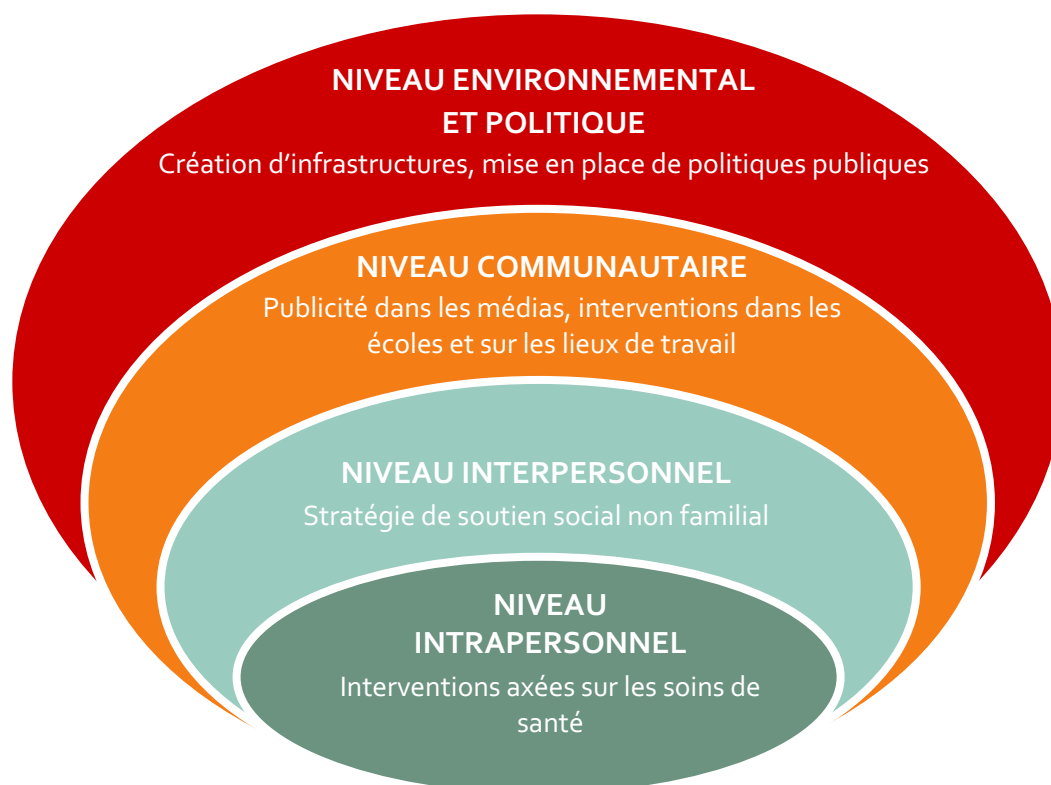


Figure n°7. Modèle socio-écologique adapté au domaine des activités physiques et sportives, d'après Pratt et al., 2015.

3.4.3. Modèles écologiques : Un cadre pour des interventions efficaces

D'après les modèles écologiques, présentant un intérêt croissant comme cadre de travail productif pour promouvoir l'activité physique, les interventions les plus susceptibles d'être efficaces doivent assurer des lieux adéquats à la pratique d'activité physique (i.e., sûrs, attrayants et pratiques), mettre en œuvre des programmes pour encourager l'utilisation de ces lieux et s'appuyer sur les médias et les organismes communautaires pour changer les normes culturelles et sociales (Sallis et al., 2006, figure n°8).

Les facteurs environnementaux apparaissent alors comme primordiaux pour l'activité physique de loisir mais aussi pour celle liée aux transports (e.g., piste cyclable). Quant aux politiques publiques en lien avec l'activité physique, elles se focalisent essentiellement sur la sélection et le financement des investissements dans les ressources d'activité physique et la création ou l'abrogation de règlements pour favoriser la pratique physique. Elles tiennent compte d'autres enjeux politiques, tels le renouvellement urbain et des transports, pour accroître sa productivité, mais également de la balance coûts-efficacité comprenant la valeur monétaire, les nuisances possibles ou encore l'effort nécessaire à la réalisation.

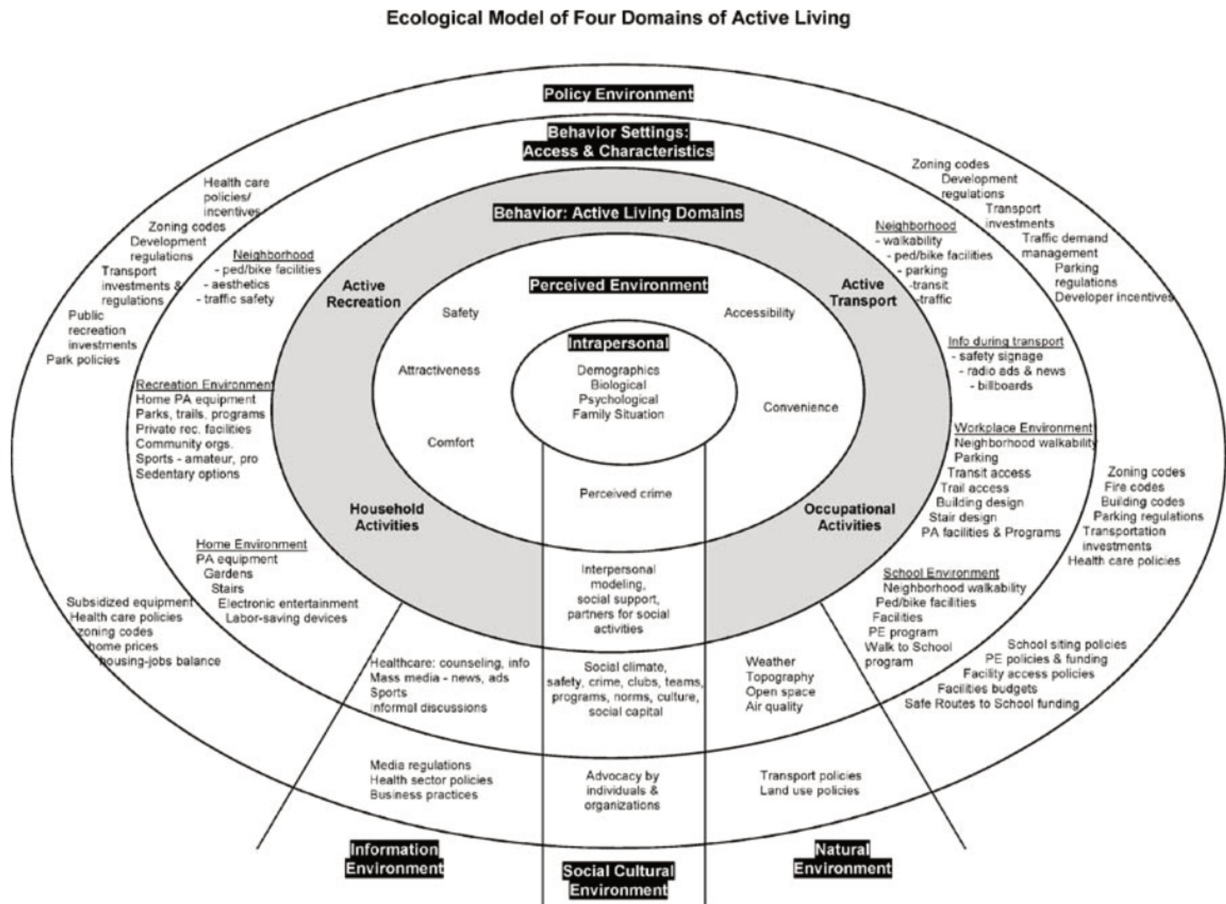


Figure n°8 : Modèle socio-écologique, d'après Sallis et al., 2006.

3.4.4. Impact des interactions sociales : Façonner les comportements à travers le contexte

L'impact des interactions sociales et de l'environnement local sur les comportements de santé est un aspect crucial de la promotion de la santé. Bauman et ses collaborateurs (2015) soulignent que les politiques ciblant des communautés spécifiques, telles que les écoles et les lieux de travail, ont le potentiel d'influencer de manière significative la pratique de l'activité physique. De plus, les valeurs culturelles et les normes sociales véhiculées par ces communautés locales peuvent exercer une influence durable sur les habitudes de l'activité physique des individus qui les fréquentent. C'est pourquoi il est essentiel de concevoir des politiques de promotion de la santé qui prennent en compte ces spécificités et qui ciblent les environnements propres à chaque institution, afin d'orienter de manière optimale les usagers vers des pratiques bénéfiques pour leur santé.

Les interactions sociales et les comportements peuvent également être profondément influencés par les lieux fréquentés par les individus. Comme l'ont souligné Scriven et Garman (2007), les comportements peuvent être inculqués, renforcés ou modifiés en fonction de l'endroit où les gens passent du temps, en particulier lorsqu'ils interagissent avec des personnes partageant des antécédents similaires, des croyances communes et des intérêts partagés. Reconnaître que la santé et les comportements de santé sont fortement influencés par les circonstances, y compris le statut économique et social, les croyances culturelles et morales, ainsi que les facteurs environnementaux et organisationnels (Dooris et al., 2014), peut guider de manière plus efficace les actions de promotion de la santé et contribuer à la mise en œuvre de politiques adaptées aux besoins spécifiques des différentes communautés.

3.5. Synthèse du Chapitre 3

Le Chapitre 3 explore le rôle des modèles de promotion de la santé dans l'influence des comportements de santé, en se concentrant sur l'approche socio-écologique. La santé est un état complexe façonné par de multiples déterminants, tels que les facteurs sociaux, comportementaux, environnementaux, biologiques, culturels, économiques, politiques et liés aux soins de santé. Ces déterminants interagissent et peuvent renforcer mutuellement leurs effets. Comprendre et agir sur ces déterminants est essentiel pour améliorer la santé et réduire les inégalités.

Les modèles de promotion de la santé guident la planification des interventions pour améliorer la santé. Le modèle socio-écologique offre un cadre conceptuel novateur et puissant pour comprendre et agir sur les déterminants complexes de la santé, tels que l'activité physique, en mettant l'accent sur les interactions entre les individus et leur environnement. Elle guide la planification d'interventions de promotion de la santé et d'activité physique efficaces, en prenant en compte les multiples niveaux d'influence et en adaptant les stratégies aux contextes spécifiques.

Chapitre 4.

La capitalisation des expériences : donner la parole aux acteurs de terrain

Ce chapitre a pour objectif de présenter la méthodologie de la capitalisation des expériences et son intérêt dans la promotion de la santé. Il abordera les liens qu'il est possible d'établir avec l'approche socio-écologique à des fins de promotions de l'activité physique.

4.1. La capitalisation des expériences : définition et méthodologie

4.1.1. Définition de la capitalisation des expériences

La méthodologie de la capitalisation des expériences est un processus systématique qui vise à collecter, documenter, analyser et partager les connaissances et les enseignements tirés des expériences passées au sein d'une organisation ou d'un projet. Cette approche est couramment utilisée dans les domaines de la gestion des connaissances, de l'apprentissage organisationnel et de l'amélioration continue. Elle comporte un objectif majeur, la compréhension des expériences passées par le discours de ses acteurs. A cela s'ajoute plusieurs enjeux importants, qui soulignent l'importance de la capitalisation des expériences comme outil essentiel pour favoriser l'apprentissage, l'innovation et l'amélioration continue au sein des organisations. On retrouve ainsi l'apprentissage organisationnel avec l'identification des pratiques positives et négatives au sein des institutions afin d'éviter la répétition d'erreurs et de promouvoir l'amélioration continue (Edmondson, et al., 2001). Cela rejoint un second enjeu, l'amélioration de la qualité, en tirant des enseignements des expériences passées (Defeo & Juran, 2010). Dans cette même dynamique, on retrouve l'innovation avec la stimulation de celle-ci par l'identification de nouvelles opportunités, en comprenant les échecs et en encourageant la créativité (Chesbrough, 2003). Un autre enjeu de la capitalisation des expériences est la gestion et la pérennité des connaissances en permettant la documentation et le partage systématique des connaissances tacites et explicites au sein d'une organisation (Davenport et al., 1998). Enfin, la capitalisation des expériences permet d'identifier et de gérer les risques potentiels en se basant sur les erreurs passées et les scénarios de crise. Cela est particulièrement critique dans des secteurs sensibles tels que l'aviation et la santé (Reason, 2000).

4.1.2. Méthodologie de la capitalisation des expériences

La méthodologie de la capitalisation des expériences comporte généralement plusieurs étapes, bien que leur nombre puisse varier en fonction du contexte et des besoins spécifiques. Voici une description des étapes typiques de cette méthodologie.

- (1) **Identification des expériences à capitaliser.** Cette étape consiste à sélectionner les expériences, les projets ou les initiatives à documenter. Il peut s'agir d'expériences réussies, d'échecs instructifs ou de pratiques novatrices. Cette sélection repose souvent sur des critères précis et une analyse préliminaire, et s'accompagne d'une revue de la littérature approfondie (Davies, 2005).
- (2) **Collecte de données.** Une fois les expériences identifiées, des données pertinentes sont collectées. Cela peut inclure des entretiens, des observations, des documents écrits, des rapports, des témoignages, etc. L'objectif est de recueillir des informations détaillées sur chaque expérience (Booth et al., 2013).
- (3) **Analyse des données.** Les données collectées sont ensuite analysées pour extraire les enseignements clés et les bonnes pratiques. Cette analyse peut impliquer des méthodes qualitatives ou quantitatives, selon la nature des données (Miles & Huberman, 1994).
- (4) **Documentation et diffusion.** Les résultats de l'analyse sont consignés dans des fiches de capitalisation, présentant de manière structurée les informations sur chaque expérience, mettant en évidence les leçons apprises et les recommandations (Garcia et al., 2006). Ces documents sont ensuite partagés avec les parties prenantes pertinentes, qu'il s'agisse de décideurs, de praticiens ou de chercheurs. Cette étape vise à diffuser les connaissances et à favoriser leur utilisation (Schwandt, 2000).

4.2. Implication de la capitalisation des expériences dans la promotion de la santé

L'adoption de cette méthodologie dans le domaine de la promotion de la santé a été progressive et dépendante des contextes nationaux et locaux. Elle s'est développée parallèlement à l'évolution des approches en matière de santé publique, de l'épidémiologie

sociale et de la promotion de la santé. Dans les dernières décennies, de nombreuses organisations et institutions de santé ont intégré la capitalisation des expériences dans leurs pratiques pour améliorer la planification, la mise en œuvre et l'évaluation des programmes de promotion de la santé. Elle est devenue un outil clé pour partager des enseignements, diffuser des bonnes pratiques et favoriser une approche plus intégrée et holistique de la santé.

4.2.1. Historique de la démarche de la capitalisation des expériences

Bien que l'adoption de la capitalisation des expériences dans le domaine de la promotion de la santé n'ait pas de date spécifique, elle continue d'évoluer et de jouer un rôle croissant dans l'amélioration des interventions en santé publique. Les premières Rencontres internationales de la promotion de la santé, organisées par l'Organisation mondiale de la santé à Ottawa en 1986, ont mis en avant l'importance de l'approche holistique de la promotion de la santé, encourageant ainsi la réflexion sur les méthodologies à utiliser pour capitaliser les expériences (Charte d'Ottawa pour la promotion de la santé, 1986). Ensuite, l'adoption croissante d'approches participatives dans la promotion de la santé a favorisé l'émergence de la capitalisation des expériences. La participation communautaire et la reconnaissance de l'expertise des populations locales ont renforcé l'intérêt pour cette méthodologie (Rifkin, 2009). Les recherches sur l'apprentissage organisationnel en santé ont contribué à la diffusion de la capitalisation des expériences. Ces travaux ont souligné l'importance de tirer des enseignements des expériences passées pour améliorer la qualité des soins et des interventions (Edmondson et al., 2001). Enfin, il existe aujourd'hui une base de données permettant le partage des travaux, outils et actualités en lien avec la capitalisation, le portail CAPS (Capitalisation des expériences en promotion de la Santé). Son objectif est de rassembler toutes les créations découlant de l'accumulation des connaissances en matière de promotion de la santé, principalement sous la forme de fiches de capitalisation. Ces fiches sont conçues pour partager les points saillants, les pratiques, les stratégies et autres éléments pertinents d'un projet spécifique. De récentes études scientifiques ont également été publiées, avec un accent sur la collecte de connaissances pour améliorer les approches et les résultats dans les domaines de la promotion de la santé dans les clubs de sports (Van Hoyer et al., 2021) ou au sein des programmes de reprise de l'activité physique (Riquier et al., 2023).

4.2.2. Intérêt de la capitalisation des expériences dans la promotion de la santé

Les finalités de la capitalisation des expériences dans le domaine de la santé peuvent ainsi être regroupées en quatre catégories (Société Française de Santé Publique). La première finalité est pédagogique, du fait que la capitalisation représente une période de réflexion sur les actions passées, servant ainsi de processus d'auto-apprentissage. La seconde finalité est informative, par sa fonction de diffusion des connaissances acquises à partir de projets et de stratégies, offrant ainsi des leçons précieuses à retenir. On retrouve ensuite une troisième finalité stratégique et politique par la vision concrète de la mise en œuvre des politiques de santé nationales et locales que la capitalisation apporte. Enfin, la capitalisation a une finalité scientifique par son amélioration constante des méthodes utilisées, en construisant une base de données riche et pertinente pour la recherche.

Employée dans le cadre de la promotion de la santé, la méthodologie de capitalisation des expériences revêt des spécificités particulières. Elle contribue à l'amélioration de la qualité des interventions en santé publique, à la diffusion de bonnes pratiques, et à l'optimisation des ressources pour des résultats plus efficaces. Elle joue également un rôle clé dans la prévention des risques et dans la pérennisation des connaissances, tout en favorisant une approche socio-écologique, intégrant les dimensions individuelles, sociales et environnementales dans la promotion de la santé. Ainsi, la capitalisation des expériences constitue un levier essentiel pour le progrès et l'efficacité des initiatives de promotion de la santé.

4.3. La démarche de capitalisation et l'approche socio-écologique

L'approche socio-écologique et la méthodologie de la capitalisation des expériences sont deux domaines distincts, mais elles partagent des liens significatifs, particulièrement dans les contextes de la santé publique et de la gestion des ressources naturelles. Ces deux approches se rejoignent dans leur quête de comprendre les interactions complexes qui sous-tendent ces domaines. L'approche socio-écologique se focalise sur la compréhension des interactions complexes entre les systèmes sociaux et écologiques (Berkes et al., 1998). La capitalisation peut contribuer à documenter comment ces interactions se sont déroulées dans le passé en éclairant comment les décisions de gestion ont influencé la santé des populations.

De la même manière, la capitalisation des expériences vise à identifier les bonnes pratiques et les leçons tirées d'expériences antérieures. Dans le domaine de la gestion des ressources naturelles, cela englobe des stratégies de gestion durable qui ont démontré leur efficacité par le passé et qui pourraient être adaptées à des contextes socio-écologiques similaires (Pretty & Smith, 2004). L'approche socio-écologique accorde souvent de l'importance à la gestion adaptative, c'est-à-dire à la capacité d'ajuster les actions en fonction de l'apprentissage continu et de l'évolution des conditions (Armitage et al., 2008). La capitalisation des expériences nourrit cette gestion adaptative en fournissant des informations sur ce qui a fonctionné et ce qui n'a pas fonctionné par le passé.

De plus, ces deux approches mettent fréquemment l'accent sur la participation communautaire et la collaboration entre les parties prenantes (Cash et al., 2006). La capitalisation des expériences peut documenter les processus de participation réussis, contribuant ainsi à éclairer les approches socio-écologiques qui visent à impliquer les communautés dans la prise de décision. Enfin, dans le domaine de la santé publique, l'approche socio-écologique peut se pencher sur l'impact de l'environnement sur la santé humaine, tandis que la capitalisation des expériences peut aider à consigner comment des interventions spécifiques ont amélioré la santé publique en modifiant les facteurs environnementaux (Briggs et al., 2017).

Il est important de noter que la nature et la force de ces liens dépendent du contexte spécifique et des objectifs de recherche ou de gestion. Néanmoins, la capitalisation des expériences peut constituer une source précieuse de données et d'enseignements concrets sur lesquels les chercheurs et les praticiens de l'approche socio-écologique peuvent s'appuyer pour éclairer et améliorer leur travail.

4.4. Synthèse du Chapitre 4

Le chapitre 4 aborde la méthodologie de la capitalisation des expériences, mettant l'accent sur son importance dans la promotion de la santé. C'est un processus systématique qui vise à collecter, documenter, analyser et partager les enseignements tirés des expériences passées au sein d'une organisation ou d'un projet. Elle contribue à favoriser l'apprentissage organisationnel, la gestion des connaissances, l'amélioration de la qualité, la gestion des risques, l'innovation, la pérennité des connaissances et la performance globale.

Dans le contexte de la promotion de la santé, l'adoption de cette méthodologie a évolué en parallèle avec les approches de la santé publique. La capitalisation des expériences dans ce domaine vise à atteindre des finalités pédagogiques, informatives, stratégiques et scientifiques, contribuant ainsi à l'amélioration des interventions en santé publique.

De plus, il existe des liens entre la méthodologie de la capitalisation des expériences et l'approche socio-écologique, notamment dans la compréhension des interactions complexes. Les deux approches se complètent en documentant comment les décisions de gestion passées ont affecté la santé des écosystèmes ou des populations. Elles mettent également l'accent sur la gestion adaptative, la participation communautaire et la collaboration entre les parties prenantes.

En somme, la capitalisation des expériences constitue un levier essentiel pour le progrès et l'efficacité des initiatives de promotion de la santé, tout en offrant des synergies avec l'approche socio-écologique pour mieux comprendre et gérer les complexités des systèmes sociaux et écologiques.

Problématique et Programme de recherche

Les bénéfices de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose ont fait l'objet de nombreuses publications dans la littérature au cours de la dernière décennie aussi bien chez les enfants que chez les adultes. On retrouve notamment parmi ces bénéfices l'amélioration de la fonction pulmonaire avec de meilleures capacités pulmonaires et clairances des sécrétions (Hebestreit et al., 2009b), un gain en force musculaire et une amélioration de la tolérance à l'effort (Hebestreit et al., 2013), une meilleure condition physique générale avec une hausse de l'endurance cardiorespiratoire (Radtke et al., 2013), une réduction des symptômes de la maladie comme la fatigue (Andrade et al., 2011) et une amélioration du bien-être psychologique en diminuant l'anxiété et le stress et en apportant des améliorations significatives de l'humeur (Selvadurai et al., 2002). De nombreuses recommandations ont été émises pour promouvoir de manière optimale l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose (Gruet et al., 2022 ; Karila et al., 2010 ; Saynor et al., 2023). En dépit de ces bénéfices et recommandations, le niveau en activité physique chez cette population demeure inférieur aux recommandations, et est inférieur à celui des personnes saines du même âge (Burnett et al., 2021). Ainsi, assurer la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose représente un enjeu majeur pour améliorer le quotidien de ces personnes.

Afin de fournir une meilleure compréhension des comportements de santé, des déterminants de la santé et des mécanismes sous-jacents qui influencent les choix et les actions liés à la santé, des modèles de promotion de la santé ont été développés. L'un d'entre eux, le modèle socio-écologique, offre une approche holistique en considérant divers niveaux d'influence sur la santé, couvrant des facteurs individuels, collectifs et environnementaux, ce qui facilite l'identification de leviers d'action pour améliorer la santé. Il met en avant les interactions entre individus et environnement, en examinant les facteurs sociaux, environnementaux et comportementaux, ainsi que leurs interactions. De plus, il souligne l'importance des facteurs communautaires et organisationnels dans la planification et

l'exécution des interventions de promotion de la santé. Le modèle socio-écologique se révèle particulièrement adapté aux problèmes de santé complexes, comme l'obésité, la santé mentale, le tabagisme, l'activité physique et les maladies chroniques, et il permet d'identifier les inégalités en santé et les déterminants sociaux qui y contribuent. Sa souplesse permet de l'adapter aux caractéristiques spécifiques des populations et des contextes socio-culturels. Il est donc particulièrement adapté au contexte de la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, notamment avec l'hétérogénéité des centres spécialisés, aussi bien dans les prises en charge en activité physique que dans la constitution des équipes médicales (i.e., certains centres sont composés d'enseignants en activités physiques adaptées, d'autres non).

Pour comprendre en profondeur le changement de comportement, il est essentiel de reconnaître qu'il ne se produit pas simplement du jour au lendemain. Il implique souvent des barrières et des facilitateurs qui peuvent influencer la trajectoire du changement. De plus, ce processus de changement passe par différents stades et processus, l'un d'entre eux étant le stade de la balance décisionnelle. Cette étape cruciale dans le processus de changement de comportement est caractérisée par une série de réflexions et d'oscillations internes, où les individus évaluent les avantages et les inconvénients de modifier leur comportement actuel. Il est important de noter que, bien que des recherches aient été menées pour explorer les barrières et les facilitateurs du changement de comportement chez les enfants atteints de mucoviscidose, ces aspects ont été beaucoup moins étudiés chez les adultes. Cette lacune dans la compréhension du changement de comportement chez les adultes soulève des questions importantes sur les facteurs qui influencent leurs décisions de changer ou de maintenir leur comportement.

De la même manière, la balance décisionnelle constitue un concept clé dans le domaine de la psychologie et du comportement humain. Cette notion explore le processus complexe par lequel les individus évaluent et finalement optent pour différentes options ou actions. Au cœur de cette notion réside l'équilibre entre les avantages et les inconvénients associés à une décision, influençant ainsi le choix final. La balance décisionnelle a des implications profondes dans divers domaines tels que la santé, les habitudes de vie, la prise de décision professionnelle et bien d'autres. Le modèle d'Eckout et ses collaborateurs (2013) est spécifiquement adapté au contexte de l'activité physique au sein de la population générale, et un outil de mesure des barrières et des leviers à la pratique physique a été développé par ces mêmes auteurs. Adapter ce modèle aux spécificités de la mucoviscidose serait un atout majeur dans la promotion de l'activité physique au sein de cette population.

À la lumière des connaissances scientifiques actuellement disponibles et de l'augmentation de l'espérance de vie chez les personnes atteintes de mucoviscidose, il devient essentiel de mieux appréhender les mécanismes sous-jacents à une participation continue à l'activité physique chez ces personnes. De ce fait, il est impératif de mettre en évidence des approches de promotion de l'activité physique spécifiquement adaptées pour cette population. Dans cette optique, l'objectif central de cette thèse est de contribuer à l'identification des modalités de promotion de l'activité physique auprès des personnes atteintes de mucoviscidose, et de concevoir des outils pratiques visant à améliorer l'évaluation de la motivation de ces personnes envers l'activité physique. Le programme de recherche présenté dans cette thèse de doctorat visera à répondre aux questions suivantes encore non explorées dans la littérature :

- (1) Quels sont les obstacles spécifiques à la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, et comment les surmonter ?**

- (2) Quels sont les facilitateurs à la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, et comment les appliquer dans les centres de ressources et de compétences de la mucoviscidose ?**

- (3) Comment évaluer de manière individuelle et personnalisée la perception des freins et leviers liés à la pratique physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose ?**

Ce travail doctoral s'articule autour de cinq études empiriques. Pour répondre à la première et à la deuxième question, deux recherches qualitatives ont été conduites. L'étude 1 aura pour but d'identifier et de classer les barrières et les facilitateurs à l'activité physiques spécifiques aux adultes atteints de mucoviscidose, avec des degrés de sévérité de la maladie hétérogène. Cette étude fournira un fondement crucial pour les phases ultérieures de la thèse. L'étude 2 se concentrera sur la compréhension des approches d'intervention et des facteurs de réussite pour la promotion de l'activité physique au sein des Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose. Son objectif sera de systématiser les pratiques de deux centres français expérimentés dans la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, en utilisant une méthodologie de capitalisation d'expérience. Cette étude nous permettra également d'identifier les moments clés de la promotion de l'activité physique, mais également d'en voir les manques et les difficultés rencontrées.

Enfin, pour répondre à la troisième question, nous nous concentrerons sur la création d'outils spécifiques visant à mesurer la balance décisionnelle pour l'activité physique chez les individus atteints de mucoviscidose. L'étude 3 aura pour objectif le développement et la validation d'un outil de mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique chez les adultes atteints de mucoviscidose. Cette étape détaillera ainsi le processus de validation de l'outil MUCO_BDEX (MUCOviscidose _ Balance Décisionnelle à l'EXercice), qui s'appuie fortement sur la première étude relative aux perceptions de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose. La quatrième étude poursuivra cette démarche en décrivant la création d'une version numérique de l'outil MUCO_BDEX, l'application MUCO_BALAD (MUCOviscidose_ BALance Décisionnelle), destinée aux adultes atteints de mucoviscidose, aux professionnels de santé spécialisés dans cette maladie et aux chercheurs. Cette dernière s'appuiera sur l'étude précédente, et le retour de cette étude fait par les professionnels de santé et les patients. Enfin, la cinquième étude se concentrera sur le développement et la validation d'outils similaires pour mesurer la balance décisionnelle en matière d'activité physique chez les patients atteints de mucoviscidose âgés de six à dix-sept ans, âge crucial pour initier l'adoption de comportements favorables à la santé.

2^{ème} Partie

Études empiriques

Axe 1 :

*Approche descriptive de la promotion en
activité physique chez les personnes
atteintes de mucoviscidose*

Étude 1.

Perceptions of barriers to and facilitators of physical activity in adults with cystic fibrosis^{1,2}.

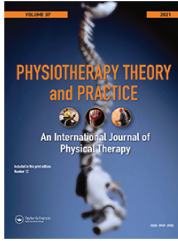
¹ Cette étude a fait l'objet d'une publication d'un article scientifique :

Ladune, R., Filleul, V., Falzon, C., Hayotte, M., Mély, L., Vallier, JM, Gruet, M., Vuillemin, A., & d'Arripe-Longueville, F. (2021) Perceptions of barriers to and facilitators of physical activity in adults with cystic fibrosis. *Physiotherapy Theory and Practice*. 39:1, 117-127.

DOI: 10.1080/09593985.2021.2005201

² Cette étude a fait l'objet d'une communication orale :

Ladune, R., Filleul, V., Gruet, Falzon, C., Fuchs, A., Mély, L., Hayotte, M., Vallier, JM., Giovannetti, P., Ramel, S., Vuillemin, A., Corrion, K., & d'Arripe-Longueville, F. (2022, March 9-10). Perceptions of barriers to and facilitators of physical activity in adults with cystic fibrosis. 15th European Cystic Fibrosis Young Investigators' Meeting (EYIM), Online meeting.



Physiotherapy Theory and Practice
An International Journal of Physical Therapy



ISSN: (Print) (Online) Journal homepage: <https://www.tandfonline.com/loi/iptp20>

Perceptions of barriers to and facilitators of physical activity in adults with cystic fibrosis

Raphaëlle Ladune, Valentine Filleul, Charlène Falzon, Meggy Hayotte, Laurent Mély, Jean-Marc Vallier, Mathieu Gruet, Anne Vuillemin & Fabienne d'Arripe-Longueville

To cite this article: Raphaëlle Ladune, Valentine Filleul, Charlène Falzon, Meggy Hayotte, Laurent Mély, Jean-Marc Vallier, Mathieu Gruet, Anne Vuillemin & Fabienne d'Arripe-Longueville (2021): Perceptions of barriers to and facilitators of physical activity in adults with cystic fibrosis, *Physiotherapy Theory and Practice*, DOI: [10.1080/09593985.2021.2005201](https://doi.org/10.1080/09593985.2021.2005201)

To link to this article: <https://doi.org/10.1080/09593985.2021.2005201>



Published online: 30 Nov 2021.



Submit your article to this journal [↗](#)



Article views: 40



View related articles [↗](#)



View Crossmark data [↗](#)

Full Terms & Conditions of access and use can be found at
<https://www.tandfonline.com/action/journalInformation?journalCode=iptp20>



Perceptions of barriers to and facilitators of physical activity in adults with cystic fibrosis

Raphaëlle Ladune MSc^a, Valentine Filleul MSc^a, Charlène Falzon PhD^a, Meggy Hayotte MSc (iD)^a, Laurent Mély MD^{b,c}, Jean-Marc Vallier PhD^b, Mathieu Gruet PhD (iD)^b, Anne Vuillemin PhD (iD)^a, and Fabienne d'Arripe-Longueville PhD^a

^aUniversité Côte-d'Azur, LAMHES, Nice, France; ^bUniversité de Toulon, Laboratoire IAPS, Toulon, France; ^cHôpital Renée Sabran Hospices Civils de Lyon, Cystic Fibrosis Center, Giens, France

ABSTRACT

Background: Physical activity (PA) is a proven therapeutic tool to increase the quality of life and life expectancy in people with cystic fibrosis (pwCF). Despite this, the PA level of pwCF is lower than recommended.

Objectives: This study was conducted to identify the barriers to and facilitators of PA in adults with CF with heterogeneous severity.

Methods: Twenty adults with CF (mean age = 33.3±11.7 years, mean FEV1% = 50.55±20.4%) were recruited from two specialized centers and interviewed about the factors that limit and facilitate their PA. The collected data were transcribed, coded and analyzed using deductive and inductive methods.

Results: Barriers and facilitators were classified into physical, psychological and environmental dimensions. The main barriers were fatigue, breathing difficulties, lack of available facilities, negative perceptions of PA and perceived health risks. The most important facilitators were respiratory benefits, well-being, and social support.

Conclusion: Although some barriers and facilitators were similar to those found in children with CF or adults from other vulnerable populations, others were specific to adults with CF, such as the risk of cross-contamination and transplant preparation. The comprehensive study of the barriers and facilitators in adults will enhance PA counseling for pwCF and help improve their compliance with PA recommendations.

ARTICLE HISTORY

Received 30 January 2021

Revised 1 November 2021

Accepted 4 October 2021

KEYWORDS

Physical therapy; cystic fibrosis; qualitative analysis; physical activity barriers; physical activity facilitators

Introduction

Cystic fibrosis (CF) is the most common hereditary genetic disease, affecting mainly the respiratory system. Medical care consists in a combination of treatments and therapies including physical activity (PA), which encompasses sports, exercise and recreational activities (Savage et al., 2014). PA in CF has positive physical and psychological effects. For example PA can: increase exercise tolerance (Radtke, Nevitt, Hebestreit, and Kriemler, 2017); slow lung function decline (Kriemler et al., 2013); and improve the ease of expectoration, thereby improving the elimination of pulmonary secretions (Radtke, Nevitt, Hebestreit, and Kriemler, 2017; Schneiderman et al., 2014). PA thus impacts life expectancy because it increases aerobic capacity (Nixon, Orenstein, Kelsey, and Doershuk, 1992) and decreases drug use, as well as the number and duration of hospitalizations (Cox et al., 2016; Urquhart et al., 2012). PA also has beneficial psychological effects, such as improved quality of life

(Radtke, Nevitt, Hebestreit, and Kriemler, 2017), with enhanced perceptions of wellness and a better self-image (Selvadurai et al., 2004). Furthermore, there are only a few contraindications to PA for pwCF (Hebestreit, Kriemler, and Radtke, 2015).

Despite these outcomes, PA levels are generally below both the current guidelines for pwCF (Cox, Alison, and Holland, 2013; Selvadurai et al., 2004) and the PA levels of healthy peers' in terms of intensity and duration (Burnett, Barry, and Mermis, 2020), making the identification of barriers and facilitators to PA an important research goal. Until 2010, most studies focused on children with CF due to the short life expectancy. In 2020, Denford, van Beurden, O'Halloran, and Williams (2020) identified seven qualitative studies focusing on motives for, barriers to, and facilitators of PA in pwCF from 4 to 18 years old. The barriers included: negative physical perceptions caused by CF symptoms and the resulting health fluctuations (Shelley et al., 2018); negative perceptions of exercise and the low value attributed to PA

CONTACT Raphaëlle Ladune ✉ r.ladune@sfr.fr Université Côte-d'Azur, LAMHES, 261 Boulevard du Mercantour, Nice 06200, France

© 2021 Taylor & Francis Group, LLC

(Moola, Faulkner, and Schneiderman, 2012; Swisher and Erickson, 2008); and the lack of social influences, time or access to diversified facilities (Happ et al., 2013). Among the PA facilitators (Denford, van Beurden, O'Halloran, and Williams, 2020) the following were identified: improved general health and disease management (Shelley et al., 2018); positive perceptions of PA (Swisher and Erickson, 2008); and high-quality PA programs (Prasad and Cerny, 2002).

Although many studies have been conducted in children with CF with the objective of improving PA levels and program adherence, the results cannot be transferred to adults with CF. Indeed, distinguishing between the two subpopulations is key to more successful outcomes. In adulthood, more frequent changes in the environment, such as with work and family situations, impose shifting constraints. In addition, advancing age increases the likelihood of other comorbidities like: CF-related diabetes (31% of pwCF over 18 years of age); and musculoskeletal disorders (e.g. reduced muscle mass and strength, osteopenia) (Gruet, Troosters, and Verges, 2017) which may reduce the sense of self-efficacy and impact PA participation. Life expectancy has dramatically increased over the last 30 years thanks to neonatal screening and advances in medication, therapies and their administration. Moreover, it is expected to further increase with the advent of highly effective CFTR modulator therapy (Balfour-Lynn and King, 2020; Southern et al., 2007). Yet, given that the physical inactivity of pwCF tends to increase with age (Williams and Stevens, 2013), a better understanding of how these individuals perceive PA might be a key factor in gaining better PA adherence.

To our knowledge, only a few studies have investigated the barriers to and facilitators of PA in adults with CF thus far (Burnett, Barry, and Mermis, 2020; Hurley et al., 2021; White, Stiller, and Haensel, 2007). The identified barriers to PA were lack of time, fatigue, not feeling well enough, and bad weather, while the main facilitators were improved sputum clearance, the environment (i.e. home-based or facility-based), valued outcomes of PA, and improved feelings of health (i.e. having more energy, well-being and decreased fatigue). However, these studies had several limitations. First, from a methodological point of view, some of them were based on data collected from non-standardized questionnaires and short discussions (Burnett, Barry, and Mermis, 2020; White, Stiller, and Haensel, 2007). Second, the sampling characteristics were such that the factors modulating PA were investigated only in pwCF with mild lung disease or transplant pwCF and not in pwCF with more severe forms of the disease (Hurley et al., 2021).

Therefore, the findings of these studies cannot be extrapolated to pwCF with more severe symptoms, although these individuals are more likely to develop various comorbidities, which might impact PA adherence. With the recent improvements in therapeutics, a better understanding of the psychological mechanisms underlying PA engagement is needed for adults with CF having a range of disease severities. Therefore, the purpose of this study was to qualitatively explore the facilitators of and barriers to PA for adults with CF with heterogeneous disease severity.

Methods

Data collection

An initial review of the literature (Karila et al., 2010; Moola, Faulkner, and Schneiderman, 2012; Radtke, Nevitt, Hebestreit, and Kriemler, 2017; Swisher and Erickson, 2008) enabled us to build an open-ended semi-structured interview guide divided into four parts: 1) history with CF; 2) recreational activities; 3) benefits and risks of PA; and 4) barriers to and facilitators of PA (Table 1). The interviews began with a reminder of the purpose of the study, the confidentiality and anonymity of the data, and the possibility of stopping the study at any time. Participants were also reminded that the interviews were recorded for analytical purposes only. At the beginning of the interviews, they were invited to provide information about their disease (*“Could you summarize your history with CF?”*) and their daily life with CF (*“Could you describe an ordinary day/week?”*). The second part of the interview focused on free time and leisure (*“What do you do in your spare time? What are your hobbies?”*). If the participants did not mention PA on their own, the interviewer raised the topic. In the third part, the interview focused on the benefits and risks of PA (*“What are the benefits/risks of PA for you?”*). In the last part, specific questions were asked based on their previous responses in order to identify the barriers to and facilitators of PA. Those who mentioned doing little or no PA were questioned more about barriers, while those who mentioned regular PA were asked more about facilitators.

Participants and recruitment

All participants were recruited from two specialized CF centers of the South of France. Inclusion criteria for participation were: diagnosis of CF from one of these centers; age 18 years or older; French-speaking; and in a stable disease state and not a period of exacerbation. Participants with various ages, educational levels,

Table 1. Interview guide.

(a) History with CF	<p>To begin with, could you tell me a little about your history with cystic fibrosis? Was your diagnosis made at birth or later? What consequences (immediate or long-term) does cystic fibrosis have on your daily life? Have you always followed the treatments and advice given by the medical profession? If not, why not? What do your treatments consist of? How much time do you have to devote to them every day? Every week? What consequences (immediate or long-term) do they have on your daily life? Have you been discriminated against because of cystic fibrosis? If so, could you tell me about this experience (professional, emotional, social life)? Do you live alone? With your parents? With a spouse? Could you describe an ordinary day? An ordinary week? Could you describe your professional/family/social life? What do you do every day? How do you get around (by foot, bicycle, car, medical transport)? Why do you do this?</p>
(b) Recreational activities	<p>What do you do in your free time? What are your hobbies? [if physical activity does not come up spontaneously] Do you ever practice a physical activity? If so, which one? When did it happen? Is physical activity important to you? If yes/no, why? [if active] Why did you choose this activity? Why did you choose this rhythm of practice? Would you like to do more? If yes/no, why? Could you describe a typical session of your practice? How do you feel during/after a physical activity session? [if inactive] Would you like to do physical activity regularly? If yes/no, why? Do you think you are able to do physical activity regularly?</p>
(c) Benefits and risks of PA	<p>What are the benefits/risks of physical activity for you? For people with cystic fibrosis? In your opinion, are there any benefits linked to physical activity? Which ones? What benefits? Why? In your opinion, are there any risks associated with physical activity? Which ones? What are the risks?</p>
(d) Barriers to and facilitators of PA	<p>What facilitates and hinders your practice? For people with cystic fibrosis? What are the reasons why you do not practice physical activity? (mucoviscidosis, treatments, the way others look at you...) What would make you want to practice physical activity? Do the people around you (family, friends) encourage you to be physically active? If yes/no, why?</p>

professional occupations and geographic locations were interviewed to cover the largest panel of pwCF profiles. PA levels were assessed through the interviews, and special attention was paid to include participants with

different levels. The number of times the participants were physically active per week was recorded. The interviews were conducted from January 2017 to May 2017. This qualitative study was approved by the French National Commission for Information Technology and Civil Liberties (CNIL T 39–2017). Participants gave their informed consent before the interviews were conducted.

Data analysis

Six researchers (the first four authors and the last two authors) specialized in exercise psychology were involved in data analysis. The interviews were analyzed with a combination of inductive and deductive methods according to the main principles of the thematic analytic procedure (Braun and Clarke, 2014; Patton, 1990; Smith and McGannon, 2018). They were audio-recorded and transcribed ad verbatim. The first three authors read the transcripts several times to become familiar with the data. They independently generated initial codes using an inductive line-by-line coding method from the relevant data related to PA barriers and facilitators. Items described as physical practice inhibitors were coded as barriers to PA, whereas items described as encouraging physical practice were coded as facilitators. Coding was discussed by the three authors until a consensus was reached.

Then, these facilitators and barriers were grouped into potential themes, with all data relevant to each potential theme grouped using a deductive approach. The themes were classed as physical, psychological and environmental categories. With an inductive approach, sub-themes were then defined within these categories. The congruence between the existing literature on barriers to and facilitators of PA and the concepts identified in our analysis was examined to label the different codes and themes (Sandelowski, 1993). The sub-themes were refined and labeled by comparing the coded narratives and the results of the initial literature review (Burnett, Barry, and Mermis, 2020; Denford, van Beurden, O'Halloran, and Williams, 2020; White, Stiller, and Haensel, 2007) using the triangulation method until a final consensus was reached between the first three authors and the last author (Whittemore, Chase, and Mandle, 2001).

Several steps were taken to ensure methodological rigor with regard to credibility and critical research (Smith and McGannon, 2018). First, the choice of participants with varied PA behaviors and disease severities provided credibility by allowing for several perspectives on the research question (Patton, 1990). Second, the classification was reviewed by the fourth and second-to-last authors, who served as disinterested peers, to ensure qualitative research validity. Category labels

Table 2. Participants' characteristics.

#	Gender	Age	FEV ₁ % predicted	Reported PA level
F1	Female	46	73	Less than once a week, but exercise rehab
F2	Female	31	32	None
M3	Male	30	55	None
M4	Male	22	37	Once or twice a week
F5	Female	51	27	Less than once a week, but exercise rehab
M6	Male	32	26	Less than once a week, but exercise rehab
F7	Female	27	34	None
M8	Male	30	26	Three or four times a week
M9	Male	22	58	Three or four times a week
M10	Male	46	69	None
M11	Male	31	33	Once or twice a week
M12	Male	28	89	Three or four times a week
F13	Female	28	31	Less than once a week
M14	Male	50	34	Less than once a week
M15	Male	66	43	Less than once a week
F16	Female	23	73	Once or twice a week
F17	Female	28	68	Three or four times a week
F18	Female	28	58	Once or twice a week
F19	Female	20	66	Three or four times a week
M20	Male	27	79	Once or twice a week

FEV₁ = forced expiratory volume in 1 second

were refined until all researchers involved in the analyses reached agreement (Whittemore, Chase, and Mandel, 2001), and the most relevant quotes were selected to illustrate the categories. As a result of these exchanges, the initial classification and analysis were discussed, critiqued and modified several times until all four authors were satisfied.

Results

Demographics

Twenty pwCF (11 men: 55%) participated in the study, and all of them completed the interview. Mean participant age was 33.3 (SD=11.7) years. Disease severity was determined with the forced expiratory volume in one second (FEV₁), with the mean being 50.55% (SD=20.4%). Four participants had mild lung disease severity (20%, FEV₁ > 70%); seven had moderate disease (35%, 50% < FEV₁ < 80%); and nine had severe disease (45%, FEV₁ < 50). Ten participants practiced PA less than once a week, five practiced once or twice a week, and five practiced three or four times a week. Interviews lasted between 30 and 45 minutes. Detailed characteristics of the participants are presented in Table 2.

Emergent themes

Based on our guide, we differentiated the factors influencing PA practice as barriers or facilitators. As noted above, these factors were then divided into three sub-

themes differentiating: 1) physical; 2) psychological; and 3) environmental factors. These classifications are summarized in Table 3.

Barriers

All quotes illustrating the barriers to PA are presented in Table 4.

Physical barriers

The physical barriers to PA for these adult pwCF were: 1) "fatigue," whether PA- or disease-induced (n = 10); and 2) "breathlessness" (n = 7), which was perceived as being caused by the discomfort related to CF.

Table 3. Perceived barriers to and facilitators of PA in adults with CF.

Category	Sub-category/Types	Themes/Characteristics of barriers and facilitators
Barriers to PA	Physical	Fatigue Breathlessness
	Psychological	Negative perceptions of PA Lack of motivation or interest in PA Perceived lack of physical ability
	Environmental	Competing priorities Lack of adapted PA opportunities Lack of social support
Facilitators of PA	Physical	Respiratory benefits of PA Improvement in general health Preparation for transplant
	Psychological	Positive perceptions of PA Improvement of self-esteem and feeling of accomplishment
	Environmental	Social support Availability of facilities

Table 4. Representative quotes on barriers to physical activity.

Types	Characteristics of barriers	Participant	Representative quotes	
Physical	Fatigue	F13	It's just that I limit myself because I'm tired, I don't want to be too tired so I don't do it.	
		M8	When I finish work I'm a bit tired so sometimes I don't do it.	
	Breathlessness	F1	So anyway, to go shopping or whatever, and I tried to get back on my bike but I only did it once because I got exhausted.	
		H4	I go there once or twice [for sports] but afterward I'm just too tired.	
		F16	I used to go to a gym where I did a little but I became more tired so I fell ill again.	
		H6	Let's just say that I've calmed down a bit about physical activities because, in the end, I just can't... I get out of breath very quickly.	
		F7	We realized later that I was desaturating a lot during exercise, so it slowed me down a bit; I can't make intensive effort over long periods of time.	
		M10	As soon as you start to make an effort, you become breathless and you start coughing; depending on where you are sometimes it's just not possible.	
	Psychological	Negative perceptions of PA	M11	If I don't have oxygen with me at my physical therapists', I don't think I can do it.
			F18	We realized that it wasn't good, that I was completely desaturating, so they told me to stop.
M12			When it's done at too high a level it's obviously not good.	
M14			You have to know yourself, and you have to know your limits too, you shouldn't force yourself or provoke an episode of syncope; you have to be careful anyway, you have to manage things.	
Contra-indication		H6	Well, maybe in certain situations but... for example, my chest, which is a consequence of the disease, prevents me from diving or paragliding. So it's quite risky but, okay, like that... it's still very specific conditions.	
		F1	I did it once; I had joined a gym and afterward I thought it was good because they had water aerobics so I only did that, because everything that was really a sport, the slightest microbe, there was nothing that was cleaned properly, and a cold for three weeks in a row, not great.	
Risk of cross-contamination		H9	I don't go to a gym because there are a lot of people there, people are sick and all that and it's not so... I could be next to someone who also has cystic fibrosis, you never know, and get infected; it's not a good thing so I have a book that I use for exercise.	
		H3	In fact, since I couldn't find anything that I was particularly interested in, I was too lazy to go running just to run to keep in shape.	
Lack of motivation or interest in PA		F7	And the desire, because running for ten minutes [Sigh] well that's it.	
		F17	First, because there's no sport that interests me at all, honestly.	
	F19	I don't have much motivation for that [physical activity].		
	F2	I'm very careful about what I do. I don't even go too far because sometimes I can't come back [...] so I don't see how I could get involved in a physical activity.		
Environmental	Perceived lack of physical ability	F5	I have rarely seen people doing physical activities with oxygen, and so then you feel like you're less than the others.	
		M10	No, it's not that, it's not how I feel, it's that I'm not capable.	
		H3	When you work, well for me anyway, I think that with my workdays I don't have time to do anything else.	
		M10	The problem is that I stopped ten years ago because I started to work, so sports are something you do when you have time. When you're twenty, you don't think about going running [laughs], you work, and at the weekend you have fun. So I put off sports, and then I thought, I'll get around to it later.	
	Competing priorities	M12	That's it, finding the time and taking the time to do it, I'd like to.	
		M14	[...] having more time, yes, it's mainly a lack of time. If I could have more opportunities, yes, it would motivate me more to get involved in sports.	
	Professional obligations	F18	I have a very busy life, so in fact it's not always... And then I want to spend time with my family.	
		M9	Because let's say that in the past I didn't do a lot of my care and the time it takes to get everything back to normal, it takes a lot of time, so that's what's slowing me down in fact.	
	Lack of adequate availability	F17	I really wanted to be outside, I love being outside but one minute it's hot, the next it's windy, at the seaside it's never OK, well then it's not possible.	
		M3	After that you have to have the equipment, without that it's sure... having at least 5 liters of oxygen for when you make an effort, you have to have the material. I mean, my home oxygen tank would go fast at this rate, uh, I think.	
M8		I'd like to do more but it's the oxygen, I can't do it all the time. Like I can't take it on my motorbike; when I play soccer it's the same, I can't take it on the field so I stay on the side, I can't run with it. Afterward, when I go to a rally, yeah, I take it sometimes.		
F2		My husband is more like... "take it easy!" (...) She [her daughter] always behind me with "Mom, be careful, you're going to hurt yourself."		
Lack of social support	M10	[Interviewer: And for example, your children, your parents and so on, do they encourage you to be physically active?] Ah no no no no. My parents, they just leave me alone, I mean I do what I want anyway, I've always done what I want.		
	M20	Yes, a bit of overprotection, I wasn't really allowed to do much. [...] My mother or the teachers, or anybody above me, like the doctors. I: They prevented you from doing what? Sports, at school, they prevented me from going out, yes, if it was too cold, for example, at playtime with my friends, I wasn't allowed to go out.		
Medical staff	F1	This is the first time I'm going to do exercise training, I, yes, afterward they ask us to go and see, to visit a gym, to try a sport or the machines. But then it's true that we have to manage more or less on our own.		
	F16	It was more the mentality in the past; the doctors would say that anyone with asthma or cystic fibrosis must absolutely not play sports, etc., so even if I wanted to, I wasn't allowed to, because I shouldn't, I shouldn't, yes, it would make me too breathless, doing that....		

Table 5. Representative quotes on facilitators of physical activity.

Types	Characteristics of facilitators	Participant	Representative quotes		
Physical	Respiratory benefits of PA	F1	I think that it'll improve your breathing, already you'll oxygenate better, breathe better, even though doing breathing therapy exercises is tiring after a while. Sports teach you to breathe better and to breathe differently.		
		M3	Just working on your breathing, things like that. We don't have much of that already, or not much anymore. So if we can recover at that level, by doing exercises. [...] Since I started, I find that it, well, I'm better.		
		F5	It helps with draining, it gets the always working and it drains, and I have the sensation that it's developing the ribcage so I can breathe better. To bring in more air and also avoid infections.		
		M6	Physical activity is a question of maintenance, it builds a better respiratory capacity.		
		M11	First, it improves our vital capacity for breathing, and second, it clears the chest cavity.		
		H12	You build up your breathing capacity so you obviously breathe better.		
		M14	Improved breathing, improved bronchial drainage because it's automatic; the more you force the lungs to work, the more it reduces the inflammation and the more it clears.		
		M15	It [physical activity] develops my breathing capacity.		
		F17	But it feels good because afterward you breathe better, there's a little adaptation phase and then it's great.		
		F18	It causes a lot of drainage, that is, at first, generally the first minutes, we'll say the first ten minutes, I'll be really tired, well me anyway, the first ten minutes I'll cough a lot, more than normal, so it can seem really tiring but in the end once it's evacuated, afterward we breathe better, more deeply and as a result, we clear certain areas that needed to be cleared. [...] I think that even in the long term it's good to be able to ventilate more areas in the lungs.		
		F19	I can see the difference in my lungs, too: I'm less out of breath than before.		
		M6	Training to build up exercise tolerance means you start walking a little bit again, to start building autonomy.		
		M9	Physical activity builds more muscle tone, so it's really a treatment like any other and therefore improves your physical condition. I've taken up a sport again, I'm doing body building. To build, to maintain muscle, to not be a "vegetable," because otherwise there's no point in living.		
		Psychological	Improved general health	F16	It increases capacities a little, it builds muscle, it's supposed to tone up the body.
F2	When I played sports I felt great afterward. I felt energized!				
M9	I'm actually quite tired, I'll say to myself, I'll go to bed and I'm quite tired and in the morning I'll wake up and I'll be raring to go [to be physically active].				
H10	I think I don't know, but if I got to 47 years old and all I owe a lot maybe to my first 20 years, maybe [where I was physically active].				
M20	It's true that taking medication is good but I find that it [physical activity] always has a better impact.				
F1	It [physical activity] gives you an appetite, so it helps you eat. That's a lot of things, and for me it's starting to sweat again, to hydrate, because at the moment I'm finding it hard to rehydrate.				
H12	It works as a whole, you have a healthier lifestyle, your body functions better [in sports] because of that.				
M8	I feel it, the weight and all that, it [physical activity] contributes to it.				
M3	It's a project at the moment, too, in relation with the transplant project. I have to slow down a bit in terms of work. Just to be able to do all these [physical] activities. For myself, and also if it can prepare me better for the transplant, that wouldn't be bad.				
M9	If one day you get called for a transplant, the recovery is going to be awful and whenever I've gone for my checkups they've always told me: "get in a lot of sports because the day you get the call, well, you'll recover a lot faster."				
M11	[Interviewer: What would motivate you to engage in physical activity?] That would be the transplant.				
F2	I know it gave me a lot of energy.				
M9	I have a book where I follow exercises because when I went to the gym, I went for a month and I liked it a lot.				
M12	Because I've been doing it since I was little and I like everything that is sensations, everything that is speed, high speed and I like the competition.				
Psychological	Pleasure perceptions of PA	M15	For me, it's a personal pleasure.		
		F1	I think it's for everything, also well-being. [...] We move around a lot and it's good for feeling alive.		
		M8	If only for your health, but you feel better. I feel better.		
		F19	It's just about feeling better in your body too.		
		M20	Yes, as I said, for the morale and from a physical point of view, I think it's essential for me.		
		F7	That I can say to myself, this is something I'm doing wholeheartedly.		
		F16	To be doing a physical activity, to say I can do this.		
		F17	It's more of a goal for me to say that at first I could only do 20 minutes on the treadmill, now I'm doing 45. I tell myself that it's huge, I mean, it's better for me to see the change.		
		Psychological	Well-being	M15	For me, it's a personal pleasure.
				F1	I think it's for everything, also well-being. [...] We move around a lot and it's good for feeling alive.
				M8	If only for your health, but you feel better. I feel better.
				F19	It's just about feeling better in your body too.
				M20	Yes, as I said, for the morale and from a physical point of view, I think it's essential for me.
				F7	That I can say to myself, this is something I'm doing wholeheartedly.
F16	To be doing a physical activity, to say I can do this.				
F17	It's more of a goal for me to say that at first I could only do 20 minutes on the treadmill, now I'm doing 45. I tell myself that it's huge, I mean, it's better for me to see the change.				
Psychological	Improved self-esteem and feeling of accomplishment			M15	For me, it's a personal pleasure.
				F1	I think it's for everything, also well-being. [...] We move around a lot and it's good for feeling alive.
				M8	If only for your health, but you feel better. I feel better.
				F19	It's just about feeling better in your body too.
				M20	Yes, as I said, for the morale and from a physical point of view, I think it's essential for me.
				F7	That I can say to myself, this is something I'm doing wholeheartedly.
		F16	To be doing a physical activity, to say I can do this.		
		F17	It's more of a goal for me to say that at first I could only do 20 minutes on the treadmill, now I'm doing 45. I tell myself that it's huge, I mean, it's better for me to see the change.		

(Continued)

Table 5. (Continued).

Types	Characteristics of facilitators	Participant	Representative quotes
Environmental	Social support	M4	My sister does it with me.
	Support to practice PA	M9	They [family and friends, partner] are behind me, they give me a lot of encouragement.
		M12	You meet people and it's cool.
		F19	Because my mother is involved and it's more motivating to go together.
		M20	I go and do it with friends, it's an enjoyable time, after work, we clear our heads, we go and do sport, we go to pleasant places, we have a laugh together, it's a pleasant time.
	Encouragement	F16	She [mother] encourages me to go for walks with her, to walk the dog or go to the lake with the dog, to swim. They [parents] encourage me to do just a bit more.
		F19	It was the people around me and also the doctors who pushed me to sign up. [...] It's mainly the medical staff who force me to do sports.
		M10	I have the oximeter, I have the physical therapist next to me, you feel a little safer because you can get involved in sports. When you're there, the oxygen is nearby. You never know, I wouldn't do it at home on my own without supervision.
	Availability of facilities	F18	The yoga teacher comes to my physical therapy practice. And I'm alone with her.
		F19	It was the people around me and also the doctors who pushed me to sign up. [...] It's mainly the medical staff who force me to do sports.

Psychological barriers

The psychological barriers to PA appeared to be more prevalent and stronger than the physical barriers. They included: 1) “negative perceptions of PA” (n = 13); 2) “lack of motivation and interest in PA” (n = 6); and 3) “perceived lack of physical ability.” “Negative perceptions of PA” included the negative health effects of inappropriate and often overly intense PA resulting in such unpleasant sensations (n = 8) as feeling about to faint or starting to tremble. It also included contraindications to specific sports like diving and snorkeling (n = 4) and the risk of cross-contamination (n = 3). “Lack of motivation or interest in PA” was also cited by the adults with CF as a psychological barrier (n = 6). The last psychological barrier they cited was the “perceived lack of physical ability” (n = 4).

Environmental barriers

The environmental barriers to PA included: 1) a lack of time due to “competing priorities” (n = 6); 2) “lack of adapted PA opportunities” (n = 5); and 3) “lack of social support” (n = 5). “Competing priorities” covered professional activities (n = 6), medical treatments (n = 3) and family occupations (n = 1). “Lack of adapted PA opportunities” (n = 5) referred to a lack of adequate availability (n = 4) and a lack of appropriate equipment (n = 2). Finally, “lack of social support” (n = 5) by family (n = 4) and medical staff (n = 2) included PA limitations in childhood and adolescence that persisted into adulthood.

Facilitators

All quotes illustrating the facilitators of PA are presented in Table 5.

Physical facilitators

The physical facilitators of PA included: 1) “respiratory benefits of PA” (n = 15); 2) “improved general health” (n = 13); and 3) “transplant preparation” (n = 3). “Respiratory benefits of PA,” like improved respiratory capacity or secretion clearance, emerged as the most compelling reason to participate in PA. More than half the participants also mentioned that PA contributed to “improved general health.” This improvement was reflected by maintained autonomy and muscle function (n = 6), reduced fatigue and energy gain (n = 4), increased life expectancy and reduced need for medication (n = 3), healthy lifestyle habits (n = 3), and weight control (n = 2). Finally, a few participants (n = 3) also mentioned “transplant preparation” as a facilitator.

Psychological facilitators

The psychological facilitators of PA included: 1) “positive perceptions of PA” (n = 14); and 2) “improved self-esteem and feeling of accomplishment” (n = 4). “Positive perceptions of PA” included the pleasure (n = 11) and well-being (n = 6) provided by PA. Another psychological facilitator was “improved self-esteem and feeling of accomplishment” (n = 4).

Environmental facilitators

The environmental facilitators of PA included: 1) “social support” (n = 10); and 2) “availability of facilities” (n = 5). “Social support” referred to support to practice PA (n = 10) and encouragement (n = 4) from family, friends, or the healthcare team. PA opportunities supervised by professionals or a healthcare team with equipment adapted to pwCF needs (e.g. oxygen) promoted PA practice. As noted above, an insufficient “availability of facilities” was a barrier to practice.

Discussion

Knowledge about the barriers to and facilitators of PA in adults with CF has remained limited. Although several studies have been conducted in children with CF, the improved life expectancies have raised public health issues about PA for adult persons with CF, yet more empirical evidence is needed. The purpose of this study was to identify the barriers to and facilitators of PA for adults with CF of heterogeneous disease severities and to classify them into sub-categories of physical, psychological and environmental dimensions.

Some of the barriers to PA identified in this study were congruent with the results of the literature on adults with CF. The similarities included such barriers as fatigue, lack of time, and perceived risk of cross-contamination by germs between pwCF (Burnett, Barry, and Mermis, 2020; Hurley et al., 2021; White, Stiller, and Haensel, 2007). Other barriers related to disease symptoms, such as breathlessness and CF-induced fatigue, were reported in studies conducted in children with CF (Denford, van Beurden, O’Halloran, and Williams, 2020; White, Stiller, and Haensel, 2007).

Our study highlighted several barriers specific to the population of adults with CF. First, psychological barriers were identified, notably negative perceptions, including the health risks of high-intensity PA or “risky” PA practices (e.g. diving and scuba diving), which were considered as incompatible with the respiratory constraints of the disease. Second, specific environmental barriers emerged, such as the lack of appropriate

equipment in the facilities, notably oxygen. Another environmental barrier was related to competing priorities due to family and work responsibilities. This type of barrier was not specific to the disease but to adulthood, as already reported in parenthood (Bellows-Riecken and Rhodes, 2008). Interestingly, previous CF studies in children had reported barriers related to competing priorities due to other leisure activities (Denford, van Beurden, O'Halloran, and Williams, 2020; White, Stiller, and Haensel, 2007).

Some of the specificities of adults with CF might have been due to the wide heterogeneity in the disease severity of our study, with some participants at a more advanced stage of the disease than in previous studies (Hurley et al., 2021). Indeed, more than half the psychological barriers related to negative perceptions of PA were reported by pwCF with severe disease, particularly with regard to contraindications related to CF. Similarly, the lack of perceived physical capacity was a psychological barrier to PA that was mostly cited by pwCF in the advanced stages of the disease (moderate and severe disease).

Our findings, especially those regarding a lack of motivation and interest for PA, competing priorities, and apprehensions about certain practices (e.g. swimming and the wet pool environment), appeared consistent with research in other respiratory pathologies like asthma (Mancuso et al., 2006) and chronic obstructive pulmonary disease (Lewis and Cramp, 2010).

Regarding the PA facilitators in adults with CF, our study confirmed such previously identified factors as improved respiratory capacity and general health, positive perceptions of PA as the source of feelings of pleasure and well-being, and peer and family social support (Hurley et al., 2021; White, Stiller, and Haensel, 2007). Some of the facilitators have been identified in other respiratory diseases like chronic obstructive pulmonary disease (Lewis and Cramp, 2010) and asthma (Mancuso et al., 2006), and these include adapted PA offers, support from professionals, practicing with friends and family members, and using PA as a specific therapy.

The major specificity highlighted in our study was PA practice as a way to facilitate recovery from lung transplantation, which provided support for the recent work by Wietlisbach et al. (2020). This facilitator has never before been reported, probably because of the young age of the interviewees (Denford, van Beurden, O'Halloran, and Williams, 2020; White, Stiller, and Haensel, 2007) or the limited severity of the CF disease (Hurley et al., 2021) in previous research.

Interestingly, specificities related to the degree of the disease were also apparent in the facilitators. Among the physical facilitators, respiratory benefits and improvement in general health were most often cited by participants affected at moderate and severe stages of the disease. Similarly, among the psychological facilitators, the notion of pleasure was cited more frequently by pwCF in the moderate and severe stages of the disease.

In summary, adults with CF share common facilitators of and barriers to PA with other CF populations reported in the literature, both children and adults. This congruence was expected since CF symptoms do not really change but only worsen with age. Similarities were also noted with adults having other health conditions, especially regarding professional constraints in adulthood. However, this is the first study with adult participants at an advanced stage of the disease, including some awaiting transplantation. For this reason, the positive perception of being better prepared for the transplant appeared as a specific motivator for PA.

Despite its strengths, our study had several limitations, some of which are inherent to qualitative studies. First, the characteristics of our participants, who were drawn from only two medical centers in the South of France, may limit the generalizability of our results to all French adults with CF. Second, this study was based on semi-directive interviews and self-reported data, including data on PA lifestyles, and we did not measure actual PA behavior. Thus, the participants may have voluntarily or involuntarily distorted their responses or omitted information. Indeed, most participants reported having an active lifestyle, although the literature shows that pwCF often do not meet the recommendations (Cox, Alison, and Holland, 2013; Selvadurai et al., 2004). Either the participants overestimated their PA level or those who agreed to participate in the interviews were more active than the others, which can be considered as self-selection bias. Finally, although the principles of qualitative analyses were followed (Braun and Clarke, 2014; Patton, 1990) and precautions for trustworthiness and rigor were taken, some recommendations could not be implemented, such as member checking (Birt et al., 2016).

The results nevertheless point to interesting clinical perspectives that might be developed. First, this study may contribute to the assessment of the pwCF decisional balance toward physical activity. Second, improving the accessibility to practice facilities and equipment (e.g. oxygen), encouraging transplant preparation programs, and promoting personalized PA programs would all

contribute to improving CF people's adherence to PA by accentuating facilitators and reducing barriers to PA participation. Guidelines might also be developed to complement existing recommendations for pwCF and care team members (Karila et al., 2010). For instance, to facilitate engagement in sustainable physical activity, activities should be proposed in adapted and regularly disinfected facilities to limit the risk of cross-contamination. They should also be compatible with the time and organizational constraints resulting from professional and family obligations and should take into account disease-induced symptoms (i.e. breathlessness and adaptation of the intensity).

Conclusion

This study uses an in-depth qualitative approach to examine for the first time the barriers to and facilitators of PA in a sample of adult persons with CF and showing a range of disease severities. The identified barriers and facilitators were partly consistent with those identified in children (Denford, van Beurden, O'Halloran, and Williams, 2020) and other vulnerable populations (Baert et al., 2011; Falzon et al., 2014; Gray et al., 2021; Hayotte et al., 2020). However, specific barriers, such as the lack of appropriate equipment (e.g. lack of oxygen) and the perceived risk of cross-contamination with other pwCF, were also identified, as was a specific facilitator related to lung transplant as a motivation for exercise. By identifying some of the barriers to and facilitators of PA in adults with CF, this study contributes to an emerging line of research in this population. It facilitates the assessment of PA stage of change and suggests directions for a more personalized approach to intervention and better individualization of care.

Acknowledgments

We thank all the cystic fibrosis participants for their participation in our study. This work was financially supported by the Association Grégory Lemarchal.

Funding

This work was financially supported by the Association Grégory Lemarchal.

Disclosure statement

No potential conflict of interest was reported by the author(s).

ORCID

Meggy Hayotte MSc <http://orcid.org/0000-0003-3418-3485>
 Mathieu Gruet PhD <http://orcid.org/0000-0002-2658-277X>
 Anne Vuillemin PhD <http://orcid.org/0000-0002-1176-3279>

References

- Baert V, Gorus E, Mets T, Geerts C, Bautmans I 2011 Motivators and barriers for physical activity in the oldest old: A systematic review. *Ageing Research Reviews* 10: 464–474. doi:10.1016/j.arr.2011.04.001.
- Balfour-Lynn IM, King JA 2020 CFTR modulator therapies – Effect on life expectancy in people with cystic fibrosis *Paediatric Respiratory Review*. Online ahead of print. doi: 10.1016/j.prrv.2020.05.002.
- Bellows-Riecken KH, Rhodes RE 2008 A birth of inactivity? A review of physical activity and parenthood. *Preventive Medicine* 46: 99–110. doi:10.1016/j.ypmed.2007.08.003.
- Birt L, Scott S, Cavers D, Campbell C, Walter F 2016 Member checking: A tool to enhance trustworthiness or merely a nod to validation? *Qualitative Health Research* 26(13): 1802–1811.
- Braun V, Clarke V 2014 What can “thematic analysis” offer health and wellbeing researchers? *International Journal of Qualitative Studies on Health and Well-being* 9: 20–22. doi:10.3402/qhw.v9.26152.
- Burnett DM, Barry AN, Mermis JD 2020 physical activity level and perception of exercise in cystic fibrosis. *Respiratory Care* 65: 500–506. doi:10.4187/respcare.07193.
- Cox NS, Alison JA, Button BM, Wilson JW, Morton JM, Holland AE 2016 Physical activity participation by adults with cystic fibrosis: An observational study. *Respirology* 21: 511–518. doi:10.1111/resp.12719.
- Cox NS, Alison JA, Holland AE 2013 Interventions for promoting physical activity in people with cystic fibrosis. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 12: CD009448.
- Denford S, van Beurden S, O'Halloran P, Williams CA 2020 Barriers and facilitators to physical activity among children, adolescents, and young adults with cystic fibrosis: A systematic review and thematic synthesis of qualitative research. *BMJ Open* 20: e035261. doi:10.1136/bmjopen-2019-035261.
- Falzon C, Sabiston C, Bergamaschi A, Corrión K, Chalabaev A, D'Arripe-Longueville F 2014 Development and validation of the cancer exercise stereotypes scale. *Journal of Psychosocial Oncology* 32: 708–726. doi:10.1080/07347332.2014.955237.
- Gray L, Schuft L, Bergamaschi A, Filleul V, Colson SS, d'Arripe-Longueville F. 2021 Perceived barriers to and facilitators of physical activity in people living with HIV: A qualitative study in a French sample *Chronic Illness*. 17: 111–128. doi:10.1177/1742395319826638.
- Gruet M, Troosters T, Verges S 2017 Peripheral muscle abnormalities in cystic fibrosis: Etiology, clinical impli-

- cations and response to therapeutic interventions. *Journal of Cystic Fibrosis* 16: 538–552. doi:10.1016/j.jcf.2017.02.007.
- Happ MB, Hoffman LA, Higgins L, Divirgilio D, Orenstein DM 2013 Parent and child perceptions of a self-regulated, home-based exercise program for children with cystic fibrosis. *Nursing Research* 62: 305–314. doi:10.1097/NNR.0b013e3182a03503.
- Hayotte M, Nègre V, Gray L, Sadoul JL, D'Arripe-Longueville F 2020 The transtheoretical model (TTM) to gain insight into young women's long-term physical activity after bariatric surgery: A qualitative study. *Obesity Surgery* 30: 595–602. doi:10.1007/s11695-019-04220-9.
- Hebestreit H, Kriemler S, Radtke T 2015 Exercise for all cystic fibrosis patients: Is the evidence strengthening? *Current Opinion Pulmonary Medicine* 21: 591–595. doi:10.1097/MCP.0000000000000214.
- Hurley N, Moyna N, Kehoe B, McCaffrey N, Redmond K, Hardcastr SJ 2021 Factors influencing physical activity in adults with cystic fibrosis. *BMC Pulmonary Medicine* 21: 113. doi:10.1186/s12890-021-01482-x.
- Karila C, Ravilly S, Gauthier R, Tardif C, Neveu H, Maire J, Ramel S, Cracowski C, Legallais P, Foure H, et al. 2010 Activité physique et réentraînement à l'effort du patient atteint de mucoviscidose [Physical activity and exercise training for patients with cystic fibrosis]. *Revue des Maladies Respiratoires* 27: 301–313. doi:10.1016/j.rmr.2010.02.012.
- Kriemler S, Kieser S, Junge S, Ballmann M, Hebestreit A, Schindler C, Stüssi C, Hebestreit H 2013 Effect of supervised training on FEV1 in cystic fibrosis: A randomised controlled trial. *Journal of Cystic Fibrosis* 12: 714–720. doi:10.1016/j.jcf.2013.03.003.
- Lewis R, Cramp F 2010 Facilitators and barriers to exercise maintenance in chronic obstructive pulmonary disease: Patient views. *Physiotherapy Practice and Research* 31: 19–24. doi:10.3233/PPR-2010-31205.
- Mancuso CA, Sayles W, Robbins L, Phillips EG, Ravenell K, Duffy C, Wenderoth S, Charlson ME 2006 Barriers and facilitators to healthy physical activity in asthma patients. *Journal of Asthma* 43: 137–143. doi:10.1080/02770900500498584.
- Moola FJ, Faulkner GE, Schneiderman JE 2012 “No time to play”: Perceptions toward physical activity in youth with cystic fibrosis. *Adapted Physical Activity Quarterly* 29: 44–62. doi:10.1123/apaq.29.1.44.
- Nixon P, Orenstein D, Kelsey S, Doershuk C 1992 The prognostic value of exercise testing in patients with cystic fibrosis. *New England Journal of Medicine* 327: 1785–1788. doi:10.1056/NEJM199212173272504.
- Patton M 1990 *Qualitative evaluation and research methods*. 2nd ed. Newbury Park, CA: Sage.
- Prasad SA, Cerny FJ 2002 Factors that influence adherence to exercise and their effectiveness: Application to cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology* 34: 66–72. doi:10.1002/ppul.10126.
- Radtke T, Nevitt SJ, Hebestreit H, Kriemler S 2017 Physical exercise training for cystic fibrosis. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 11: CD002768.
- Sandelowski M 1993 Theory unmasked: The uses and guises of theory in qualitative research. *Research in Nursing and Health* 16:3: 213–218. doi:10.1002/nur.4770160308.
- Savage E, Beirne PV, Ni Chroinin M, Duff A, Fitzgerald T, Farrell D 2014 Self-management education for cystic fibrosis. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 9: CD007641.
- Schneiderman JE, Wilkes DL, Atenafu EG, Nguyen T, Wells GD, Alarie N, Tullis E, Lands LC, Coates AL, Corey M, et al. 2014 Longitudinal relationship between physical activity and lung health in patients with cystic fibrosis. *European Respiratory Journal* 43: 817–823. doi:10.1183/09031936.00055513.
- Selvadurai HC, Blimkie CJ, Cooper PJ, Mellis CM, Van Asperen PP 2004 Gender differences in habitual activity in children with cystic fibrosis. *Archives of Disease in Childhood* 89: 928–933. doi:10.1136/adc.2003.034249.
- Shelley J, Fairclough SJ, Knowles ZR, Southern KW, McCormack P, Dawson EA, Graves LE, Hanlon C 2018 A formative study exploring perceptions of physical activity and physical activity monitoring among children and young people with cystic fibrosis and health care professionals. *BMC Pediatrics* 18: 335. doi:10.1186/s12887-018-1301-x.
- Smith B, McGannon K 2018 Developing rigor in qualitative research: Problems and opportunities within sport and exercise psychology. *International Review of Sport and Exercise Psychology* 11: 101–121. doi:10.1080/1750984X.2017.1317357.
- Southern KW, Munck A, Pollitt R, Travert G, Zanolla L, Dankert-Roelse J, Castellani C 2007 A survey of newborn screening for cystic fibrosis in Europe. *Journal of Cystic Fibrosis* 6: 57–65. doi:10.1016/j.jcf.2006.05.008.
- Swisher AK, Erickson M 2008 Perceptions of physical activity in a group of adolescents with cystic fibrosis. *Cardiopulmonary Physical Therapy Journal* 19: 107–113. doi:10.1097/01823246-200819040-00002.
- Urquhart D, Sell Z, Dhouieb E, Bell G, Oliver S, Black R, Tallis M 2012 Effects of a supervised, outpatient exercise and physiotherapy programme in children with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology* 47: 1235–1241. doi:10.1002/ppul.22587.
- White D, Stiller K, Haensel N 2007 Adherence of adult cystic fibrosis patients with airway clearance and exercise regimens. *Journal of Cystic Fibrosis* 6: 163–170. doi:10.1016/j.jcf.2006.06.006.
- Whittemore R, Chase SK, Mandle CL 2001 Validity in qualitative research. *Qualitative Health Research* 11: 522–537. doi:10.1177/104973201129119299.
- Wietlisbach M, Benden C, Koutsokera A, Jahn K, Soccia PM, Radtke T 2020 Perceptions towards physical activity in adult lung transplant recipients with cystic fibrosis. *PLoS One* 15: e0229296. doi:10.1371/journal.pone.0229296.
- Williams CA, Stevens D 2013 Physical activity and exercise training in young people with cystic fibrosis: Current recommendations and evidence. *Journal of Sport and Health Science* 2:1: 39–46. doi:10.1016/j.jshs.2012.11.002.

Synthèse de l'étude 1

Les perceptions de l'activité physique par les personnes atteintes de mucoviscidose ont été explorées au cours de la dernière décennie chez les enfants (Denford et al., 2020b ; Fereday et al., 2009 ; Happ et al., 2013 ; Moola et al., 2011, 2012 ; Shelley et al., 2018 ; Swisher & Erickson, 2008) et dans une moindre mesure chez les adultes (Burnett et al., 2021 ; Hurley et al., 2021 ; White et al., 2007). Néanmoins, celles-ci se sont intéressées uniquement à des personnes atteintes à des stades légers de la maladie ou transplantés, et ont employé des questionnaires ni standardisés ni validés. De ce fait, les résultats de ces études ne peuvent être étendus aux personnes présentant des symptômes plus graves. L'objectif de cette étude était d'explorer qualitativement les facilitateurs et les barrières à l'activité physique chez les adultes atteints de mucoviscidose avec une gravité hétérogène de la maladie.

Les vingt participants (9 femmes, 11 hommes) de deux centres de ressources et de compétences de la mucoviscidose du sud de la France ont participé à des entretiens semi-directifs entre janvier et mai 2017. L'ensemble des participants étaient des volontaires d'âges, de niveaux d'éducation, de profession, d'activité physique et de lieux géographiques différents afin de couvrir le plus grand panel possible de profils. Les entretiens ont été analysés à l'aide de méthodes déductives et inductives classiquement utilisées en psychologie (Braun & Clarke, 2014 ; Patton, 1990 ; Smith & McGannon, 2017). Des codes initiaux ont été générés à partir des données pertinentes relatives aux obstacles et aux facilitateurs de l'activité physique : les éléments décrits comme des obstacles à la pratique physique ont été codés comme des barrières, tandis que les éléments décrits comme encourageant la pratique ont été codés comme des facilitateurs. Ces facilitateurs et ces barrières ont été regroupés en thèmes potentiels, classés en catégories physiques, psychologiques et environnementales. La congruence entre la littérature existante sur les obstacles et les facilitateurs de l'activité physiques et les concepts identifiés dans notre analyse a été examinée pour étiqueter les différents codes et thèmes (Sandelowski, 1993). Les sous-thèmes ont été affinés et étiquetés en comparant les récits codés et les résultats de l'analyse documentaire initiale (Burnet et al., 2021 ; Denford et al., 2020b ; White et al., 2007). A l'aide de la méthode de triangulation (Whittemore et al., 2001), la classification et l'analyse initiales ont été discutées, critiquées et modifiées à plusieurs reprises jusqu'à ce que les chercheurs obtiennent un consensus.

Les résultats ont abouti à une classification en deux catégories, les barrières d'un côté et les facilitateurs de l'autre, chacune divisée en trois sous-catégories en fonction de leur nature : (a) physique, (b) psychologique, et (c) environnementale. Les barrières physiques regroupaient

la fatigue (induite par la mucoviscidose ou par la pratique physique) et l'essoufflement induit par la maladie. Les barrières psychologiques, plus fréquentes et prédominantes que les barrières physiques, incluaient les perceptions négatives de l'activité physique (i.e., effets négatives sur la santé d'une pratique inappropriée ou trop intense, les sensations désagréables induites par la pratique, et le risque de contamination croisée), le manque de motivation et d'intérêt pour l'activité physique, ainsi que le manque perçu de capacités physiques. Enfin, les barrières environnementales regroupaient les priorités concurrentes (i.e., les activités professionnelles, les traitements médicaux, les occupations familiales), le manque d'offres en activités physiques adaptées (i.e., manque de structures et de matériel adéquats) et le manque de soutien social. Quant aux leviers, on identifie dans les facilitateurs physiques, les bénéfices respiratoires de l'activité physique, l'amélioration de l'état de santé général (i.e., maintien de l'autonomie et de la fonction musculaire, la réduction de la fatigue, le gain d'énergie, l'augmentation de l'espérance de vie, la réduction du besoin de médicaments, et le contrôle du poids), et la préparation à la transplantation pulmonaire. Les facilitateurs psychologiques incluaient les perceptions positives de l'activité physique (i.e., plaisir et bien-être), l'amélioration de l'estime de soi et le sentiment d'accomplissement. Enfin, les facilitateurs environnementaux regroupaient le soutien social ainsi que la disponibilité des installations et du matériel.

Au regard de ces résultats, il nous est apparu pertinent d'explorer les spécificités relevées au sein de cette étude avec les précédents travaux menés chez les enfants (Denford et al., 2020b), chez d'autres pathologies respiratoires (i.e., l'asthme, Mancuso et al., 2006, et la broncho-pneumopathie chronique obstructive, Lewis & Cramp, 2010) ainsi qu'avec d'autres populations vulnérables (i.e., les personnes âgées, Baert et al., 2011, les personnes en situation d'obésité, Hayotte et al., 2020, et les personnes touchées par le VIH, Gray et al., 2019). Un grand nombre de similitudes ont pu ainsi être constatées, mais des barrières spécifiques ont également pu être identifiées comme le manque d'équipement approprié (i.e., le manque d'oxygène) et le risque perçu de contamination croisée, de même qu'un facilitateur spécifique lié à la transplantation pulmonaire. Ainsi, cette étude contribue à une nouvelle ligne de recherche dans cette population. Elle facilite l'évaluation du stade de changement de l'activité physique et suggère des orientations pour une approche plus personnalisée de l'intervention et une meilleure individualisation des soins. Cette étude pourrait permettre d'initier le développement d'un outil de mesure des freins et des leviers à la pratique physique adaptés aux spécificités des personnes atteintes de mucoviscidose, permettant ainsi de favoriser la promotion de l'activité physique adaptée.

Étude 2.

Physical Activity Promotion in French Cystic Fibrosis Centers: Capitalizing on Experience^{1, 2, 3}.

¹ Cette étude a fait l'objet d'une communication affichée :

Ladune, R., d'arripe-Longueville, F., Ramel, S., Mely, L., & Vuillemin, A. (2022, May 15-19). Promotion de l'activité physique adaptée chez les patients atteints de mucoviscidose : Conception et conditions d'efficacité d'un modèle d'intervention au sein des Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose (PAPA-CRCM). 24^{ème} Conférence mondiale de l'Union internationale de Promotion de la Santé et d'Éducation pour la Santé (UIPES) sur la promotion de la santé, Montréal, Canada.

² Cette étude a fait l'objet d'une communication affichée :

Ladune, R., d'arripe-Longueville, F., Ramel, S., Mely, L., & Vuillemin, A. (2022, June 3). Promotion de l'activité physique adaptée chez les patients atteints de mucoviscidose : Conception et conditions d'efficacité d'un modèle d'intervention au sein des Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose (PAPA-CRCM). Journée de l'École Doctorale, Nice, France.

³ Cette étude est en cours de révision

Physical Activity Promotion in French Cystic Fibrosis Centers: Capitalizing on Experience

Raphaëlle, C, LADUNE¹, MSc

Fabienne d'ARRIPE-LONGUEVILLE¹, PhD

Laurent, G, MELY², MD

Sophie RAMEL³, MD

Anne VUILLEMIN¹, PhD

¹ Université Côte d'Azur, LAMHESS, France

² Hôpital Renée Sabran Hospices Civils de Lyon, Cystic Fibrosis Center, Giens, France

³ Cystic Fibrosis Center, Fondation Ildys, Roscoff, France

Funding details: This work was financially supported by the Association Grégory Lemarchal.

Disclosure of interest: The authors report there are no competing interests to declare.

Acknowledgments: We thank all the participants for their participation in this study.

Abstract:

Background: Physical activity (PA) provides physical and psychosocial benefits for people with cystic fibrosis (pwCF). However, practice levels remain below recommendations and strategies for promoting PA in specialist centers need to be better identified. The socio-ecological model of health places emphasizes the central role of policies and environment in influencing individuals' health behaviors. This model provided a basis for understanding how health professionals perceive the promotion of PA in their centers.

Objective: The aim of this study was to explore intervention components of PA promotion in specialized CF centers in France that are "experienced" in PA promotion, to identify elements that can be transferable to other centers.

Methods: A descriptive qualitative study was conducted with sixteen healthcare professionals and pwCF. Semi-structured interviews were conducted and analyzed using inductive and deductive methods classically used in psychology.

Results: Five themes were extracted: the action and its context, the partnerships established around this action to promote physical activity, the evaluation of the action, its reproducibility, and the changes induced by COVID-19.

Conclusions: Some factors emerged as essential for promoting PA among pwCF, notably the dialogue between the health professionals and patients, the presence of adapted PA instructors, and the involvement of partners.

Key words: Physical activity, Adapted physical activity, Cystic fibrosis, Capitalization, Socio-ecological model

Introduction

Cystic fibrosis (CF) is a rare genetic disease (Walters and Mehta, 2007) characterised by the thickening of mucus in several organs, usually manifesting as coughing, sputum production, recurrent bronchopulmonary infections, stomach discomfort and fatigue. Medical therapies have significantly improved in recent years, enabling a marked improvement in life expectancy (Cystic Fibrosis Trust, 2017). Current care combines various treatments and therapies, including physical activity (PA, Piggin, 2020): “Physical activity involves people moving, acting and performing within culturally specific spaces and contexts, and is influenced by a unique array of interests, emotions, ideas, instructions and relationships.” PA encompasses sports, adapted physical activity (APA), exercise and recreational activities (Savage et al., 2014). It improves patient outcomes, such as reduced hospitalizations and use of medication and increased aerobic capacity, which is closely linked to greater life expectancy, (Cox et al., 2016; Hulzebos et al., 2014), increased exercise tolerance, facilitated expectoration, and enhanced quality of life (Radtke, Hebestreit, and Kriemler, 2017). It also enhances perceptions of wellness and self-image (Selvadurai et al., 2004) and slows the decline in lung function (Kriemler et al., 2013). Furthermore, PA is a non-drug therapy with few contraindications (Hebestreit, Kriemler, and Radtke, 2015).

PA programs for people with CF (pwCF) have developed significantly over the past few decades in specialized medical institutions (Le Gal, Vandervelde, Poncin, and Reychler, 2016). These programs recommend combined strength-building and aerobic exercise (Donà et al., 2006) or an interval training model (Gruber, Orenstein, Braumann, and Beneke, 2014) to improve exercise capacity and psychological dimensions. Recommendations for assessment, quantification, and implementation of APA programs have been developed with the goal of changing health behaviors and integrating PA as a complete therapy in the routine management of pwCF (Karila et al., 2010). The inclusion of these APA programs within the PA promotion strategy of health institutions (e.g., hospitals) is essential.

Despite the known benefits, PA levels in pwCF remain below the recommendations (Cox, Alison, and Holland, 2013; Selvadurai et al., 2004), as well as below the levels of healthy peers in terms of intensity and duration (Burnett, Barry, and Mermis, 2020). This can be explained by the specific barriers to PA identified among this population, which were classified into physical, psychological and environmental dimensions (Ladune et al., 2021). Physical barriers include fatigue and breathlessness; psychological barriers include negative perceptions of PA, lack of motivation for or interest in PA, and perceived lack of physical ability; and environmental barriers are competing priorities, lack of APA opportunities, and lack of social

support (Ladune et al., 2021). However, factors that facilitate the practice of PA were also observed. These facilitators were identified at the physical level (perception of easier breathing, improvement in general health and preparation for transplant), the psychological level (improvement in self-esteem and feelings of accomplishment), and the environmental level (social support and availability of facilities (Ladune et al., 2021).

Despite the identification of these facilitating factors, consensus among specialized centers about the promotion of PA to pwCF has not been reached, with wide heterogeneity in practices (Denford et al., 2019). Although some specialized centers are "experienced" in PA promotion (i.e., emphasizing PA programs in their care policies, including patient follow-up), others seem to be "non-expert" (i.e., offering little or no PA and follow-up in their care policies). The "experienced" centers adapt PA to the specificities of their patients in terms of intensity, session contents, activities offered, and the supervision of the sessions by qualified professionals, all defining elements of APA.

The health promotion strategies highlighted by the Ottawa Charter (World Health Organization, 1986) focus on implementing actions that enable people to better control and improve their health. This approach emphasizes the importance of a contextual approach to public health (Golden et al., 2015; McLeroy, Bibeau, Steckler, and Glanz, 1988; Whitelaw et al., 2001). Thus, strategies to promote PA need to be adapted to social norms, contexts and cultures and should further include public spaces and facilities, such as urban design and attention to individual safety (Bauman et al., 2012; Pratt et al., 2015). The application of this socio-ecological model to the PA field considers the following four levels of influence: (a) the intrapersonal level, including healthcare-oriented interventions; (b) the interpersonal level, including family and peer social support strategies; (c) the community and organizational level, including education, support, and informational, behavioral, or environmental approaches; and (d) the environmental and political level, with the creation of spaces dedicated to PA combined with urban design and land use policies (Pratt et al., 2015; Sallis et al., 2006). Understanding how these factors interact is a major consideration in getting people to engage in regular PA. To properly understand them, a multilevel approach is necessary. The socio-ecological model can be used to take this global perspective and examine the interactions between barriers, facilitators, and their subcategories.

In order to explore the transferability of PA policies and actions to "non-expert" centers, a better understanding of how "experienced" centers are organized and operate is crucial. This requires collecting data on their practices and then transforming experiential knowledge into

shareable knowledge. From this perspective, a method of capitalizing on experience appeared to be the most appropriate approach when considering the discourse and activities involved in the process of promoting PA (i.e., human, environmental and economic resources, partnerships, etc.). Therefore, the purpose of this study was to explore intervention components of PA promotion in French specialized CF centers that are "experienced" in PA promotion to identify the models and strategies of PA and APA promotion that may be transferable to other centers.

Materials and Methods

Study Design

This study used a descriptive qualitative approach, through individual semi-structured interviews and focus groups. This approach allows for the realities and opinions of the participants to be considered in the context they are presented (Lincol and Guba, 1985). The study was approved by the Université Côte d'Azur Ethics in Research Committee (*Comité d'Éthique pour les Recherches Non Interventionnelles*: Ethics Committee for Non-Interventional Research - CERNI 2020-81).

Population and Sample

All participants were recruited from two specialized CF centers in France, selected for their progressive attitudes regarding the promotion of PA. Inclusion criteria were health professional status or adult pwCF, aged 18 years or older and French-speaking. Participants of various ages, with different degrees of disease severity, education levels and geographic locations were interviewed to cover the largest range of profiles. The interviews were conducted from January 2021 to May 2022. Participants gave their informed consent before the interviews were conducted. The participants included twelve health professionals (4 doctors, 2 coordinating nurses, 3 physiotherapists, 2 APA instructors, and 1 dietitian who is also an APA instructor) and four pwCF.

Data Collection

Data were collected using a "capitalization" method that was devised in France to transform practical experience into shareable knowledge (French Society of Public Health, 2016). The first stage consisted of defining the approach, based on identifying which factors for PA promotion in the specialized CF centers would be transferable. The second stage involved collecting data through (I) individual qualitative interviews and (II) focus groups. Individual

interviews were conducted to document the PA and APA actions using an interview guide structured around five themes: (a) the action and its context (Observation, Opportunity, Action, Purpose, Scientific data and theoretical model, Facilitating elements of the action, Barriers to action and coping strategies, and Tools employed), (b) partnerships (Partnerships, Motivation and origins of the partnerships, Competencies to be strengthened by additional partnerships, Facilitators for the development of partnerships, and Barriers to the development of partnerships), (c) evaluation of the action (Evaluation, Indicators of success, Indicators of failure, Difficulties in setting up, and Limitations of the project), (d) the replicability of the action (Requirements for replicating the action, and Key elements), and (e) the changes caused by COVID-19 (Modifications in APA practice, Strategies implemented, and Benefits). The focus groups were organized to identify the key elements in evaluating the action and to list the internal and external factors influencing these elements.

Data Analysis

The interview recordings were transcribed *ad verbatim* and analyzed line by line. A descriptive qualitative approach was used to identify the main themes (Braun and Clark, 2014; Smith and McGannon, 2018). This analysis included the notes taken during the interviews, with researchers carefully reading through these data several times to become familiar with them. An initial code was generated using a line-by-line coding method relevant to the PA promotion data. Items related to the environment, history, and people involved were coded as action and context; all the relationships around the project were coded as partnerships of the action; all measures related to the success or failure criteria of the action were coded as evaluation of the action; all elements identified as essential to the implementation of the action were coded as reproducibility of the action; and all modifications induced by COVID-19 were coded as COVID-19. A deductive approach was used to categorize all the data according to these themes. With an inductive approach and the categorization of the experience capitalization methodology, sub-themes were then defined within these themes. Congruence between the literature on these five themes and the concepts noted in our analysis was examined to label the different codes and themes (Sandelowski, 1993). Once all individual interviews were analyzed, the emerging themes and sub-themes enabled an in-depth interpretation of the data and resulted in an initial synthesis document. This overview was used as the baseline for the focus groups. The discussions of these groups were transcribed and used to adjust the summary of the individual interviews. Finally, the results were summarized in a report.

Data Availability

The data associated with the paper are not publicly available but are available from the corresponding author on reasonable request.

Results

All quotes illustrating themes and subcategories are presented in Table 1.

Theme 1: Action and Context

Observation

The specialized centers of this study have been suggesting PA to their patients for more than twenty years, offering the help of sports instructors or educators. This approach was implemented not only because of the positive feedback and experiences in other respiratory diseases, such as chronic obstructive pulmonary disease, but also because of the reports from more advanced centers in other countries. PA has been offered as part of the respiratory rehabilitation of pwCF for about ten years. This activity is well codified (i.e., APA and not just PA, equipment provided, dedicated times, etc.), adapted to the specificities of pwCF, and carried out with the help of qualified professionals (i.e., APA instructors).

Opportunity

PA promotion has developed as opportunities have arisen. One of the most important factors is the culture of sports and PA among the health professionals in these specialized centers, who are well aware of the benefits of regular PA and who generally believe it is essential to make pwCF aware of these benefits. Likewise, the availability of sports instructors specialized in APA and the specificities of CF is also a major advantage for these centers. PA is offered in an adapted form and in an appropriate environment. Also, the availability of facilities (i.e., to accommodate both the patients and the various types of sports equipment) was a major factor mentioned by all members of the medical team.

Action

APA promotion was based on several strategies. It was promoted to pwCF throughout the year, in particular through informal discussions during follow-up consultations and annual assessments. Physical practice was systematically monitored. When neither PA nor APA was being practiced, pwCF were referred to the APA instructor for advice and guidance. Over a

period of three to four weeks, pwCF followed a program that explored several types of PA and education therapy, and they were also provided with the opportunity to meet the whole medical team (i.e., physiotherapists, psychologists, social worker, etc.), with the goal of introducing PA into each person's daily life in a sustainable way. This inpatient program enabled patients to try various types of PA under the supervision of professionals. In addition, offering APA in day hospitals to patients residing close to the specialized centers was another a way to promote PA. The aim was to familiarize the patients with physical practices in a secure and safe environment, with the expectation that they would eventually practice PA outside the hospital context.

Purpose

The main objective of PA promotion in these centers is to encourage regular PA practice over the long term. The secondary objectives are to develop a sense of pleasure in performing PA and gains in respiratory and muscular functions, characterized by improved airway clearance and improved results on the 6-minute walk test (6MWT). Therapeutic patient education further encouraged interest in improving posture, breathing techniques and effort management.

Research Data and Theoretical Model

The action to promote PA was based on findings in the research literature, initially from studies mainly focused on respiratory pathologies other than CF, such as chronic obstructive pulmonary disease (COPD). In order to stay abreast of the latest developments, the health professionals also regularly participate in national and international congresses where they exchange information on different techniques from different parts of the world. More recently, patient associations have produced materials specific to APA and pwCF in formats such as DVDs and paper brochures, which have informed actions to promote PA.

Facilitating Factors of the Action

Several factors influenced the development of PA promotion. The most important was the medical team. Its multidisciplinary nature and general involvement in APA allowed it to encourage the promotion of PA and APA, for example by prioritizing APA in patients' daily schedules despite the time-consuming aspects of other treatments. The infrastructure also contributed to the promotion of APA, both in terms of its diversity (i.e., indoor and outdoor activities, with some seasonal specificities) and the number of facilities available in each center. Another facilitating element was the effect of group activities. These activities helped develop

and reinforce social links and mutual aid, and they had a positive effect on motivation. Patient associations that provide human resources (i.e., network of APA instructors specialized in CF), financial resources (i.e., financing of APA instructor positions), and material resources were a major asset in the promotion of APA among this population.

Barriers to Action and Coping Strategies

The main barrier to promoting APA was the medical staff's lack of time to explore with pwCF what PA would be appropriate, their likes and dislikes, and their goals. A second major barrier was pwCF's lack of motivation or resources, a worsening of the disease, or unwillingness to practice PA. In order to overcome these difficulties, patient associations have financed positions for sports instructors. Regarding the barriers intrinsic to patients, different strategies were used, such as involving the family in regular PA, ensuring regular follow-up between the pwCF and the sports instructor, financing the purchase of sports material or memberships to sports clubs, and collaborating with individuals to explore activities that correspond to their motivation and capacity.

Tools Employed

APA at the specialized centers was mainly promoted through dialogue during quarterly check-ups. In addition, social networks and Facebook pages enabling interactions between the health professionals and pwCF were used to issue sports challenges and share tips. The health professionals used the results of annual check-ups to assess the beneficial effects of APA. Tests included the 6MWT and respiratory function tests. The 6MWT is a functional test in which the distance covered in six minutes is assessed. Its results are a reliable predictor of mortality (Nixon, Orenstein, Kelsey and Doershul, 1992). The aim of functional respiratory testing is to measure and study the performance of the respiratory system. The patient blows into a mouthpiece connected to a spirometer, and the results are processed by a computer and compared to those of a healthy person of a similar sex, height and age. Recent work by Urquhart, Hebestreit, and Saynor (2022) has highlighted the ceiling effect of 6MWT in pwCF with mild to moderate lung disease and has therefore questioned its effectiveness in measuring lung function in people with mild to moderate disease. However, it remains an interesting tool for pwCF with more severe disease or for evaluation while awaiting lung transplantation (Saynor et al., 2023). Therapeutic education was also used during respiratory rehabilitation.

Theme 2: Partnership

Partnerships

The main partners were the national pwCF associations, who were involved at various levels: organizing fundraising days, financing sports instructor positions and sports equipment for the centers, and funding items of sports equipment and individual memberships in sports clubs for pwCF. These associations helped create a network of sports instructors to facilitate exchanges between professionals specialized in CF, which was especially useful in more challenging patient presentations. They also played a major role in funding research, in both the medical field and the field of promoting APA for pwCF. Finally, these associations provided funding for equipment to improve the comfort and quality of life of hospitalized patients, thus improving the promotion of APA in hospitals. Similarly, local partnerships were built with health professionals outside hospitals, with the aim of facilitating the continuation of regular APA outside the hospital setting. These partners included physiotherapists, sports clubs, osteopaths and sports federations. Not least, university projects run by schools of sports sciences also ensured the promotion of APA through various research projects and the development of new tools.

Motivation and Origins of these Partnerships

The main motivation for these partnerships was to improve the living conditions for pwCF. Research advances over the past twenty years, particularly regarding regular PA or APA, have already shown that these activities improve quality of life and life expectancy (Le Gal et al., 2016). Yet, despite these known benefits, it has been difficult for specialized centers to allocate the necessary financial, human, and material resources. The second motivation was the conviction that the benefits acquired during inpatient stays for respiratory rehabilitation could be prolonged by encouraging the maintenance of regular APA post-discharge. Thus, the partnerships were motivated to ensure the continuity of physical practice after the end of the rehabilitation period.

Competencies to be Strengthened by Other Partnerships

Although the current partnerships played a major role in promoting APA in the centers, new partnerships might further enhance their effectiveness. For example, hiring an additional APA instructor would make it possible to establish more group levels, enabling more pwCF to participate in these APA sessions. Similarly, partnerships with sports clubs within the

framework of one-off events would make it possible to introduce APA to patient groups outside the specialized centers.

Facilitators for Developing Partnerships

The main facilitator for partnership building was that the primary partners were patient associations with the vocation of promoting progress in the medical field and improving patients' quality of life. Another factor was the ease of exchange with the partners and their responsiveness in responding to proposed projects. Regular contact with the main partners also greatly facilitated the implementation of the various actions.

Barriers to Developing Partnerships

The main difficulty identified in setting up partnerships was in providing training to the network to create such partnerships, particularly those outside the hospital setting. The second barrier was the lack of time and the lack of human resources, both of which are crucial for creating, establishing, and maintaining partnerships.

Theme 3: Evaluation of the action

Evaluation

The promotion of APA for pwCF was evaluated through annual reviews and quarterly visits. Informal interviews about daily PA provided a general overview of the PA level. The second indicators were the result of the 6MWT and the functional respiratory explorations. Results that were within normative ranges or better than the previous year suggested that the PA levels had been maintained or increased. A decline suggested a decrease or cessation of PA and led to conversations seeking to understand the reasons. More advanced check-ups were conducted during APA sessions. These evaluations served as a basis for personalised programs and then for monitoring progress and readjusting programs. The option of telephone follow-up was also provided, giving patients the opportunity to discuss PA, obstacles encountered outside the hospital and appropriate solutions.

Indicators of Success

The indicators of success were multiple. First, patients' verbal feedback on the benefits of engaging in PA indicated success. These perceived benefits included improved quality of life, gains in muscular strength and respiratory function, and the pleasure of being physically active and the desire to be active every day. Requests from pwCF for further advice on how to

improve their PA performances was also an indicator of success. Similarly, patients reaching their goals was another indicator of success. These goals were personal and defined by the patients with the health professionals in a way that was objective and achievable. Last but not least, improvement in the annual check-up results ~~indicated~~ suggested the maintenance of PA outside the hospital and thus the success of the APA promotion, although these results can also be affected by changes in lifestyle or the use of modulating therapies, for example.

Indicators of Failure

The most significant indicator of failure was not engaging in PA or stopping without a medically justified reason. In fact, the main objective of PA promotion in these specialized centers was regular physical practice, based on pleasure and intrinsic motivation. Thus, a person practicing only under duress and without internal motivation was another indicator of failure, as the practice seemed unlikely to last over time.

Difficulties in Setting Up

The greatest obstacle to developing this APA promotion project was the lack of financial, human and time resources. These resources are essential whether it be to talk with patients, set up personalized APA programs, or deliver them. Administrative constraints and the long-time frames needed also made it difficult to implement promotion projects.

Project Limitations

The main limitation was that the evaluations of the actions were not thorough enough due to the lack of time and health professionals to carry them out. A standardized tool to evaluate the scope of the APA promotion action would be a plus and would also give more transparency to their promotion efforts. In addition, the current evaluation of APA is largely based on the accounts of health professionals and pwCF involved, which may be deliberately or unintentionally incorrect or misleading.

Theme 4: Reproducibility

Requirements for Replicating the Action

The most important resources for promoting APA were human and material, and the characteristics of the medical team played a major role. The health professionals should be favorable to APA and motivated to transmit this attitude to pwCF. In addition, appropriate professionals with expertise in both CF and PA are major assets. Ideally, these professionals

should be working in specialized centers and, if not, they should be partnered with and collaborate directly with the hospital. Equipment adapted to both CF (i.e., equipment measuring blood oxygen levels, heart rate monitors, oxygen bottles) and APA are important. It is therefore necessary to offer dedicated facilities and sports equipment – at the very least, ergometers and gym equipment.

Key Elements

The most important element according to the health professionals was the quarterly check-up when discussions about APA took place. These discussions were all the more important during periods that were conducive to changes in life habits (i.e., starting school, college, high school, work life, etc.). Another key element was the group APA session, which provided considerable motivation for APA at the individual level. The group effect was such that everyone found that they were able to succeed at least to some extent, and conversations were shared among the pwCF. Group sessions were conducted in compliance with the recommendations on safe practice with regard to cross-infection: maintaining a distance of 2 m between each participant, wearing a mask or protective visor, and disinfecting equipment before and after use.

Theme 5: COVID-19-related adjustments

Modifications in APA Practice

For most pwCF, COVID-19 and the lockdown had a strong impact on the practice of APA. The general activity of the specialized centers was considerably reduced, particularly with the closing of day hospital programs. Patients could no longer come to the center for supervised APA outside their rehabilitation stays. Sports clubs were also forced to close, and thus members with CF, along with a considerable fraction of the national population, stopped regularly practicing physical activity.

During the lockdown period, the specialized centers had to review and adapt their manner of functioning. APA outside the medical centers was no longer permitted, and APA sessions in day hospitals were difficult to re-establish when restrictions were lifted.

Strategies Implemented

In order to adapt to the changes induced by COVID-19, the specialized centers accelerated the development of some of their actions, in particular the offer of APA training by videoconference. The centers thus placed more emphasis on providing the equipment needed

to carry out remote sessions properly. This project had already been underway, especially for people who could not travel or were too far from the centers. In addition to videoconferencing, the use of social networks and other technologies was more widely developed, including the production of videos of APA sessions that could be carried out at home with little equipment and the creation of small home challenges. Finally, although sports clubs were closed and outings were limited during the lockdown, pwCF were encouraged to turn to outdoor APA, for example walking, while respecting the health rules in place.

Benefits of COVID-19

Although the impact of COVID-19 was mostly negative, it should be noted that the accelerated development of social networks and videoconferencing is today a real asset. The specialized centers are better equipped to offer APA sessions throughout the year to a wide variety of people and to give them opportunities to talk about the barriers and facilitators to their practice. A few patients even mentioned that they had increased their regular APA practice during the lockdown period because their usual competing priorities (i.e., work, leisure activities) had been greatly reduced. However, the number was very small compared to the number of pwCF who stopped APA completely.

Discussion

This study focused on two specialized centers that were "experienced" in promoting APA for pwCF and we sought to understand how they implemented key strategies and interventions for PA promotion. The data collected fill a gap in the research, providing evidence of the workability of this APA promotion approach in CF centers. The results support the use of the contextual approach to understand these centers, as its main characteristics encompass the multilevel and multistrategy interventions that they use. The results also highlight the limited studies on APA promotion interventions in specialized CF centers, which might be explained by the lack of standardized measures.

The four levels of contextual approach (Pratt et al., 2015), as adapted to the context of APA promotion in specialized CF centers, provide the basis for the following discussion. On the intrapersonal level, the health of pwCF was at the heart of every health professional's concerns. Health professionals used empowerment strategies via PA to give pwCF the sense of being actors in their own health and thus maximize regular APA in their daily lives. This is consistent with previous work (Prasad and Cerny, 2002), which emphasized that PA increases

the feeling of being in charge of one's illness, thus helping pwCF to become more active in their own health. The quality of life of pwCF was a central concern for the healthcare professionals, and good physical condition is known to be directly associated with a better quality of life for them (Hebestreit et al., 2014). Regular PA practice was considered essential to this improvement. This emphasis on PA in these specialized centers occurred in parallel with research demonstrating the benefits of (a) physical activity for pwCF over the past twenty years, (b) self-determined motivation, and (c) empowerment (MacKenzie et al., 2014). Emphasis was also placed on people's feelings of well-being and quality of life.

On the interpersonal level, a key element identified in the promotion of APA in these centers was participation in APA practice groups that mixed pwCF of all ages with all levels of PA and different degrees of breathing difficulties. These group APA sessions with other pwCF were opportunities for sharing the difficulties they encountered and the strategies to overcome them, reinforcing motivation, and testing new activities. These key elements enabled the development of skills essential for regular physical practice, including the creation of social links, exchanges with trained professionals, building of self-confidence and confidence in their abilities, the acquisition of the knowledge needed for APA practice, and links with appropriate associations. This is consistent with previous work in children (Denford et al., 2019), which suggested that making PA enjoyable and normal can make it sustainable over time. They further suggested that (a) practice with peer groups should be encouraged to make PA more enjoyable and (b) PA should be presented as part of daily life and not as treatment. This result is also consistent with the need for relatedness (Ryan, 1995), reminding us that a sense of belonging is a fundamental psychological need. According to the theory of self-determination (Deci and Ryan, 2002), satisfying this primordial need positively influences self-determined motivation and negatively influences non-self-determined motivation.

On the organizational level, the major factor was the presence of sports instructors specialized in CF. The centers included APA in their programs alongside conventional therapies, and particularly emphasized its benefits. The specialized sports instructors were trained in the specificities of the hospital setting and pwCF, as well as the strategies for promoting APA in all its aspects (i.e., preparation of sessions, follow-up of people, physical check-ups and tests, promotion, etc.). Moreover, the presence of these sports experts responded to the need expressed by the other health professionals for additional training to promote APA (Tomlinson et al., 2018).

On the environmental and political level, the health professionals stated that their motivation was based on the idea that specialized CF centers have an important role to play in

the lives of pwCF. Notably, this aligns with the community health perspective of the metrics-based model to create a social context conducive to health and APA practice. This idea is in line with the factors highlighted in the literature on the value of bringing an APA culture to hospital departments, based on the following principles: inform and motivate, mobilize caregivers, and use tools and resources. In addition, partners financing the purchase of sports equipment was a major asset as it removed financial barriers.

In terms of the reproducibility of actions, some require significant financial, material and human resources, whereas others can be adapted for smaller organizations. The most important favorable factor for promoting APA was the motivation and mutual support of the multidisciplinary team of health professionals. This is consistent in the promotion of PA in other contexts, such as other pathologies (e.g., cancer: Falzon et al., 2014; HIV: Gray et al., 2021; obesity: Hayotte et al., 2020), as well as for the elderly (Baert et al., 2011). The second important favorable factor was the discussion of physical activity practice during the four quarterly check-ups, as these check-ups offered a logical time for reflecting on APA based on simple questions about the daily lives of the pwCF. This is consistent with a study that highlighted the importance of long-term follow-up (i.e., at least 12 months) to establish PA in the daily lives and homes of pwCF (Cox, Alison, and Holland, 2014).

These specialized centers, as "experts" in promoting APA, tried to evaluate the effects of promoting regular APA practice. Evaluations of the impact of their measures to promote APA were nevertheless lacking, although the action continued to take place. Only subjective observations on the part of health professionals were made, and these seemed to indicate an increase adherence to APA by pwCF. This situation may be explained by the lack of consensus on APA recommendations across CF centers (Karila et al., 2010), but more importantly by the lack of human and time resources to conduct these evaluations. Despite this lack of evaluation, the promotion of APA appears to be feasible and to have a positive impact on pwCF. Nevertheless, a longitudinal study of the development of APA promotion projects and the long-term effects is needed to consolidate these findings.

Regarding the changes linked to COVID-19, although it significantly slowed down the APA promotion and frequency of sessions, the specialized centers adapted quickly. Practical solutions were put into place to ensure that the links with patients were maintained, thanks to social networks and videoconferencing. This points to the importance given to APA promotion on the part of these CF centers and their determination to continue to progress in this direction. Similarly, the arrival of new treatments for CF tended to change the way APA was promoted, always with a view to improving people's quality of life.

Conclusion

The present work highlights the intervention components of APA promotion in French specialized CF centers that are "experienced" in APA promotion. While the main objective of these centers in promoting APA is to encourage as many pwCF as possible to regularly engage in APA, the project also seeks to create a network of professionals to encourage this practice outside the medical setting. To do so, several partners need to be involved to ensure adequate human, material and financial resources. While the project still needs to be improved with standardized tools to evaluate the impact of APA promotion measures, some of the factors are transferable to "non-expert" APA promotion centers.

References

- Baert V, Gorus E, Mets T, Geerts C, Bautmans I 2011 Motivators and barriers for physical activity in the oldest old: A systematic review. *Ageing Research Reviews* 10: 464–474.
- Bauman AE, Reis RS, Sallis JF, Wells JC, Loos RJF, Martin BW 2012 Correlates of physical activity: Why are some people physically active and others not? *The Lancet* 380: 258–271.
- Braun V, Clarke V 2014 What can “thematic analysis” offer health and wellbeing researchers? *International Journal of Qualitative Studies on Health and Well-being* 9.
- Burnett DM, Barry AN, Mermis JD 2020 Physical Activity Level and Perception of Exercise in Cystic Fibrosis. *Respiratory Care* 65: 500-506.
- Cox NS, Alison JA, Holland AE 2013 Interventions for promoting physical activity in people with cystic fibrosis. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 12.
- Cox NS, Alison JA, Holland AE 2014 Interventions to promote physical activity in people with cystic fibrosis. *Paediatric Respiratory Reviews* 15: 237–239.
- Cox NS, Alison JA, Button BM, Wilson JW, Morton JM, Holland AE 2016 Physical activity participation by adults with cystic fibrosis: An observational study. *Respirology* 21: 511–518.
- Deci EL, Ryan RM 2002 Self-determination research: Reflections and future directions. *Handbook of self-determination research* 431–441.
- Denford S, Mackintosh KA, McNarry MA, Barker AR, Williams CA 2019 Enhancing intrinsic motivation for physical activity among adolescents with cystic fibrosis: A qualitative study of the views of healthcare professionals. *BMJ Open* 9.

- Donà M, Tartali C, Lanza M, Perobelli S, Zoico E, Borruso A 2006 Aerobic and strength training in patients with Cystic Fibrosis and severe airway obstruction. *Journal of Cystic Fibrosis* 5:1.
- Falzon C, Sabiston C, Bergamaschi A, Corrion K, Chalabaev A, D'Arripe-Longueville F 2014 Development and validation of the cancer exercise stereotypes scale. *Journal of Psychosocial Oncology* 32: 708–726.
- Golden SD, McLeroy KR, Green LW, Earp JAL, Lieberman LD 2015 Upending the Social Ecological Model to Guide Health Promotion Efforts Toward Policy and Environmental Change. *Health Education and Behavior* 42: 8–14.
- Gray L, Schuft L, Bergamaschi A, Filleul V, Colson SS, d'Arripe-Longueville F 2021 Perceived barriers to and facilitators of physical activity in people living with HIV: A qualitative study in a French sample. *Chronic illness* 17: 111–128.
- Gruber W, Orenstein DM, Braumann KM, Beneke R 2014 Interval exercise training in cystic fibrosis - Effects on exercise capacity in severely affected adults. *Journal of Cystic Fibrosis* 13: 86–91.
- Hayotte M, Nègre V, Gray L, Sadoul JL, D'Arripe-Longueville F 2020 The transtheoretical model (TTM) to gain insight into young women's long-term physical activity after bariatric surgery: A qualitative study. *Obesity Surgery* 30: 595– 602.
- Hebestreit H, Schmid K, Kieser S, Junge S, Ballmann M, Roth K 2014 Quality of life is associated with physical activity and fitness in cystic fibrosis. *BMC Pulmonary Medicine* 14:303-336.
- Hebestreit H, Kriemler S, Radtke T 2015 Exercise for all cystic fibrosis patients: Is the evidence strengthening? *Current Opinion in Pulmonary Medicine* 21: 591–595.
- Hulzebos EHJ, Bomhof-Roordink H, Van De Weert-Van Leeuwen PB, Twisk JWR, Arets HGM, Van Der Ent CK, Takken T 2014 Prediction of mortality in adolescents with cystic fibrosis. *Medicine and Science in Sports and Exercise* 46: 2047–2052.
- Karila C, Ravilly S, Gauthier R, Tardif C, Neveu H, Maire J 2010 Physical activity and exercise training for patients with cystic fibrosis. *Revue Des Maladies Respiratoires* 27: 301–313.
- Kriemler S, Kieser S, Junge S, Ballmann M, Hebestreit A, Schindler C 2013 Effect of supervised training on FEV1 in cystic fibrosis: A randomised controlled trial. *Journal of Cystic Fibrosis* 12: 714–720.
- Ladune R, Filleul V, Falzon C, Hayotte M, Mély L, Vallier JM, Gruet M, Vuillemin A, d'Arrippe-Longueville F 2021 Perceptions of barriers to and facilitators of physical activity in adults with cystic fibrosis. *Physiotherapy Theory and Practice* 1–11.

- Lincol Y, Guba E 1985 *Naturalistic inquiry*. Sage.
- Le Gal C, Vandervelde L, Poncin W, and Reychler G 2016 Impact de l'exercice physique chez les patients atteints de mucoviscidose : revue systématique. *Revue Des Maladies Respiratoires* 33: 573–582.
- MacKenzie T, Gifford AH, Sabadosa KA, Quinton HB, Knapp EA, Goss CH 2014 Longevity of patients with cystic fibrosis in 2000 to 2010 and beyond: survival analysis of the Cystic Fibrosis Foundation patient registry. *Annals of internal medicine* 161:233–41.
- Mcleroy KR, Bibeau D, Steckler A, and Glanz K 1988 An Ecological Perspective on Health Promotion Programs. *Health Education & Behavior* 15: 351–377.
- Nixon PA, Orenstein DM, Kelsey SF, Doershuk CF 1992 The prognostic value of exercise testing in patients with cystic fibrosis. *The New England journal of medicine* 327:1785-1788
- Piggin J 2020 What Is Physical Activity? A Holistic Definition for Teachers, Researchers and Policy Makers. *Frontiers in sports and active living* 2:72.
- Prasad SA, and Cerny FJ 2002 Factors that influence adherence to exercise and their effectiveness: Application to cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology* 34: 66–72.
- Pratt M, Perez LG, Goenka S, Brownson RC, Bauman A, Sarmiento OL 2015 Can Population Levels of Physical Activity Be Increased? Global Evidence and Experience. *Progress in Cardiovascular Diseases* 57: 356–367.
- Radtke T, Sj N, Hebestreit H, & Kriemler S 2017 Physical exercise training for cystic fibrosis. *The Cochrane database of systematic reviews* 11.
- Ryan RM 1995 Psychological Needs and the Facilitation of Integrative Processes. *Journal of Personality* 63: 397-427.
- Sallis JF, Cervero RB, Ascher W, Henderson KA, Kraft MK, Kerr J 2006 An Ecological Approach To Creating Active Living Communities. *Annual Review of Public Health* 27: 297–322.
- Sandelowski M 1993 Theory unmasked: The uses and guises of theory in qualitative research. *Research in Nursing and Health* 16: 213–218.
- Savage E, Beirne PV, Ni Chroinin M, Duff A, Fitzgerald T, Farrell D 2014 Self management education for cystic fibrosis. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 6.
- Saynor Z, Gruet M, McNarry M, Button B, Morrison L, Wagner M, Sawyer A, Hebestreit H, Radtke T, Urquhart D 2022 Guidance and standard operating procedures for functional exercise testing in cystic fibrosis *European Respiratory Review* 32.
- Selvadurai HC, Blimkie CJ, Cooper PJ, Mellis CM, and Van Asperen PP 2004 Gender

- differences in habitual activity in children with cystic fibrosis. *Archives of Disease in Childhood* 89: 928–933.
- Smith B, McGannon KR 2018 Developing rigor in qualitative research: problems and opportunities within sport and exercise psychology. *International Review of Sport and Exercise Psychology* 11: 101-121.
- Tomlinson O, Shelley J, Denford S, Barker A, Oades P, Williams C 2018 Promotion of exercise in the management of cystic fibrosis – summary of national meetings. *European Journal for Person Centered Healthcare* 6:196.
- Urquhart D, Hebestreit H, Saynor Z 2022 Gold standard field test is non-sequitur. *Pulmonology* 29:173.
- Walters S, Mehta A 2007 Epidemiology of Cystic Fibrosis. *Cystic fibrosis* 3: 21-45.
- Whitelaw S, Baxendale A.B, MacHardy L, Young I, Witney E 2001 ‘Settings’ based health promotion: a review. *Health Promotion International* 16: 339–353.
- World Health Organization 1986 Ottawa Charter for Health Promotion. WHO, Copenhagen.
<https://www.who.int/teams/health-promotion/enhanced-wellbeing/first-global-conference>

Synthèse de l'étude 2

Les Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose présentent d'importantes hétérogénéités dans la prise en charge de leurs patients en activité physique. Deux centres en particulier apparaissent comme « experts » dans ce domaine, aussi bien d'un point de vue historique, que sur leur prise en charge avec leurs programmes de réhabilitation respiratoire. Cette étude avait ainsi pour objectif d'identifier les stratégies de promotion de ces centres à des fins de transposition au sein de centres moins avancés.

Cette étude s'appuie sur la méthodologie de la capitalisation des expériences, qui consiste à s'appuyer sur le discours des professionnels de santé et des patients, qui sont directement impliqués dans les actions de promotion de l'activité physique. Les différentes étapes de cette méthode ont ainsi été appliquées : (a) le cadrage de la démarche avec une étude approfondie de la littérature, (b) le recueil des informations par le biais d'entretiens semi-directifs, (c) l'analyse des données recueillies, et (d) la rédaction d'une fiche de capitalisation. Les entretiens semi-directifs ciblaient l'action et son contexte, les partenariats mis en place, l'évaluation de l'action, la reproductibilité de l'action, et les modifications relatives à la COVID-19. Les seize participants étaient composés de quatre médecins, deux infirmières coordinatrices, trois kinésithérapeutes, deux enseignants en activités physiques adaptées, un diététicien, et quatre patients.

Les résultats montrent que les centres étudiés ont pour objectif principal, dans le cadre de leur projet de promotion de l'activité physique, depuis plus de vingt ans, de faire pratiquer régulièrement une activité physique aux personnes atteintes de mucoviscidose. L'action de promotion passe essentiellement par les consultations de suivi, les séjours de réhabilitation, et les séances collectives en activités physiques adaptées, au sein desquelles se déroulent également l'évaluation indirecte de cette promotion de l'activité physique. Des partenariats majeurs avec des associations de patients (i.e., l'Association Grégory Lemarchal, l'Association Vaincre la Mucoviscidose, l'Association Étoiles des Neiges) ont été mis en place pour faciliter cette promotion, notamment l'acquisition de matériel sportif, le soutien de postes d'enseignants en activités physiques adaptées et la réalisation d'activités physiques en dehors du cadre hospitalier. D'un point de vue reproductibilité, cette promotion nécessitait des ressources humaines et matérielles importantes, ainsi qu'une équipe médicale favorable à l'activité physique adaptée. Les moments-clés identifiés comprenaient les consultations de suivi et les sessions d'activités physiques adaptées en groupe. Enfin, la pandémie de COVID-19 a eu un

impact significatif sur la pratique physique au sein de ces centres. Des adaptations, telles que des séances par vidéoconférence, ont été mises en place pour faire face aux restrictions.

Les données recueillies comblent un vide dans la recherche en fournissant des preuves de la faisabilité de cette approche de promotion de l'APA dans les centres de mucoviscidose. Les résultats renforcent l'hypothèse selon laquelle l'approche socio-écologique peut être appliquée à ces centres, car elle englobe les interventions multi-niveaux et multi-stratégies qu'ils utilisent, et que les observations tirées de ces centres spécialisés sont susceptibles d'être appliquées à d'autres établissements pour améliorer la promotion de l'activité physique adaptée chez les personnes atteintes de mucoviscidose.

Axe 2 :

*Conception d'outils de promotion de
l'activité physique spécifiques aux
personnes atteintes de mucoviscidose*

Étude 3.

Development and validation of the Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity scale (CF-DB-PA)^{1, 2, 3}.

¹ Cette étude a fait l'objet d'une publication :

Filleul, V., Ladune, R., Gruet, M., Falzon, C., Fuchs, A., Mely, L., Hayotte, M., Vallier, JM., Giovannetti, P., Ramel, S., Vuillemin, A., Corion, K., & d'Arripe-Longueville, F. Development and validation of the Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity scale (CF-DB-PA). *BMC Pulm Med* **21**, 121 (2021).

<https://doi.org/10.1186/s12890-021-01471-0>

² Cette étude a fait l'objet d'une communication orale :

Filleul, V., Falzon, C., Fuchs, A., Ladune, R., Mely, L., Vallier, JM., Gruet, M., & d'Arripe-Longueville, F. (2019, June 25). Les Barrières psychologiques à l'Exercice physique chez les patients atteints de MUCOviscidose (MUCO_BEX) : Développement d'un outil de mesure et relations avec la tolérance à l'effort et la qualité de vie. Journée « Les sciences humaines et sociales & la mucoviscidose », Université de Nanterre, Paris, France.

³ Cette étude a fait l'objet d'une communication orale :

Ladune, R., Filleul, V., Gruet, M., Falzon, C., Fuchs, A., Mely, L., Hayotte, M., Vallier, JM., Giovannetti, P., Ramel, S., Vuillemin, A., Corion, K., & d'Arripe-Longueville, F. (2021, April 1^{er}-2). Les barrières psychologiques à l'exercice physique chez les patients atteints de mucoviscidose : Développement d'un outil de mesure et relations avec la tolérance à l'effort et la qualité de vie. 15^{èmes} Journées Scientifiques de la Mucoviscidose, e-congrès.

RESEARCH ARTICLE

Open Access



Development and validation of the Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity scale (CF-DB-PA)

Valentine Filleul^{1*}, Raphaëlle Ladune¹, Mathieu Gruet², Charlène Falzon¹, Amélie Fuchs³, Laurent Mély⁴, Meggy Hayotte¹, Jean-Marc Vallier², Philippe Giovannetti⁵, Sophie Ramel⁶, Anne Vuillemin¹, Karine Corrieron¹ and Fabienne d'Arripe-Longueville¹

Abstract

Background: People with cystic fibrosis (pwCF) derive several physiological and psychological benefits from regular physical activity (PA), but the practice is lower than recommended. Knowledge about the facilitators of and barriers to PA at the individual level is important to act positively on PA behaviors. This study validated the Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity scale (CF-DB-PA) for adults with CF.

Methods: French adults with CF were recruited in several specialist centres in France. The CF-DB-PA scale was validated following a quantitative study protocol comprising four stages: (1) tests of the clarity and relevance of a preliminary 44-item version and reduction analysis, (2) confirmatory factor analysis and tests of dimensionality through equation modelling analysis, (3) tests of reliability with Cronbach alphas for the internal consistency and a test–retest with a 2-to-3 week interval for temporal stability, and 4) tests of construct validity with Spearman correlations to measure the associations between each subscale and the theoretically related constructs (i.e., quality of life, PA and exercise tolerance).

Results: A total of 201 French adults with CF participated in the validation study. The CF-DB-PA comprises 23 items divided into two factors: facilitators of and barriers to PA. Each factor is divided into three subscales: physical, psychological and environmental. The factors (facilitators and barriers) can be used independently or combined as a whole. A general score of decisional balance for PA can also be calculated. The bi-factor model presented satisfactory adjustment indexes: $\chi^2(194) = 362.33$; $p < .001$; TLI = .87; CFI = .90; RMSEA = .067. The scale showed satisfactory internal consistency (Cronbach's $\alpha = .77$). The test–retest reliability was not significant for either subscale, indicating stability over time. The facilitators subscale correlated significantly with the self-reported score of PA ($r = .33$, $p < .01$) and quality of life ($r = .24$, $p < .05$). The barriers subscale correlated significantly with the self-reported scores of PA ($r = -.42$, $p > .01$), quality of life ($r = -.44$, $p < .01$), exercise tolerance ($r = -.34$, $p < .01$) and spirometry tests ($r = -.30$, $p < .05$).

Conclusions: The CF-DB-PA is a reliable and valid questionnaire assessing the decisional balance for PA, the facilitators of and the barriers to PA for adults with CF in French-speaking samples.

Keywords: Cystic Fibrosis, Physical activity, Exercise, Decisional balance, Barriers and facilitators, Questionnaire

Introduction

Cystic Fibrosis (CF) is a recessive genetic disease that is life-shortening and affects multiple organs of the body. Currently, there is no cure, but advances in treatment

*Correspondence: valentine.filleul@univ-cotedazur.fr

¹ Université Côte-d'Azur, LAMHESS, Nice, France

Full list of author information is available at the end of the article



© The Author(s) 2021. **Open Access** This article is licensed under a Creative Commons Attribution 4.0 International License, which permits use, sharing, adaptation, distribution and reproduction in any medium or format, as long as you give appropriate credit to the original author(s) and the source, provide a link to the Creative Commons licence, and indicate if changes were made. The images or other third party material in this article are included in the article's Creative Commons licence, unless indicated otherwise in a credit line to the material. If material is not included in the article's Creative Commons licence and your intended use is not permitted by statutory regulation or exceeds the permitted use, you will need to obtain permission directly from the copyright holder. To view a copy of this licence, visit <http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>. The Creative Commons Public Domain Dedication waiver (<http://creativecommons.org/publicdomain/zero/1.0/>) applies to the data made available in this article, unless otherwise stated in a credit line to the data.

offer pwCF greater life expectancy than in previous generations [1]. However, the treatments are complex and time consuming, involving daily medications, physiotherapy such as airway clearance, a strict diet, and physical activity (PA) [2]. PA, including sports, exercise, and recreational activities, is widely recommended as part of CF therapy due to its beneficial effects on physiological factors (e.g., improved anaerobic capacity) [3, 4], cardiovascular endurance [5], muscular strength [6], mucus clearance [7], psychological health (i.e., related to quality of life) [4], fatigue [8], and well-being [9].

Although the benefits of PA have been widely demonstrated, it appears that pwCF remain below the recommendations, with levels declining further throughout adolescence [10]. The literature reveals extensive explorations of the facilitators of and barriers to PA in children with CF, although only a few studies have focused on adults. However, with treatments improving, and according to recent annual data from the Cystic Fibrosis Foundation, more adults than children currently have CF, and a child born with CF today has a life expectancy of more than 45 years [11]. From a demographic perspective, the CF population is therefore older and is showing new comorbidities and specific adult constraints (e.g., more pwCF entering the workforce; a high prevalence of diabetes, which is not the case in children and could be a barrier to PA). For these reasons, a specific assessment of the facilitators of and barriers to PA in adults with CF is necessary. Also, the studies in the literature have only identified the facilitators and barriers at the group level in children (e.g., [12–14]), but no tool exists to identify them at the individual level in adults. Yet, clinically, this is essential for two main reasons: (a) time, as these people already have a heavy treatment load and thus may not be readily available for qualitative interviews, which can be lengthy and require expertise, and (b) the need for individualized care, as, given the wide genotypic and phenotypic variability in CF, pwCF are all very different and thus the facilitators of and barriers to PA are likely to vary from one individual to another.

In children with CF, fatigue, negative perceptions of PA, lack of motivation for and interest in PA, a perceived lack of PA, and lack of time, social support or available infrastructures appear to be the main barriers reported [10]. Concerning the facilitators in these patients, the same team of researchers identified the following: improved respiratory capacity and general health, positive perceptions of PA and peer and family social support [10]. A preliminary qualitative study conducted on adults with CF [15], highlighted relationships between physical barriers (i.e., fatigue, respiratory difficulties) and psychological barriers (i.e., lack of perceived physical ability; perceived risk of contamination), which were accentuated by

environmental barriers (i.e., lack of time or social support). This study also identified: (a) physical benefits (e.g., improved respiratory capacity), (b) psychological benefits (e.g., well-being), and (c) social support from the environment and time-saving as the main facilitators of PA in adults with CF [15].

In order to successfully change the PA behavior of pwCF, it is necessary to identify and target its determinants. The Transtheoretical Model (TTM), initially created by Prochaska [16], is an integrative model conceptualizing intentional behavior change. The TTM is based on stages that explain when and how people might change their behavior. The Decisional Balance (DB), a key component of the TTM, reflects the relative weight of the pros and cons of changing for an individual. In order to assess the facilitators of (pros) and barriers to (cons) PA, Marcus et al. [17] developed the Decisional Balance Scale for Exercise (DBSE), which was later adapted in French by Eeckhout et al. [18]. This scale was developed for the general population and therefore was not designed to capture the specificities of vulnerable populations, especially the facilitators of and barriers to PA for adults with CF.

Therefore, the purpose of this study was to develop and to validate a DB scale to be used as a PA tool for adults with CF in French-speaking samples. This Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity scale (CF-DB-PA) improves the assessment of the barriers to and facilitators of PA in adults with CF and, consequently, enhances the quality of the support than can be offered to help them adopt an active lifestyle.

Materials and methods

Procedure and participants

We developed and validated the scale through successive steps according to contemporary methodological recommendations [19, 20]: tests for clarity and relevance, dimensionality, reliability tests, and construct validity. Participants were recruited in several specialized CF centers in France. They were all adults with CF (age > 18 years). The exclusion criteria were people: (a) under guardianship or trusteeship; (b) in acute exacerbation phase; and (c) with cognitive impairment. The participants' sociodemographic data are presented in Table 1. They were divided into four samples for the different steps of validation. The questionnaire was administered in paper form with relay persons (nurses and trainees) or online using LimeSurvey CE, version 2.06 + (LimeSurvey CE). This study was approved by the ethics committee from the French National Commission for Information Technology and Civil Liberties (CNIL T 39–2017) and all participants gave their informed consent before

Table 1 Sociodemographic variables and clinical characteristics of study subjects. Descriptive statistics for each sample

Variable	Sample 1	Sample 2	Sample 3	Sample 4
	n = 9	n = 192	n = 73	n = 53
	Mean(SD)/N(%)	Mean(SD)/N(%)	Mean (SD)/N(%)	Mean (SD)/N(%)
Age (years)	–	33.0 (10.5)	30.1 (9.2)	32 (9.7)
Age at diagnosis (years)	–	6.1 (12.3)	3.1 (5.9)	3.5 (6.8)
Sex				
Female	5 (55.6)	111 (57.8)	38 (52.1)	28 (52.8)
Male	4 (44.4)	81 (42.2)	35 (47.9)	25 (47.2)
Further education* n (%)	–	153 (79.7)	52 (71.2)	40 (75.5)
Professional status n (%)				
Workers	–	117 (60.9)	40 (54.8)	25 (47.2)
Pensioners	–	4 (2.1)	0 (0)	0 (0)
Other people without activity and students	–	71 (37.0)	33 (45.2)	28 (52.8)
Weight (kg)	–	–	57.3 (11.6)	–
Height (m)	–	–	164.9 (9.1)	–
Body Mass Index (kg/m ²)	–	–	20.9 (3.2)	–
Related disease (n, %)				
Diabete	–	52 (27.1)	25 (34.2)	20 (37.7)
Others	–	30 (15.6)	10 (13.7)	6 (11.3)
Distance 6MWT (meters)	–	–	607.2 (114.7)	–
FEV1 (%)	–	–	60.8 (23.7)	–
FEV1 (L)	–	–	2.1 (1.0)	–
FVC (%)	–	–	83.6 (21.2)	–

* Including university or high school

participation. All methods were carried out in accordance with relevant guidelines and regulations.

Measures

CF-DB-PA

Items were developed based on existing scales in the general population (e.g., the Decisional Balance Scale for PA) [17], or other vulnerable populations (e.g., the Cancer Exercise Stereotypes Scale) [21] and on the results of a qualitative study of our research team [15]. The Wideband Delphi method, which entails successive rounds of expert input, was employed until consensus was reached [22]. A panel of nine experts was constituted (i.e., 5 researchers in Sport Sciences and Social Psychology, 1 nurse working with pwCF, 1 student in a Master's program). The experts were identified according to (a) their previous research skills related to exercise in pwCF or to psychological factors of engagement in physical activity in vulnerable populations (5 researchers; 1 master student); (b) recommendations of a physician specialized in CF and part of our research team (2 physicians, 1 nurse). Initially, a list of 69 items was generated, including 40 items related to facilitators and 29 items related to barriers. After two rounds of

the Delphi method, several items were deleted due to redundant or ambiguous features to CF. A preliminary version of the CF-DB-PA with 44 items was formulated, including 23 items related to facilitators and 21 items related to barriers. Items were divided into three subscales of facilitators: (a) physical (PHYF, n = 8), (b) psychological (PSYF, n = 5), (c) environmental (ENVE, n = 10); and three subscales of barriers: (a) physical (PHYB, n = 4), (b) psychological (PSYB, n = 7) and (c) environmental (ENVB, n = 10). Participants of sample 1 (see Table 1) were asked to answer questions on a 6-point Likert scale ranging from (1) "Do not at all agree" to (6) "Totally agree".

Quality of life

Quality of life (QOL) was assessed using the Cystic Fibrosis Questionnaire for patients over 14 years of age (CFQ14+) [23]. This 49-item questionnaire is composed of nine QOL dimensions: physical functioning, energy/well-being, emotions, social limitations, role, embarrassment, body image, eating disturbances, and treatment burden. QOL was expected to be related to the CF-DB-PA dimensions in the convergent validity step.

Level of PA

Self-reported level of PA was assessed with the French version [24] of the Baecke Questionnaire [25], which has been recommended to assess PA in adults with CF [26]. This 16-item instrument with Likert-type responses ranging from 1 for “Never” to 5 for “Always”. The series of questions is divided in three habitual PA scores: occupational; physical exercise in leisure; and leisure and locomotion PA. The PA level was expected to be related to the CF-DB-PA dimensions in the convergent validity step.

Lung function and physical fitness

Forced Vital Capacity (FVC) and forced expiratory volume in one second (FEV₁) were assessed by spirometry testing according to the ATS/ERS TASK FORCE recommendations [27]. Physical fitness was assessed with the six minute Walk Test (6MWT) [28]. The 6MWT was performed according to the recommendations of the ATS guideline [29]. Participants were instructed to walk back and forth in a 30-m length for 6 min. The total covered distance was recorded, rounded off to the nearest meter. These measures were expected to be related to the CF-DB-PA dimensions in the convergent validity step.

Sociodemographic

Sociodemographic information was requested of all participants at the end of the questionnaire and included gender, age, year of diagnosis, related diseases, education level and professional status. Also, lung function and physical fitness were evaluated.

Statistical analyses

All statistical analyses were performed with SPSS (IBM Corporation, version 25) and AMOS (IBM Corporation, version 25) softwares.

Assessment of clarity and relevance

Clarity and relevance were assessed by a large panel of CF professionals and specialists (n=10; 1 physician, 5 nurses, 1 psychologist, 1 dietician, 1 physical therapist and 1 adapted PA professor) and pwCF (n=9). They answered on a 6-point Likert scale, ranging from (1) “Totally unclear” to (6) “Totally clear” for the clarity test, and from (1) “Completely irrelevant” to (6) “Highly relevant” for the relevance test, and could comment on their answers. Problematic items were discussed between the members of the expert panel and modified until satisfactory scores were obtained.

Tests of dimensionality

To test the dimensionality of the scale, we ran several structural equation modeling analyses [30]. Based in

the recommendations [31], the fit indexes were: chi-square (χ^2 ; significant values $p \leq 0.05$), χ^2 over degrees of liberty (significant values ≤ 3.00), Comparative Fit Index (CFI; value > 0.90), Tucker-Lewis fit index (TLI; value > 0.90), the root mean square error of approximation (RMSEA; value < 0.08) and the 90% confidence interval of RMSEA (ranging from 0.00 to 0.08).

Tests of reliability

Internal consistency of each subscale was assessed using Cronbach’s alpha; a value > 0.70 is considered satisfactory and a value > 0.60 is considered marginally acceptable [32]. The test–retest reliability was calculated twice with a Student *t* test for paired samples on a reasonable interval of 2 to 3 weeks [33] and a minimum sample size of 50, as recommended [34]. Differences for *t* were considered statistically significant if $p < 0.05$.

Tests of convergent validity

Spearman correlation coefficients were used to measure associations between the subscales of the CF-DB-PA and theoretically related constructs (i.e., QOL; PA and exercise tolerance).

Results**Study population**

To conduct the successive stages of validation, we divided the participants into four samples: samples 1 (n=9), 2 (n=192), 3 (n=73) and 4 (n=53). Sample 1 was an independent group. Sample 3 was a subgroup of sample 2 and sample 4 was a subgroup of samples 2 and 3. Assessments of clarity and relevance were conducted on sample 1, tests of dimensionality were conducted on sample 2, test re-test reliability was conducted on sample 4, and the tests of construct validity were conducted on sample 3.

The global sample included 201 participants from ten CF centers of France (i.e., Nice, Giens, Roscoff, Montpellier, Grenoble, Marseille, Caen, Tours, Toulouse and Dunkerque).

Tests of clarity and relevance

The clarity and relevance assessments of the preliminary 44-item version of the CF-DB-PA revealed an acceptable clarity score ($M=5.60$, $SD=0.26$) and an acceptable relevance score ($M=4.59$, $SD=0.66$) on a 6-point Likert scale. Three items obtained relevance scores below 3.00 and were removed. Six items with an ambiguous meaning were reworded. Then, redundant items were eliminated after discussion within the expert panel (n=9) and after the item reduction analysis. Items with the higher clarity and relevance scores were saved, resulting in a new version with 23 items (see Table 2).

Table 2 Items of the 23-item version of the CF-DB-PA

Category	Items
1 F _{PHY} 1.	Cela développe mes muscles respiratoires et réduit mon essoufflement. [It develops my respiratory muscles and reduces my shortness of breath.]
2 F _{PHY} 2.	Cela améliore mon endurance. [It improves my endurance.]
3 F _{PHY} 3.	Cela améliore ma force et ma masse musculaire. [It improves my strength and my muscle mass.]
4 F _{PHY} 4.	Une bonne condition physique favorise la réussite de la greffe. [A good physical condition promotes transplant success.]
5 F _{PSYCH} 1.	C'est l'occasion de penser à autre chose. [This is an opportunity to think about something else.]
6 F _{PSYCH} 2.	Cela me fait plaisir. [I am pleased to do it.]
7 F _{PSYCH} 3.	Cela me permet de rencontrer d'autres personnes. [It allows me to meet other people.]
8 F _{ENVI} 1.	Je bénéficie d'un encadrement compétent pour ma pratique. [I benefit from competent supervision for my PA.]
9 F _{ENVI} 2.	Je bénéficie de lieux adaptés à ma pratique. [I benefit from adapted places to do my PA.]
10 F _{ENVI} 3.	J'ai une offre de pratique près de chez moi. [I have a PA offer in my immediate area.]
11 B _{PHY} 1.	Cela me fatigue trop. [It fatigues me too much.]
12 B _{PHY} 2.	Je supporte mal l'effort physique. [I have trouble tolerating physical effort.]
13 B _{PHY} 3.	Je m'essouffle très vite. [I get short of breath really fast.]
14 B _{PHY} 4.	Je désature très vite. [I desaturate really fast.]
15 B _{PSYCH} 1.	J'ai peur d'être trop essoufflé.e. [I worry about getting short of breath.]
16 B _{PSYCH} 2.	J'ai peur d'être contaminé.e par des germes dans les lieux de pratique sportive. [I am afraid of being contaminated by germs in places for PA.]
17 B _{PSYCH} 3.	J'ai peur de tousser. [I am afraid of coughing.]
18 B _{PSYCH} 4.	J'ai peur d'être mal vu.e si je tousse devant les autres. [I am afraid of being frowned upon if I cough in front of others.]
19 B _{PSYCH} 5.	Je ne pense pas en être capable physiquement. [I don't think I am physically able to do it.]
20 B _{PSYCH} 6.	Je n'arrive pas à suivre le rythme. [I can't follow the rhythm.]
21 B _{ENVI} 1.	Je n'ai pas le temps à cause de mes contraintes familiales. [I don't have time because of my family obligations.]
22 B _{ENVI} 2.	Je n'ai pas d'offre qui me convienne près de chez moi. [I don't have a PA offer that works for me in my immediate area.]
23 B _{ENVI} 3.	Je n'ai pas l'encadrement adapté à mes besoins. [I don't have supervision that is adapted to my needs.]

PHYF Physical facilitator; PSYF psychological facilitator; ENVF environmental facilitator; PHYB physical barrier; PSYB psychological barrier; ENVB environmental barrier. For each item, participants responded on a 6-point Likert scale from (1) "Totally disagree" to (6) "Totally agree". The introduction sentence was "The factors that would encourage me to regularly practice a physical activity are..." [Les raisons qui m'inciteraient à pratiquer régulièrement une activité physique sont...] for the facilitators and "The factors that would hold me back from regularly practicing a physical activity are..." [Les raisons qui me freineraient à pratiquer régulièrement une activité physique sont...] for the barriers

Tests of dimensionality

The first maximum likelihood confirmatory factor analysis (CFA) was conducted with the 23-item and six-factor model; four models were examined to assess the dimensionality of the scale [30]. The results of the model fit indexes are presented in Table 3.

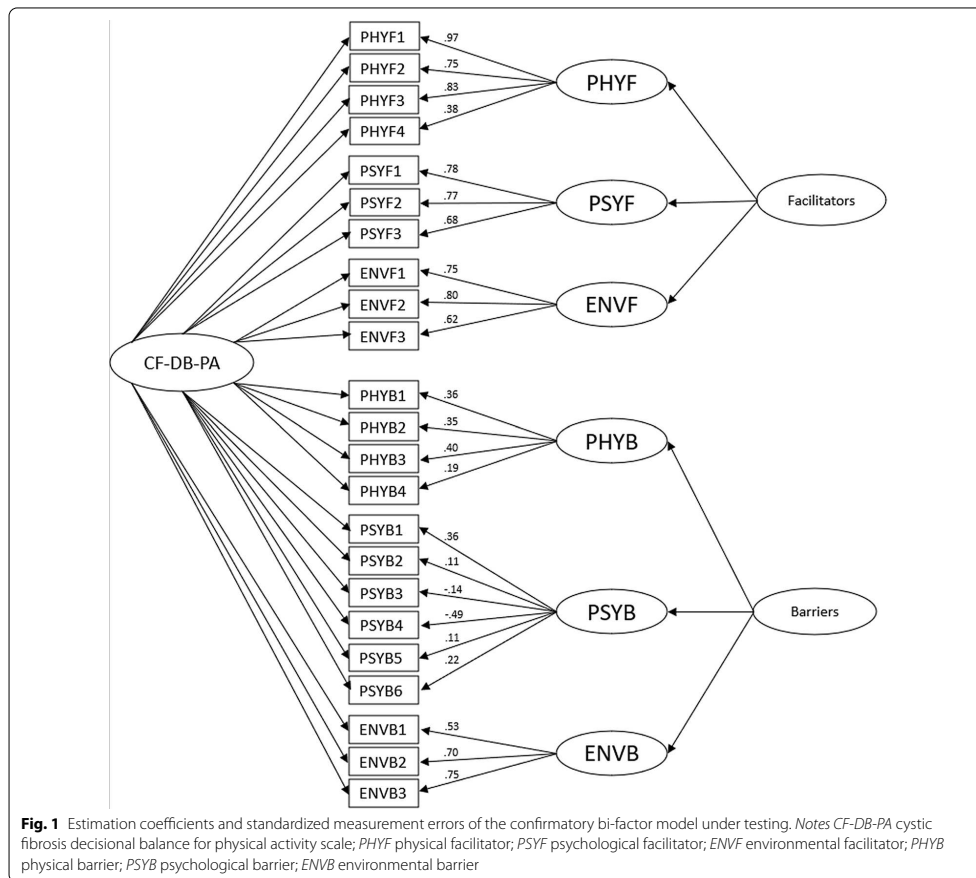
Initially, the unidimensional model (model a) did not show satisfactory adjustment indexes. The following

analysis examined a first-order model with two factors correlated (facilitators and barriers; model b) and a second-order hierarchical model (model c). At that time, adjustment indexes were not all satisfactory. Finally, analysis using a bi-factor model (model d) offered the most satisfactory adjustment indexes: $\chi^2(194) = 362.33$; $p < 0.001$; TLI = 0.87; CFI = 0.90; RMSEA = 0.067; RMSEA LO/HI = 0.06/0.08 (Fig. 1).

Table 3 Fit indexes of the different models of the CFA (N = 192)

	χ^2 (df)	p	RMSEA	CI of RMSEA 90%	TLI	CFI	$\Delta\chi^2$ (df)	Δp
Model a	955.89 (223)	<.001	.13	.12–.14	.52	.57		
Model b	715.44 (222)	<.001	.11	.10–.12	.67	.71	240.45 (1)	<.001
Model c	544.41 (227)	<.001	.09	.08–.10	.80	.82	171.03 (5)	<.001
Model d	362.33 (194)	<.001	.07	.06–.08	.87	.90	182.08 (33)	<.001

Model a: one-dimensional; Model b: first-order two-factor correlated; Model c: second-order hierarchical order; Model d: confirmatory bi-factor. χ^2 : Chi²; df: degrees of freedom; RMSEA: root mean square error of approximation; 90% CI: confidence interval of RMSEA 90, CFI: comparative fit index; TLI: Tucker-Lewis index of adjustment



Tests of reliability

Cronbach alphas ranged from 0.65 to 0.88 (n = 192; i.e., $\alpha_{\text{Facilitators}} = 0.79$; $\alpha_{\text{PHYF}} = 0.70$; $\alpha_{\text{PSYF}} = 0.74$; $\alpha_{\text{ENVF}} = 0.74$; $\alpha_{\text{Barriers}} = 0.88$; $\alpha_{\text{PHYB}} = 0.78$; $\alpha_{\text{PSYB}} = 0.82$; $\alpha_{\text{ENVB}} = 0.65$) and 0.77 for the overall scale, demonstrating satisfactory internal consistency.

The test-retest reliability was not significant for either the barrier or facilitator scales, indicating stability over time for the questionnaire as a whole. At the subscale level, the Student *t* test was not significant for any subscales except the ENVF subscale. Table 4 presents the results of the *t* tests.

Tests of construct validity

Correlation analyses showed significant relationships in line with our expectations. Significant positive relationships were observed between the facilitators subscale and (a) the self-reported score of PA ($r = 0.33$, $p < 0.01$), and (b) the CFQ14+ ($r = 0.24$, $p < 0.05$). The barriers subscale was negatively related to (a) self-reported score of PA ($r = -0.42$, $p < 0.01$), (b) quality of life ($r = -0.44$, $p < 0.01$), (c) exercise tolerance ($r = -0.34$, $p < 0.01$) and (d) spirometry tests ($r = -0.30$, $p < 0.05$).

Table 4 Descriptive statistics for the test–retest reliability (n = 53)

	Time 1		Time 2		t tests
	M (SD)	α	M (SD)	α	
Facilitators	4.71 (.80)	.76	4.83 (.91)	.83	$t(52) = -1.70, p = .09$
PHYF	5.23 (.61)	.60	5.23 (.61)	.61	$t(52) = -.07, p = .95$
PSYF	4.70 (1.22)	.74	4.78 (1.28)	.72	$t(52) = -.74, p = .46$
ENVF	4.21 (1.13)	.42	4.48 (1.28)	.70	$t(52) = -2.2, p = .03$
Barriers	2.76 (.90)	.86	2.68 (.96)	.88	$t(52) = 1.18, p = .24$
PHYB	3.06 (1.17)	.78	2.91 (1.12)	.76	$t(52) = 1.75, p = .09$
PSYB	2.63 (1.15)	.83	2.58 (1.14)	.82	$t(52) = .48, p = .63$
ENVB	2.58 (1.16)	.64	2.55 (1.19)	.62	$t(52) = .31, p = .76$

PHYF physical facilitator; PSYF psychological facilitator; ENVF environmental facilitator; PHYB physical barrier; PSYB psychological barrier; ENVB environmental barrier

Discussion

The purpose of this study was to develop and validate a scale to measure the Decisional Balance of PA tailored for a French-speaking adult CF population. Most of the studies focused on PA for pwCF have been conducted in children, and thus knowledge in adults remains scarce. Also, from a clinical point of view, the need for a fast and easy tool to assess PA modulators at an individual level in adults with CF emerged in parallel to the evolution of the CF population (e.g., longer life expectancy, bigger proportion of adults). The objective of this study was to fill this void. The development of the CF-DB-PA respected the stages of Vallerand's [20] and Boateng's [19] methodologies. The preliminary version was based on the findings of a qualitative study that identified the specific characteristics of facilitators of and barriers to PA in adults with CF [15], and the existing scales on the Decisional Balance for PA in the general population [18] and other vulnerable populations [21]. The CF-DB-PA comprises 23 items divided into six subscales: physical facilitators (4 items), psychological facilitators (3 items), environmental facilitators (3 items), physical barriers (4 items), psychological barriers (6 items), and environmental barriers (3 items). The dimensionality tests showed that the bi-factor confirmatory model had the best fit indexes. Thus, the three subscales of facilitators and the three subscales of barriers can be used independently or as a whole. In accordance with Eeckhout et al. [18], a general score of decisional balance for PA can be calculated.

The CF-DB-PA also demonstrated adequate-to-good internal consistency scores for all factors. There were no significant differences in the Student-*t* test over a 2- to 3-week interval for any subscale except ENVF. This difference can be explained by a change in the participant situation between T₁ and T₂ (e.g., in care at the CF center

for the first time of measure and at home for the second). Thus, these results demonstrated the overall temporal stability of the CF-DB-PA. As predicted, several subscales of the instrument correlated in the expected direction with psychosocial measures such as quality of life from the CFQ14+ [23], PA levels from the Baecke questionnaire [24, 25] and exercise tolerance with the 6MWT [27] and spirometry tests [28], indicating strong convergent validity. Another strength of this scale validation comes from the representativeness of the sample, with participants recruited from several CF centers in France.

Some limitations must nevertheless be acknowledged. First, as for all rating scale, the self-reported nature of the responses may have been biased due to social desirability [35]. Also, this scale was validated for adults and may not be appropriate for children, younger adolescents, or their parents. Our samples did not allow testing for age and gender invariance. Complementary studies could thus be conducted to investigate invariance of this scale. The development of specific versions for children, adolescents and their parents would also be useful. Although the items are also presented in English in the table, the present validation only concerns the French-speaking samples. Future studies on the English validation of the tool or its translation into other languages would be interesting to internationalize its use and allow comparisons between countries.

Conclusion

This study developed and validated the CF-DB-PA, which is the first measure assessing decisional balance for PA in adults with CF. The psychometric qualities of this scale were demonstrated. The CF-DB-PA offers new possibilities to better measure facilitators of and barriers to PA in adults with CF. The decisional balance score provides useful information on the patient's stage of change and should help health professionals support and counsel adults with CF to better engage in PA. This scale may also contribute to the development of studies on the determinants of PA adherence in adults with CF. For future research and clinical practice, it might be useful to validate the scale in other languages and develop a digital version of this scale to obtain results more easily and quickly.

Abbreviations

ATS: American Thoracic Society; CF: Cystic Fibrosis; CF-DB-PA: Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity scale; CFA: Confirmatory factor analysis; CFI: Comparative Fit Index; CFQ14+: Cystic Fibrosis Questionnaire for patients over 14 years of age; CNIL: Commission for Information Technology and Civil Liberties; DF: Degrees of freedom; ENVB: Environmental barriers; ENVF: Environmental facilitators; FEV1: Forced expiratory volume in one second; FVC: Forced vital capacity; M: Mean; PA: Physical activity; PHYB: Physical barriers; PHYF: Physical facilitators; PSYB: Psychological barriers; PSYF: Psychological facilitators; pwCF: People with Cystic Fibrosis; QOL: Quality of life; SD: Standard

deviation; RMSEA: Root mean square error of approximation; TLI: Tucker–Lewis Index of adjustment; 6MWT: Six minute Walk test; 90% CI: Confidence interval of RMSEA 90, χ^2 : Chi².

Acknowledgements

We thank all the participants for the time they dedicated to our study. We thank the Association Grégory Lemarchal which has supported this study by a subvention.

Authors' contributions

VF: provided contributions to the conception and design of the work (including design of the questionnaire), to the acquisition, analysis and interpretation of data. Drafted the work. RL: provided contribution to the acquisition of data and drafted and revised the paper. MG and JM: provided important contributions to the design of the work and the acquisition of data. Revised the paper critically for important scientific and clinical content. CF and AV: revised the paper.

AF, LM, SR and PG: provided contribution to the acquisition of data and implemented the data collection in their own medical structure, revised the paper. MH: provided contribution to the analysis of data and revised the paper. KC: provided contribution to the design of the work, was the main responsible for the statistical analysis and thus provided substantial contributions to the conception of the statistical analysis plan, conduct of the analysis and interpretation of results. Revised the paper. FAL: was responsible for the scientific project and oversaw funding obtainment, oversaw the collection of data, contributed to the interpretation of the results, and helped write the manuscript. All authors have contributed to the drafting, reviewing and approval of the final manuscript of this protocol paper.

Funding

This work was funded by Association Grégory Lemarchal, France.

Availability of data and materials

The datasets used and/or analyzed during the current study are available from the corresponding author on reasonable request.

Declarations

Ethics approval and consent to participate

This study was approved by the ethics committee: the French National Commission for Information Technology and Civil Liberties (CNIL T 39-2017) and all participants gave their informed consent before participation.

Consent for publication

Not applicable.

Competing interests

The authors declare that they have no conflict of interest.

Author details

¹ Université Côte-d'Azur, LAMHESS, Nice, France. ² Université de Toulon, Unité de Recherche Impact de l'Activité Physique sur la Santé, Toulon, France. ³ Laboratoire de thérapies non médicamenteuses innovantes Mooven, Montpellier, France. ⁴ Hôpital Renée Sabran, Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose (CRCM), Giens, France. ⁵ Service de Pneumologie, Centre de Ressource et de Compétence de la Mucoviscidose (CRCM) adulte et pôle d'Activités Médicales Inter-site de Médecine Physique et de Réadaptation APHM-CHU Hôpital Nord, Marseille, France. ⁶ Fondation Ildys, site de Perharidy, Roscoff, France.

Received: 15 December 2020 Accepted: 15 March 2021

Published online: 14 April 2021

References

- Burgel PR, Bellis G, Olesen HV, Viviani L, Zolin A, Blasi F, Elborn JS. Future trends in cystic fibrosis demography in 34 European countries. *Eur Respir J*. 2015;46(1):133–41.
- Sawicki GS, Sellers DE, Robinson WM. High treatment burden in adults with cystic fibrosis: challenges to disease self-management. *J Cyst Fibros*. 2009;8:91–6.
- Klijn PH, Oudshoorn A, van der Ent CK, van der Net J, Kimpen JL, Helders PJ. Effects of anaerobic training in children with cystic fibrosis: a randomized controlled study. *Chest*. 2004;125(4):1299–305.
- Radtke T, Nevitt SJ, Hebestreit H, Kriemler S. Physical exercise training for cystic fibrosis. *Cochrane Database Syst Rev*. 2017;11:CD002768.
- Gulmans VAM, de Meer K, Brackel HJL, Faber JAJ, Berger R, Helders PJM (1999) Outpatient exercise training in children with cystic fibrosis: physiological effects, perceived competence, and acceptability. *Pediatr Pulmonol*. 1999;28(1):39–46.
- Gruet M, Troosters T, Verges S. Peripheral muscle abnormalities in cystic fibrosis: etiology, clinical implications and response to therapeutic interventions. *J Cyst Fibros*. 2017;16:538–52.
- Dwyer TJ, Zainuddin R, Daviskas E, Bye PT, Alison JA. Effects of treadmill exercise versus Flutter® on respiratory flow and sputum properties in adults with cystic fibrosis: a randomised, controlled, cross-over trial. *BMC Pulm Med*. 2017;17(1):1–8.
- Orava C, Fitzgerald J, Figliomeni S, Lam D, Naccarato A, Szego E, et al. Relationship between physical activity and fatigue in adults with cystic fibrosis. *Physiother Can*. 2018;70(1):42–8.
- Backström-Eriksson L, Bergsten-Brucefors A, Hjelte L, Melin B, Sorjonen K. Associations between genetics, medical status, physical exercise and psychological well-being in adults with cystic fibrosis. *BMJ Open Respir Res*. 2016;3(1):e000141.
- Jantzen A, Opoku-Pare M, Ruf K, Hebestreit H, Möller A. (2014). Cystic fibrosis and physical activity: Is there a significant difference to healthy individuals?. *Eur Respir J* 2014;44(Suppl 58).
- Cystic Fibrosis Foundation Patient Registry. 2018 Annual Data Report Bethesda, Maryland 2019 Cystic Fibrosis Foundation.
- Swisher AK, Erickson M. Perceptions of physical activity in a group of adolescents with cystic fibrosis. *Cardiopulm Phys Ther J*. 2008;19:107–13.
- Moola FJ, Faulkner GE, Schneiderman JE. "No time to play": perceptions toward physical activity in youth with cystic fibrosis. *Adapt Phys Activ Q*. 2012;29:44–62.
- Happ MB, Hoffman LA, Higgins LW, et al. Parent and child perceptions of a self-regulated, home-based exercise program for children with cystic fibrosis. *Nurs Res*. 2013;62:305–14.
- Filleul V, Falzon C, Fuchs A, Ladune R, Mely L, Vallier JM, Gruet M, d'Arripe-Longueville F. L'activité physique adaptée chez les patients atteints de mucoviscidose : étude qualitative des barrières et facilitateurs. *Sci Sports*. 2018;33:529.
- Prochaska JO. Systems of psychotherapy: a transtheoretical analysis. Homewood, Ill.:Dorsey Press 1979.
- Marcus BH, Rakowski W, Rossi JS. Assessing motivational readiness and decision making for exercise. *Health Psychol*. 1992;11(4):257–61.
- Eeckhout C, Francaux M, Heeren A, Philippot P. Mesure de la balance décisionnelle en vue de pratiquer une activité physique régulière (Bdap): Adaptation et validation francophone de l'échelle Decisional Balance for Exercise. *Eur Rev Soc Psychol*. 2013;63(3):185–91.
- Boateng GO, Neilands TB, Frongillo EA, Melgar-Quinonez HR, Young SL. Best practices for developing and validating scales for health, social, and behavioral research: a primer. *Front Public Health*. 2018;6:149.
- Vallerand RJ. Vers une méthodologie de validation transculturelle de questionnaires psychologiques : Implications pour la recherche en langue française. *Can Psychol*. 1989;30(4):662–80.
- Falzon C, Sabiston C, Bergamaschi A, Corrion K, Chalabaev A, d'Arripe-Longueville F. Development and validation of the cancer exercise stereotypes scale. *J Psychosoc Oncol*. 2014;32(6):708–26.
- Dalkey NG, Rostand F, Kaufmann A, Brown B, Cochran SW. La prévision à long terme par la méthode Delphi. 1972 Dunod.
- Henry B, Aussage P, Grosskopf C, Goehrs JM. Development of the Cystic Fibrosis Questionnaire (CFQ) for assessing quality of life in pediatric and adult patients. *Qual Life Res*. 2003;12(1):63–76.
- Bigard AX, Duforez F, Portero P, Guezennec CY. Détermination de l'activité physique par questionnaire : Validation du questionnaire autoadministrable de Baecke. *Sci Sports*. 1992;7(4):215–21.
- Baecke JA, Burema J, Frijters JE. A short questionnaire for the measurement of habitual physical activity in epidemiological studies. *Am J Clin Nutr*. 1982;36(5):936–42.

26. Karila C, Ravilly S, Gauthier R, Tardif C, Neveu H, Maire J, et al. Activité physique et réentraînement à l'effort du patient atteint de mucoviscidose. *Rev Mal Respir.* 2010;27(4):301–13.
27. Miller MR, Hankinson J, Brusasco V, Burgos F, Casaburi R, Coates A, et al. ATS/ERS Task Force. Standardisation of spirometry. *Eur Respir J.* 2005;26(2):319–38.
28. Guyatt GH, Sullivan MJ, Thompson PJ, Fallen EL, Pugsley SO, Taylor DW, Berman LB. The 6-minute walk: a new measure of exercise capacity in patients with chronic heart failure. *Can Med Assoc J.* 1985;132(8):919–23.
29. Statement ATS. Guidelines for the six-minute walk test. *Am J Respir Crit Care Med.* 2002;166(1):111–7.
30. Myers ND. Coaching competency and (Exploratory) structural equation modeling: a substantive-methodological synergy. *Psychol Sport Exerc.* 2013;14(5):709–18.
31. Byrne BM. Structural equation modeling with mplus: basic concepts, applications, and programming. 2nd ed. New York: Routledge, Taylor & Francis Group; 2013.
32. Taber KS. The use of cronbach's alpha when developing and reporting research instruments in science education. *Res Sci Technol Educ.* 2018;48(6):1273–96.
33. Marx RG, Menezes A, Horovitz L, Jones EC, Warren RF. A comparison of two time intervals for test-retest reliability of health status instruments. *J Clin Epidemiol.* 2003;56(8):730–5.
34. Altman DG. Practical statistics for medical research. 1st ed. London: Chapman & Hall/CRC Press; 1990. p. 455–60.
35. Phillips DL, Clancy KJ. Some effects of social desirability in survey studies. *Am J Sociol.* 1972;77(5):921–40.

Publisher's Note

Springer Nature remains neutral with regard to jurisdictional claims in published maps and institutional affiliations.

Ready to submit your research? Choose BMC and benefit from:

- fast, convenient online submission
- thorough peer review by experienced researchers in your field
- rapid publication on acceptance
- support for research data, including large and complex data types
- gold Open Access which fosters wider collaboration and increased citations
- maximum visibility for your research: over 100M website views per year

At BMC, research is always in progress.

Learn more biomedcentral.com/submissions



Synthèse de l'étude 3

L'étude 3 avait pour objectif de développer et de valider une échelle de mesure de la balance décisionnelle en activité physique à destination des adultes atteints de mucoviscidose francophones. Cette échelle a pour but d'améliorer l'évaluation des barrières et des facilitateurs liés à l'activité physique chez les adultes atteints de mucoviscidose, et par conséquent, d'améliorer la qualité du soutien qui peut leur être offert pour les aider à adopter un mode de vie physiquement actif.

Le développement et la validation de cet outil psychométrique s'est déroulé selon les recommandations en vigueur (Boateng et al., 2018 ; Vallerand, 1989) et leurs différentes étapes : (a) tests de clarté et de pertinence, (b) tests de dimensionnalité, (c) tests de fiabilité, et (d) tests de validité de construit. Un total de 201 participants a participé à cette étude. La version finale de l'outil est composée de vingt-trois items, répartis en deux facteurs principaux (facilitateurs et barrières) et trois sous-catégories en fonction de la nature des items (physiques, psychologiques et environnementales). On retrouve ainsi du côté des facilitateurs dix items : (a) quatre facilitateurs physiques, (b) trois facilitateurs psychologiques, et (c) trois facilitateurs environnementaux. Du côté des barrières, nous avons treize items : (a) quatre barrières physiques, (b) six barrières psychologiques, et (c) trois barrières environnementales. Les évaluations de la clarté ont montré des résultats satisfaisants ($M = 5.60$, $SD = 0.26$), de mêmes que les tests de la pertinence ($M=4.59$, $SD=0.66$). Les analyses factorielles confirmatoires employées dans le cadre des tests de dimensionnalité ont révélé que le modèle bi-facteur confirmatoire présentait les meilleurs indices d'ajustements ($\chi^2 (194) = 362.33$; $p < 0.001$; $TLI = 0.87$; $CFI = 0.90$; $RMSEA = 0.067$; $RMSEA LO/HI = 0.06/0.08$). Les tests de fiabilité ont regroupé les alphas de Cronbach et le test-retest. Ainsi, la cohérence interne de l'outil a été attestée au regard des résultats des alphas de Cronbach suivants : 0.77 pour l'ensemble de l'échelle, $\alpha_{\text{Facilitateurs}} = 0.79$; $\alpha_{\text{FacilitateursPhysiques}} = 0.70$; $\alpha_{\text{FacilitateursPsychologiques}} = 0.74$; $\alpha_{\text{FacilitateursEnvironnementaux}} = 0.74$; $\alpha_{\text{Barrières}} = 0.88$; $\alpha_{\text{BarrièresPhysiques}} = 0.78$; $\alpha_{\text{BarrièresPsychologiques}} = 0.82$; $\alpha_{\text{BarrièresEnvironnementales}} = 0.65$), et l'outil s'est révélé stable dans le temps sur une période de deux semaines. Les tests réalisés dans le cadre de l'analyse de la validité de construit montrent une relation significative positive entre la sous-échelle des facilitateurs et l'outil de mesure de l'activité physique ($r = 0.33$, $p < 0.01$) et celui de la qualité de vie ($r = 0.24$, $p < 0.05$). Des corrélations négatives ont également été relevées entre la sous-échelle des barrières et l'outil de mesure de l'activité physique ($r = -0.42$, $p < 0.01$), l'outil de mesure de la qualité de vie ($r = -$

0.44, $p < 0.01$), la tolérance à l'exercice relevée par le Test de Marche de 6 Minutes ($r = -0.34$, $p < 0.01$) et les tests de spirométrie ($r = -0.30$, $p < 0.05$).

Cette échelle présente de bonnes qualités psychométriques, et constitue un outil valide et fiable pour mesurer les barrières et les facilitateurs liés à l'activité physique, spécifiquement chez les adultes atteints de mucoviscidose francophones. Cet outil validé a ainsi pu être utilisé dans la suite du programme de recherche doctoral, et notamment au sein de l'étude 4 visant à adapter ce questionnaire à un format numérique.

Étude 4.

Development of a Web App to Enhance Physical Activity in People with Cystic Fibrosis: Co-design and Acceptability Evaluation by patients and health professionals^{1, 2, 3, 4, 5, 6}.

¹ Cette étude a fait l'objet d'une communication orale, et y a reçu le prix de la meilleure présentation orale :

Ladune, R., Vuillemin, A., Hayotte, M., Ramel, S., Mely, L. & d'Arripe-Longueville, F. (2023, February 7). Promotion de l'activité physique adaptée chez les patients atteints de mucoviscidose : Développement d'un outil numérique de mesure de la balance décisionnelle en activité physique. 24^{ème} édition du Colloque français des jeunes chercheurs en mucoviscidose, Institut Imagine, Paris, France.

² Cette étude a fait l'objet d'une communication orale :

d'Arripe-Longueville, F., & Ladune, R. (2023, March 30-31). Promotion de l'activité physique adaptée chez les patients atteints de mucoviscidose : Développement d'outils de mesure de la balance décisionnelle. 16^{ème} journée scientifique de la mucoviscidose, Paris, France.

³ Cette étude a fait l'objet d'une communication orale, et y a reçu le 4^{ème} prix en présentation orale :

Ladune, R., Vuillemin, A., Hayotte, M., Mely, L., Ramel, S., & d'Arripe-Longueville, F. (2023, June 5-6). Promotion de l'activité physique adaptée chez les patients atteints de mucoviscidose : Développement d'un outil numérique de mesure de la balance décisionnelle en activité physique. Journées d'Études de la Société Française de Psychologie du Sport, Aix en Provence, France.

⁴ Cette étude a fait l'objet d'une communication orale :

Ladune, R., Vuillemin, A., Hayotte, M., Mely, L., Ramel, S., & d'Arripe-Longueville, F. (2023, June 26). Promotion de l'activité physique adaptée chez les patients atteints de mucoviscidose : Développement d'outils de mesure de la balance décisionnelle. Les sciences humaines et sociales & la mucoviscidose, Assemblée Nationale, Paris, France.

⁵ Cette étude a fait l'objet d'une communication affichée :

Ladune, R., Vuillemin, A., Hayotte, M., Ramel, S., Mely, L. & d'Arripe-Longueville, F. (2023, May 26). Promotion de l'activité physique adaptée chez les patients atteints de mucoviscidose : Développement et acceptabilité d'un outil numérique de mesure de la balance décisionnelle. Journée de l'École Doctorale, Montpellier, France.

⁶ Cette étude a été soumise au journal **JMIR Formative Research** :

Ladune, R., Hayotte, M., Monot, M., Vuillemin, A., d'Arripe-Longueville, F. Development of the Web App 'MUCO_BALAD' to Enhance Physical Activity in People with Cystic Fibrosis: Co-design and Acceptability Evaluation by patients and health professionals.

Development of the Web App ‘MUCO_BALAD’ to Enhance Physical Activity in People with Cystic Fibrosis: Co-design and Acceptability Evaluation by patients and health professionals

Ladune Raphaëlle, Hayotte Meggy, Monot Marine, Vuillemin Anne, d’Arripe-Longueville Fabienne

Abstract (max 450 words):

Background: Cystic fibrosis (CF) is a genetic disease affecting the respiratory and digestive systems, with recent treatment advances improving life expectancy. However, many people with cystic fibrosis (pwCF) lack adequate physical activity (PA). PA can enhance lung function and quality of life, yet barriers exist. The CF-DB-PA questionnaire assesses decisional balance for PA in pwCF, but it is not optimal for clinical use. Developing a digital app can overcome its limitations, improving efficiency in administration, interpretation of results, and communication between patients and healthcare professionals.

Objective: This paper aims to present the development process and assess the acceptability of a web app designed to measure and monitor the decisional balance for PA in pwCF.

Methods: The study comprised two stages: (a) co-designing a digital app, and (b) evaluating its acceptability among healthcare professionals and pwCF. A participatory approach engaged the stakeholders in the app's creation. The app's acceptability, based on factors outlined in the Unified Theory of Acceptance and Use of Technology 2 (UTAUT2), is vital for successful adoption. Participants volunteered, gave informed consent, and were over 18 and fluent in French. Data collection employed qualitative interviews, video presentations, surveys, and individual semi-structured interviews, with quantitative and qualitative data analyses.

Results: A total of 11 healthcare professionals, six pwCF, and five researchers were involved in the co-design phase. Healthcare professionals encompassed various roles. Findings revealed early promotion of PA by the healthcare professionals, personalized recommendations, and perceptions of CF-DB-PA scale benefits and limitations. Regarding the CF-DB-PA scale, these professionals reported such benefits as specific information about facilitators and barriers, evaluating motivation for PA, and challenging their own assumptions. They also emphasized

the time-consuming aspect of processing results and the limitations of the paper-and-pencil format. In evaluating the digital tool, participants highlighted the need for a simple interface and secure data storage. Most participants expressed the intention to use the digital format, with a few exceptions. In the acceptability evaluation phase, the sample included forty-seven healthcare professionals, forty-four pwCF, and twelve researchers. The analysis revealed that the acceptability measures were positive and that the app acceptability did not differ according to user profiles. Semi-structured interviews provided insight into the positive and negative perceptions of the app and interface, as well as information on missing functionalities.

Conclusions: This study assessed the acceptability of the MUCO_BALAD app and demonstrated promising qualitative and quantitative results. The digital tool for measuring the decisional balance in physical activity for pwCF is encouraging for healthcare professionals, pwCF, and researchers, with valuable insights gained from the study's perspectives.

Keywords: Cystic fibrosis, Decisional balance, Digital app, Acceptability, Physical activity

Introduction

Cystic fibrosis (CF) is a hereditary disease that mainly affects the respiratory tract and digestive system [1]. This disease is caused by a genetic mutation that affects the chloride transporter, a protein that regulates the water and electrolyte balance of cells. This mutation leads to the production of thick and sticky mucus that obstructs the airways, pancreatic ducts, and bile ducts [1].

Recent improvements in CF management have improved life expectancy, thereby increasing the adult CF population [2]. Adult symptoms vary, from cough and sputum to respiratory failure. Therapies aim to enhance patient quality of life: meds thin bronchial secretions, antibiotics treat infections, and enzymes aid digestion [3]. Innovative treatments like gene therapy and CFTR modulators show promise by directly addressing the genetic mutation [4]. With extended life expectancy [5], interventions to enhance CF patients' quality of life are needed.

Physical activity (PA) is crucial in pwCF care [6]. PA includes sports, adapted physical activity (APA), exercise, and recreational activities. It enhances lung function, fitness, and quality of life, and it lowers disease-related risks [7]. Importantly, PA is well-tolerated with no adverse effects in CF [8]. Recommendations for pwCF involve aerobic exercise (e.g., walking, jogging, cycling, swimming) and strength training, tailored to individual factors [9] [10].

Many pwCF lack sufficient exercise, both in intensity and frequency [11]. Specific barriers to PA in pwCF include physical (i.e., fatigue, respiratory difficulties), psychological (i.e., negative perceptions, motivation, perceived ability), and environmental (i.e., competing priorities, lack of opportunities, social support) barriers [12] [13]. These barriers can be counterbalanced by PA facilitators, including physical (i.e., respiratory benefits, improvement of overall health, better preparation for transplantation), psychological (i.e., positive perceptions of PA, improved self-esteem and sense of achievement), and environmental (i.e., social support, availability of sports facilities) facilitators [13].

The transtheoretical model of behavior change [14], outlines several stages: (a) precontemplation, (b) contemplation, (c) preparation, (d) action, and (e) maintenance. The decisional balance [15], reflects the conflicting influences on behavior change. Equilibrium between facilitators and barriers is crucial in each stage, although this balance can fluctuate due to external or internal factors. Awareness and regular evaluation aid harmonious progress. For PA, this model aids the transition from inactivity to personalized PA programs based on the

individual's stage of change [16]. The decisional balance was specifically adapted to the barriers to and facilitators of PA for pwCF, through the development and validation of a questionnaire, the CF-DB-PA [17]. This tool enables an assessment of the readiness for the PA change of pwCF so that PA counseling can be better tailored according to the specific profile of each individual.

This paper aimed to present the development process and assess the acceptability of a web app designed to measure and monitor the decisional balance for PA in pwCF.

Methods

Study Design

The study was conducted in two main stages: (a) the co-design of the digital app to define its content, and (b) the evaluation of its acceptability among healthcare professionals and adult pwCF.

The development of the digital app was based on a participatory approach between researchers and stakeholders (i.e., pwCF and healthcare professionals) throughout the research process. This co-design methodology enables the production of useful and accurate knowledge that is consistent with the realities of key actors, culturally adapted to the target audiences, and logistically feasible [18]. Co-design allows people to actively participate in a conceptualization process to find innovative solutions, during which they can participate throughout the co-creation process from a democratic and multidisciplinary perspective [19].

Acceptability is of paramount importance in the successful adoption and implementation of new technologies. This refers to the extent to which individuals perceive a specific innovation as useful, easy to use, and compatible with their values and needs. The Unified Theory of Acceptance and Use of Technology 2 (UTAUT2 [20]) explains and predicts individuals' acceptability and usage behaviors regarding new technologies. According to this model, acceptability is influenced by several key factors: performance expectancy, effort expectancy, social influence, facilitating conditions, habits, price value and hedonic motivation.

Numerous studies have applied and validated the UTAUT2 model in various contexts, including healthcare, education, and organizations ([20], [21], [22]). Understanding and considering the factors that influence acceptability can assist designers, decision-makers, and practitioners in enhancing the adoption and usage of innovations, thereby promoting more successful and sustainable changes.

Participants

Participants in the co-design phase included researchers specialized in the sports sciences with expertise in promoting PA and health for vulnerable populations, with one of them familiar with the use of technology in this health context, as well as healthcare professionals specialized in CF and pwCF. Participants in the acceptability of the digital app phase included pwCF, healthcare professionals specialized in CF, and researchers specialized in sports sciences. All participants were volunteers, had given their informed consent, were over 18 years old, and were fluent in French. This study was approved by the Université Côte d'Azur Ethics Committee (number 2022-049).

Data Collection

Co-design of the digital app

The co-design of the digital app was divided into several steps. First, qualitative individual interviews were conducted with pwCF and health professionals. These interviews were designed to explore perceptions of the usefulness and use of the CF-DB-PA questionnaire to promote PA among pwCF. The interview guide was composed of four parts: (a) current professional practices related to PA, including initial patient encounters, patient profiling, and counseling and orientation toward PA; (b) perceptions of the CF-DB-PA questionnaire, including perceived tool benefits, identified limitations, and potential uses; (c) the functionalities that could be added to this app; and (d) prospects for using a digital app.

Based on the results of these interviews, the committee of researchers brainstormed a first concept of a digital app designed to measure and monitor the decisional balance for PA in pwCF. Three meetings were organized to achieve a first prototype. Then, the researchers' committee established specifications for the development of the app. These specifications were then sent to the company selected to develop a first version of the app.

Acceptability of the digital app

The first version of the app was presented to the participants in a video. This presentation included: (a) an introduction to the definition of decisional balance, barriers to, and facilitators of PA among pwCF; (b) functionalities of the app from the perspective of pwCF; (c) functionalities of the app from the perspective of healthcare professionals; and (d) functionalities of the app from the perspective of researchers. After watching the video,

participants were invited to complete: (a) the French e-health scale based on the UTAUT2 [20], specifically adapted to the presented digital app (i.e., “ICT for Health” was replaced by “this app”); (b) usage frequency of similar technologies inspired by the UTAUT2 model [20]; (c) the most relevant items from the computer anxiety trait subscale [23], selected for the study context; and (d) sociodemographic information, including age, sex, socio-professional category and mutation type. This survey was administered by LimeSurvey in person in CF centers, or by videoconferencing.

In a second step, participants were asked if they agreed to participate in complementary individual semi-structured interviews. The interview guide comprised four parts: (a) the perceptions of the app, (b) the perceptions of the interface, (c) the missing functionalities, and (d) the overall feedback and the app usage intentions. Interviews were conducted face-to-face at specialized CF centers after completion of the survey, or remotely through videoconferencing.

Data Analysis

Co-design of the digital app

The interviews were analyzed using a combination of inductive and deductive methods based on the core principles of thematic analysis ([24], [25], [26]). First, audio recordings of the interviews were transcribed *ad verbatim*. Second, the transcripts were read multiple times by two researchers to gain a thorough understanding of the data. Deductive coding in previously defined main categories was initially performed, followed by inductive coding. Three disinterested peers reviewed the categories and codes to strengthen the qualitative research validity [27].

Acceptability of the digital app

Data were first analyzed by descriptive methods (means, standard deviation). Analyses of variance were then performed to examine differences by type of participants (healthcare professionals, patients, researchers), using SPSS version 23. Qualitative interviews were analyzed using the same methodology as previously described in the digital app co-design phase.

Results

Co-design development of the app's content

Characteristics of the sample

Participants in the co-design phase were: (a) 11 healthcare professionals specialized in CF (two doctors, two coordinating nurses, two physiotherapists, three APA professionals, one psychologist and one dietitian), (b) six pwCF, and (c) five researchers. Healthcare professionals and pwCF were recruited from two specialized CF centers in France, selected for their advanced attitudes toward PA promotion. Researchers were from two French universities. The interviews were conducted from January 2022 to May 2022. The healthcare professionals had an average age of 39.91 (SD = 11.6) years, with three males and eight females. The pwCF had an average age of 28.17 (SD = 6.94) years, with two men and four women. Their degrees of disease severity were classified as "average," and they were under no CFTR modulator treatment.

Outputs from co-design development

The semi-structured interviews produced the following results, detailing: (a) professional practices concerning PA management, including the first meeting of healthcare professionals with patients, their profiling and recommendations for adapted physical exercise and/or consultation with an APA professional, (b) perceptions of the CF-DB-PA scale (including its benefits and limitations), and (c) the prospects for using the tool in its digital form.

Professional practice in physical activity management

First meeting with patients. The interviewed healthcare professionals at the specialized centers systematically promote PA during consultations with their patients at a very early stage in their care (e.g., parents are made aware of this from birth). A follow-up of PA is therefore carried out during the quarterly visits, during which the advantages and benefits of taking part in PA are explained, as well as the various activities and supervision offered at the specialized centers. The advice focuses primarily on pleasure, safety, hygiene, nutrition, hydration, and PA itself. The health professionals focus on functional capacity rather than performance and give priority to long-term practice. Support for patients extends beyond the hospital setting, with respiratory physiotherapy as a common thread, for example. These professionals use only a few tools to promote PA, including a pedometer (an indicator of PA level), existing therapeutic patient education tools, and the results of scientific studies. The pwCF also emphasize this follow-up,

noting that questions about their PA practices are an essential part of the quarterly visits: “At every visit, we have at least one question about what we’re doing [in AP], how it's going, and so on, we always have something to say about it [AP practice]” [pwCF3].

PwCF profiling and referrals. The profile of a pwCF is based on the results of functional tests (6-minute walk test, functional respiratory exploration), the medical file, the initial interview during which the objectives of the doctor and the pwCF are defined (i.e., motivation, level of requirement, sporting past, risk factors), and current and past sporting practices. More rarely, some patients participate in advanced physical tests when research studies are carried out in partnership with the hospital center. PA recommendations are then personalized according to personal objectives, preferences, sporting level and medical records. PwCF are referred to an APA professional, who will individualize the care and advice they give, considering the requests and considerations of each person. Specific low saturation limits will be set by the doctors for pwCF suffering from respiratory insufficiency or pulmonary arterial hypertension. A patient illustrated this point as follows: “Yeah, we're encouraged to do a sport, but we can choose, and the good thing is that here [in the specialist center] they show us several, so at least we can try and see what we like and don't like” [pwCF1].

Perceptions of the Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity (CF-DB-PA) scale

Interests of the CF-DB-PA. The healthcare professionals reported several perceived interests of the CF-DB-PA scale. First, they noted that it provides specific information about of the facilitators and barriers encountered by the pwCF. This point was mentioned by nine healthcare professionals, and it can be illustrated by the following quote: “It lets us get to know our patients better, to see things that come to light that we wouldn't necessarily have identified, such as their motivations” [APAP3].

The second point mentioned by seven healthcare professionals as an advantage of the CF-DB-PA is that it enables them to evaluate the level of motivation for PA of the pwCF. The psychologist illustrates this as follows: “It might also be good to see who's sports-oriented and likes it, and who's not so keen on it” [Psycho1].

Similarly, seven participants mentioned that this would enable them to be aware of their patients' level of knowledge or beliefs and help them start discussions on the subject, for example: “This will challenge us doctors, our misconceptions, what we think is obvious or taken for granted [by our patients] when it isn't” [Doctor1].

Finally, five healthcare professionals mentioned that simply taking the CF-DB-PA would help the pwCF to think about starting or resuming PA. This is illustrated by the following comment: “Just the fact that the questionnaire is on display is a plus, it makes you question yourself, and why wouldn’t it encourage you to start exercising again?” [Nurse2].

Limitations of the CF-DB-PA. The main perceived limitation of the scale noted by nine participants was the time-consuming aspect of processing the results. This is illustrated by the following comment: “Consultation time is already sometimes not enough, so taking the time to carry out the analyses correctly seems very complicated to me” [APA1].

A second limitation, cited by four healthcare professionals, was the “paper and pencil” version of the instrument, which does not allow responses to the questionnaire to be quickly added to the patient file and shared with the entire medical team. This quote illustrates this limitation: “In the department, we try to reduce the use of paper as much as possible, and now it would be even harder to scan it and include it in the patient's file. It would take even more time, and I don't think anyone would want to take that on” [Physiotherapist1].

Prospects for using the tool in its digital form

Elements required for the digital adaptation of the CF-DB-PA. The main emerging element in the creation of the digital app was the simplicity of the interface, mentioned by 15 participants (10 health professionals and 6 pwCF). Having something that is easy, user-friendly and intuitive so that needed information can be quickly retrieved was frequently requested, as expressed in this quote: “It [the application] really needs to be simple so that people understand straight away and don't waste time looking for where to go” [pwCF4].

The second requirement mentioned by all 11 healthcare professionals was the need to easily extract the data from the digital tool and upload them in the patient file. This quote illustrates this point: “We need something that we can retrieve and put in the patient's individual file, without having to print and scan it” [Dietitian1].

Finally, the last point mentioned by almost half of the participants (i.e., seven health professionals and one pwCF) was the importance of having a platform that guarantees the security and confidentiality of patient data. This aspect can be illustrated by this quote: “It still has to be something serious, so that not just anyone can log on and see our answers and even our personal information” [pwCF2].

Intention to use the tool in its digital format. Of the 11 healthcare professionals and six patients, only one patient (i.e., pwCF5) indicated that he was not inclined to use a digital app because he was not comfortable with this format, as expressed in this comment: “It's true that I'm not necessarily a big fan of anything connected. So personally I don't think I'll be using it” [pwCF5].

The other participants mentioned their intention to use the digital format for several reasons. One of these reasons was to limit the use of the paper format, as this healthcare professional stated: “Completely, because here we really have the objective, I think like everywhere else, of doing more and more without paper, so yes, if there was an application, we would use it all the more” [APA2]. This also reflects the ubiquitous use of smartphones and other digital technologies in today's lifestyles, as emphasized by the following quotation: “We have quite a few patients from a generation that is fairly positive about apps and things like that, so I think it could go down very well” [Doctor2].

The app's contents

Based on the proposals of healthcare professionals and pwCF, the five researchers defined a set of specifications of the functionalities to be included in the digital app. These specifications were divided into three levels, depending on the importance of the item: priority, secondary or tertiary. These levels were themselves classed according to the users, that is, the pwCF, healthcare professionals and researchers. These specifications were then validated by the healthcare professionals and pwCF before being passed on to the company in charge of designing the digital app.

In similar fashion, the algorithm used to determine the decisional balance based on the results of the questionnaire was established, leading to "standard profiles" of pwCF. Nine typical profiles were identified: (a) prevalence of physical barriers, (b) prevalence of psychological barriers, (c) prevalence of environmental barriers, (d) balance between barriers and physical facilitators, (e) balance between barriers and psychological facilitators, (f) balance between barriers and environmental facilitators, (g) prevalence of physical facilitators, (h) prevalence of psychological facilitators, and (i) prevalence of environmental facilitators. Table 1 provides a summary of these typical profiles, how they were calculated, and their associated PA recommendations.

Table 1. Typical profiles of the CF-DB-PA questionnaire and related recommendations

	Physical dimension	Psychological dimension	Environmental dimension
Barrier score > Facilitator score	<p>Prevalence of physical barriers Fatigue or the symptoms of your illness are frequent obstacles to physical activity. But these barriers can be reduced by regular exercise. This is adapted so that you can exercise while taking into account the progression of your disease. You can do it, so keep on doing it!</p>	<p>Prevalence of psychological barriers Lack of confidence in one's physical abilities and/or apprehensions often limit the practice of physical activity. Adapted physical activity instructors propose safe situations that are accessible to everyone. This will help you to gradually regain confidence in yourself and your physical abilities. You can do it, so keep on doing it!</p>	<p>Prevalence of environmental barriers Of all the physical activity options available near you, not all are suited to your needs or desires. Your local hospital can help you find the one that suits you best. You can do it, so keep on doing it!</p>
Barrier score = Facilitator score	<p>Balance between barriers and physical facilitators Fatigue and the symptoms of your illness are frequent obstacles to physical activity. Specialists in adapted physical activity can advise you and adapt the sessions to the progression of your illness. This will enable you to practice regularly at your own pace, and thus reduce these barriers as much as possible. You should know that the beneficial effects of physical activity are accentuated by regular exercise. You're on the right track, so keep up the good work!</p>	<p>Balance between barriers and psychological facilitators Lack of confidence in one's physical abilities and/or apprehensions often limit the practice of physical activity. Adapted physical activity instructors offer safe, accessible activities for everyone. They will be able to advise you on how to exercise and adapt the sessions to your own pace. This will help you to feel more at ease in your body. You'll find it easier to cope with the way others look at you if you've got someone at your side. You're on the right track, so keep up the good work!</p>	<p>Balance between barriers and environmental facilitators Of all the physical activity options available near you, not all are suited to your needs or desires. Your local hospital can help you find the one that suits you best. You're on the right track, so keep up the good work!</p>
Barrier score < Facilitator score	<p>Prevalence of physical facilitators You're aware of the benefits of physical activity for your body as a whole, and you're managing to exercise regularly. Well done – keep up the good work!</p>	<p>Prevalence of psychological facilitators You have confidence in yourself and your physical abilities. You know that physical activity is good for your health, which is why you don't dread exercise sessions. On the contrary, they help you clear your mind and you enjoy them. Well done – keep up the good work!</p>	<p>Prevalence of environmental facilitators Your local environment is conducive to physical activity. You know where to turn and where to go to exercise. Well done – keep up the good work!</p>

After several meetings with the designer, an initial test version was created. This included three types of profile: (a) healthcare professionals (with specific accounts for doctors, nurses and APA professionals), (b) pwCF, and (c) researchers. Healthcare professionals could add new users and send CF-DB-PA questionnaires to their associated pwCF with a request for

completion. Once the questionnaires had been completed, these professionals were able to access the overall scores and the specific scores of the subscales according to the nature of the barriers, in schematic and numerical forms. The answers to each question were also available. They could then download the entire file in PDF format. The results were saved, and it was possible to compare them between two test dates. The pwCF were able to complete the 23-item questionnaire, which can be found in Table 2, and consult and download the results. Researchers could only access the data anonymously and download it for research purposes. This version was tested by the researchers, healthcare professionals and pwCF to identify any faulty items and check that the standard profile algorithm was working effectively with the personalized recommendations displayed. The second version was then developed, adding the “physiotherapist” profile to the healthcare professionals’ section, rectifying errors in the algorithm, adding the option for healthcare professionals to search for pwCF members not yet associated with their account, and deleting existing accounts. Once this second version had been tested by the users, it was cleaned up so that it could be operational and offered to users.

Table 2. Items of the CF-DB-PA questionnaire in French and in [English], 17.

N°	Category	Items
1	F _{PHY1}	Cela développe mes muscles respiratoires et réduit mon essoufflement. [It develops my respiratory muscles and reduces my shortness of breath.]
2	F _{PHY2}	Cela améliore mon endurance. [It improves my endurance.]
3	F _{PHY3}	Cela améliore ma force et ma masse musculaire. [It improves my strength and muscle mass.]
4	F _{PHY4}	Une bonne condition physique favorise la réussite de la greffe. [A good physical condition promotes transplant success.]
5	F _{PSYCH1}	C’est l’occasion de penser à autre chose. [This is an opportunity to think about something else.]
6	F _{PSYCH2}	Cela me fait plaisir. [I am pleased to do it.]
7	F _{PSYCH3}	Cela me permet de rencontrer d’autres personnes. [It allows me to meet other people.]
8	F _{ENVI1}	Je bénéficie d’un encadrement compétent pour ma pratique. [I benefit from competent supervision for my PA.]
9	F _{ENVI2}	Je bénéficie de lieux adaptés à ma pratique. [I benefit from adapted places to do my PA.]
10	F _{ENVI3}	J’ai une offre de pratique près de chez moi. [I have a PA offer in my immediate area.]
11	B _{PHY1}	Cela me fatigue trop. [It fatigues me too much.]
12	B _{PHY2}	Je supporte mal l’effort physique. [I have trouble tolerating physical effort.]
13	B _{PHY3}	Je m’essouffle très vite. [I get short of breath really fast.]
14	B _{PHY4}	Je désature très vite. [I desaturate really fast.]
15	B _{PSYCH1}	J’ai peur d’être trop essoufflé.e. [I worry about getting short of breath.]

16	B _{PSYCH2}	J'ai peur d'être contaminé.e par des germes dans les lieux de pratique sportive. [I am afraid of being contaminated by germs in places for PA.]
17	B _{PSYCH3}	J'ai peur de tousser. [I am afraid of coughing.]
18	B _{PSYCH4}	J'ai peur d'être mal vu.e si je tousse devant les autres. [I am afraid of being frowned upon if I cough in front of others.]
19	B _{PSYCH5}	Je ne pense pas en être capable physiquement. [I don't think I am physically able to do it.]
20	B _{PSYCH6}	Je n'arrive pas à suivre le rythme. [I can't follow the rhythm.]
21	B _{ENVI1}	Je n'ai pas le temps à cause de mes contraintes familiales. [I don't have time because of my family obligations.]
22	B _{ENVI2}	Je n'ai pas d'offre qui me convienne près de chez moi. [I don't have a PA offer that works for me in my immediate area.]
23	B _{ENVI3}	Je n'ai pas l'encadrement adapté à mes besoins. [I don't have supervision that is adapted to my needs.]
<p><i>Notes.</i> <i>F_{PHY}</i> physical facilitator; <i>F_{PSYCH}</i> psychological facilitator; <i>F_{ENVI}</i> environmental facilitator; <i>B_{PHY}</i> physical barrier; <i>B_{PSYCH}</i> psychological barrier; <i>B_{ENVI}</i> environmental barrier. For each item, participants responded on a 6-point Likert scale from (1) "Totally disagree" to (6) "Totally agree." The introduction sentence was "The factors that would encourage me to regularly practice a physical activity are..." [<i>Les raisons qui m'inciteraient à pratiquer régulièrement une activité physique sont...</i>] for the facilitators and "The factors that would hold me back from regularly practicing a physical activity are..." [<i>Les raisons qui me freineraient à pratiquer régulièrement une activité physique sont...</i>] for the barriers.</p>		

Acceptability Evaluation

Characteristics of the sample

The 103 participants involved in the acceptability of the digital app phase were as follows: (a) 47 healthcare professionals specialized in CF, (b) 44 pwCF, and (c) 12 researchers. The 47 healthcare professionals were composed of five doctors, 12 nurses (including state-qualified nurses, coordination nurses, nursery nurses and advanced practice nurses), nine physiotherapists, eight APA professionals, four dietitians, three psychologists, one pharmacist, and five who did not specify. The overall sample had a mean age of 37.92 (SD=11.07) years and comprised 36 men and 67 women. The mean age of the healthcare professionals was 38.96 (SD=9.93) years, and the sample comprised six men and 41 women. The mean age of the patients was 36.89 (SD=13.17) years, with 22 men and 22 women. The mean age of the researchers was 37.67 (SD=6.04) years, with eight men and four women.

Out of this sample, 29 participants agreed to take part in semi-structured interviews to further explore the acceptability of the digital app. The average age of this sub-sample was 36.45 (SD=11.68) years and included 18 women and 11 men. There were 16 patients and 13 healthcare professionals (four APA professionals, three physiotherapists, three nurses, one doctor, one dietitian and one psychologist). The patients had an average age of 34.44 (SD=12.49) years, with eight women and eight men, compared with an average age of 38.92 (SD=10.55) years for the healthcare professionals, with 10 women and three men.

Statistical analyses

Descriptive statistics of the acceptability of the mobile app, the usage frequency of similar technologies, and computer anxiety are provided in Table 3 for the different profiles of users (i.e., health professionals, pwCF, and researchers). Performance expectancy ($\beta=.20$, $p=.030$) and habit ($\beta=.63$, $p<.001$) were significant contributors to behavioral intention to use the mobile app. The acceptability constructs explained approximately 84% of the variance in behavioral intention.

Table 3. Means (standard deviations) of the different measures of the MUCO_BALAD mobile app acceptability in each sample.

	Health professionals (N=47)	pwCF (N=44)	Researchers (N=12)	Total sample (N=103)
UTAUT2 overall score	5.63 (0.82)	5.62 (0.82)	5.64 (0.81)	5.62 (0.81)
Performance expectancy	5.10 (1.45)	5.09 (1.13)	5.00 (1.65)	5.08 (1.33)
Effort expectancy	6.23 (0.79)	6.14 (0.94)	6.71 (0.49)	6.25 (0.84)
Social influence	4.84 (1.48)	5.26 (1.31)	4.50 (1.68)	4.98 (1.44)
Facilitating conditions	6.38 (0.61)	6.28 (0.90)	6.44 (0.87)	6.35 (0.77)
Hedonic motivation	5.25 (1.06)	5.21 (1.31)	5.22 (1.58)	5.23 (1.22)
Market value	6.74 (0.58)	6.68 (0.55)	6.78 (0.38)	6.72 (0.54)
Habits	4.64 (1.32)	4.49 (1.22)	4.50 (1.54)	4.56 (1.30)
Behavioral intentions	5.15 (1.40)	4.86 (1.41)	4.83 (1.73)	4.99 (1.44)
Usage frequency of similar technologies	3.40 (1.38)	2.84 (1.23)	3.27 (0.87)	3.15 (1.29)
Computer anxiety	1.50 (0.83)	1.48 (0.78)	1.54 (1.05)	1.50 (0.83)

Notes. pwCF people with cystic fibrosis; each item of the UTAUT2 scale was measured using a 7-point scale from: (1) strongly disagree, to (7) strongly agree; usage frequency of similar technologies was measured on a 7-point scale as follows: (1) never, (2) less than once a year, (3) once a year, (4) once a month, (5) once a week, (6) once a day, and (7) several times a day. Computer anxiety was measured on a 5-point scale from: (1) not at all corresponding, to (5) completely corresponding.

A one-way multivariate analysis of the variance revealed no effect of the user profiles on the acceptability of the mobile app [Wilks' $\Lambda=.77$, $F(16, 186)=1.61$, $p=.069$, $\eta_p^2=.12$]. Two one-way univariate analyses of variance also showed no effect of the user profiles on the usage frequency of similar technologies [$F(2, 100)=2.27$, $p=.11$, $\eta_p^2=.04$], nor on computer anxiety [$F(2, 100)=0.02$, $p=.98$, $\eta_p^2=.00$].

Outputs from semi-structured interviews on acceptability

Based on the interview guide, the following three categories were studied: (a) perceptions of the app, (b) perceptions of the interface, and (c) missing functionalities. Examples of verbalizations representing these categories are provided in Table 4.

Perceptions of the app

This category covered both positive and negative perceptions of the app. Positive perceptions were cited by 27 participants (i.e., 93% of the total sample) and were divided into six sub-categories: (a) monitoring and individualized management of patients (n=1), (b) awareness of facilitators and barriers (n=10), (c) reaching a large audience (n=10), (d) time saving and user-friendliness (n=9), (e) increasing motivation to exercise (n=9), and (f) responding to a need (n=7).

Negative perceptions of the app were highlighted by 11 participants and divided into two sub-categories: (a) lack of motivation and perceived constraint (n=8), and (b) technological constraint (n=5). We also note that 60% of the participants mentioned the absence of negative perceptions of the app.

Perceptions of the interface

Positive and negative perceptions of the interface emerged. Positive perceptions of the interface were mentioned by 25 participants (i.e., 85% of the total sample). Three sub-categories were mentioned: (a) its simplicity and ease of use (n=23), (b) its design (n=9), and (c) its intuitiveness and playfulness (n=7).

Negative perceptions of the interface were cited by five participants and consisted of two sub-categories: (a) its inappropriate terminology (n=3), and (b) the training required before using it (n=2).

Missing functionalities

Missing functionalities of the app were identified by 13 patients. These were classed into four categories: (a) interactions with healthcare professionals (n=7), (b) interoperability with other PA apps (n=3), (c) addition of PA content (n=2), and (d) contact with sports associations and APA professionals (n=2).

Table 4. Qualitative analysis of the perceptions of the app, the interface, and the missing functionalities of the mobile app with illustrative quotes.

Themes and categories		Participants	Quotes
Perceptions of the app			
Positive perceptions of the app		N=27	
	Monitoring and individualized management of patients	n=11	It can also help to identify any difficulties someone may be having, and so to create something individualized for the patient, something we hadn't really realized we could do. [Physio3].
	Awareness of facilitators and barriers	n=10	I find the aspect of identifying biases for each person really interesting. It's quite innovative in terms of everything I've seen, heard or read about sports and cystic fibrosis. [pwCF12]
	Reach a large audience	n=10	I think the application could enable us to offer the tool to more patients, who could do it in their room, even here in the residential unit, without necessarily needing to be with us [...] It would enable, yeah well, more patients to have access to this tool, something that is a bit more limited when we do it on an individual basis. [pwCF19]
	Time saving and user-friendliness	n=9	The digital coup tool would make test-taking a whole lot easier and save us a lot of time, that's for sure! [APAP5]
	Increased motivation to exercise	n=9	Some people will be able to pull themselves up by their own bootstraps, while others will use things like this to pull themselves up. [APAP9]
	Responding to a need	n=7	I think it's very good, you even wonder why it wasn't done before. [Nurse16]
Negative perceptions of the app		N=11	
	Absence of negative perceptions	n=18	Not at all, no. Really, absolutely not. [pwCF7]
	Lack of motivation and perceived constraint	n=8	It's always a bit of a strain to have to answer questionnaires, even if they're not very long. [pwCF6]
	Technological constraint	n=5	From time to time we have people here, whether professionals or patients, who are not at all at ease with IT tools. [APAP24]
Perceptions of the app interface			
Positive perceptions of the app interface		N=23	
	Simplicity and ease of use	n=23	Very practical, very clear. It's very well explained [...], so you don't feel lost on the application. [APAP8]
	Design	n=9	And it's easy because we've got the thing with diagrams. It's easier to visualize with graphics and everything rather than with just numbers. [pwCF10]
	Intuitiveness and playfulness	n=7	It's a lot of fun. [pwCF26]
Negative perceptions of the interface		N=5	
	Inappropriate terminology	n=3	At first, it's quite complicated to understand: the barriers, the figures. It's not difficult, but at first you think: it's not practical. But after a while you get used to it. [pwCF20]
	Training required	n=2	It implies, all the same, training for each healthcare professional to say, well, that's what you have to do if you want to add a colleague, if you want to find a patient, and so on. [Physio1]
Missing functionalities		N=13	
	Interaction with healthcare professionals	n=7	To have more interaction, to be able to contact, to have a sort of map of nearby health professionals or associations. [pwCF11]
	Interoperability with other PA app	n=3	After that, it depends on whether we can link things like watches and the like, so that we can integrate them to get the heart rate and so on. [pwCF15]
	Addition of PA content	n=2	Tutorials with perhaps "small recovery programs." Because, in fact, I think that on the whole, people with CF especially need this, I think... I think for myself of small programs to get back on track. [pwCF15]
	Contact with sports associations and adapted physical activity professionals	n=2	To have a sort of map of nearby health professionals or associations. [pwCF11]

Discussion

Main results

As mobile health interventions become increasingly accessible, it is essential to ensure that mobile technologies are designed and targeted to meet the needs of users. As the MUCO_BALAD app has been designed for pwCF 18 years old and over, healthcare professionals and researchers, it was important to carry out a rigorous evaluation of its acceptability among these individuals to determine whether it is an acceptable tool.

An essential quality of our study is that the app acceptability was measured by the UTAUT2 integrative model [20]. The results provided by the UTAUT2 questionnaire showed that the acceptability of the mobile app was high (i.e., the scores were mainly above 5) and technological anxiety was low (i.e., mean scores below 2). In addition, no differences were found between the user profiles (i.e., healthcare professionals, patients and researchers). These results, associated with the high explained variance in usage intention, suggest that the application should be generally well used by different types of users.

This was also reflected in the interviews conducted with the 29 volunteer participants, who mainly expressed positive perceptions of the app that paralleled the dimensions of performance expectancy and effort expectancy of the UTAUT2 model. The categories “Monitoring and individualized management of patients”, “Awareness of facilitators and barriers”, and “Reaching a large audience” were consistent with the “Performance expectancy” category of the UTAUT2. Similarly, the identified categories “Increased motivation to exercise” and “Lack of motivation and perceived constraint” were congruent with the UTAUT2 model category “Hedonic motivation”, and the category “Responding to a need” was compliant with the “Behavioral intention” of the UTAUT2 model. Likewise, we can establish a relationship between the “Time saving and user-friendliness” and “Simplicity and ease of use” categories with the “Effort expectancy” rubric of the UTAUT2 model. Finally, “Intuitiveness and playfulness” was consistent with the “Habits” category from the UTAUT2, and “Missing functionalities” was consistent with the UTAUT2 “Social influence” category.

Usage frequency of similar technologies was moderate for the three types of users. Since habit was a major determinant of the behavioral intention to use the app, this can be questioned. However, the MUCO_BALAD app is not intended to be used on a daily basis, but during annual check-ups and, if possible, during quarterly check-ups. It is therefore consistent with the actual use of similar technologies. Similarly, the moderate results obtained in the “Social influence”, “Habits” and “Behavioral intention” categories, and the low results for “Frequency of use of

similar technology”, may be explained by the observation that pwCF patients are over-solicited to complete questionnaires in the context of CF. Frequent check-ups within the hospital are a way of encouraging participation in a large number of studies aimed at understanding both psychological and physical mechanisms and improving quality of life. But this over-solicitation is perceived as a constraint by a few pwCF.

Finally, the semi-structured interviews provided an overview of the perceptions of the app, the interface and the missing functionalities of potential future users, following the categories in the interview guide. The fourth part of the guide (i.e., prospects for using a digital app) asked for a general opinion of the app. The responses to this section were used to compare the previous responses and to close the interview with a general evaluation of the app. The feedback from these interviews was mostly positive and encouraging regarding the use of the MUCO_BALAD app, with only minor difficulties identified. These qualitative results are therefore consistent with the quantitative results.

Limitations

This study nevertheless has a number of limitations. First, only the acceptability of the MUCO_BALAD app was measured. It would be interesting to assess its usability in another study by actually testing the app, and not just after watching a descriptive and explanatory video. A high level of usability is associated with people's commitment to taking charge of their health [28], and therefore being more successful in achieving their objectives in terms of disease management and health promotion [29]. Measuring acceptability and usability are two distinctive concepts, although related, in the design and evaluation of digital apps. Acceptability focuses on users' overall perception of the app, while usability focuses on ease of use and performance. Both aspects are important for the success of a digital app, as it must be accepted by users and be easy to use in order to meet their needs.

Another limitation was the lack of elements that would have made the MUCO_BALAD app usable in the day-to-day life of pwCF, and not just during visits and annual reviews. One suggestion put forward by several professionals and pwCF would be to integrate PA content (e.g., tutorials, advice, examples of sessions), as well as ways of exchanging information with healthcare professionals and patient associations specializing in PA.

Comparison with prior work

This digital app for pwCF is consistent with the current development of technological support tools in the healthcare sector.

Recent studies have also sought to measure the acceptability of digital health applications for people with chronic obstructive pulmonary disease [30], and asthma [31]. The results show positive acceptability on the part of these two vulnerable populations for the use of digital health applications.

In the same way, other recent studies have examined the effectiveness of a mobile application based on the transtheoretical model to encourage people with chronic illnesses [32], and autism spectrum disorders [33] to adopt healthy lifestyle behaviors (i.e., physical activity, healthy eating). Results showed that participants using the app reported significant improvements in all areas of healthy living behaviors compared to those who received standard care. These studies suggest that digital apps based on decisional scales can be effective in promoting behavior change in a variety of contexts and for a variety of health behaviors.

We can therefore expect that the MUCO_BALAD app would be effective to promote PA in cystic fibrosis, although further research is needed.

Conclusions

This study aimed to explain the various stages in the development of the MUCO_BALAD app and to measure its acceptability to pwCF, healthcare professionals and researchers specializing in CF. The qualitative and quantitative results are encouraging regarding the use of this digital tool for measuring the decisional balance in PA specific to pwCF in the targeted population, namely healthcare professionals, pwCF and researchers.

Acknowledgements

We would like to thank all the participants in this study, healthcare professionals, researchers and pwCF. We would also like to thank the Grégory Lemarchal association and the Vaincre la Mucoviscidose association for their precious contribution and support.

Conflict of interest

None declared.

Abbreviations

APA: adapted physical activity

BENVI: environmental barrier

BPHY: physical barrier

BPSYCH: psychological barrier

CF: cystic fibrosis

CF-DB-PA : Cystic fibrosis decisional balance of physical activity

FENVI: environmental facilitator

FPHY: physical facilitator

FPSYCH: psychological facilitator

MUCO_BALAD: decisional balance in physical activity - cystic fibrosis [balance décisionnelle en activité physique – mucoviscidose]

PA: physical activity

pwCF: people with cystic fibrosis

UTAUT2: Unified Theory of Acceptance and Use of Technology 2

References

1. Ratjen F, Döring G. Cystic fibrosis. *The Lancet* [Internet]. 2003 Feb 1;361(9358):681–9. Available from: [https://doi.org/10.1016/s0140-6736\(03\)12567-6](https://doi.org/10.1016/s0140-6736(03)12567-6)
2. Burgel P, Bell SC, Olesen HV, Viviani L, Zolin A, Blasi F, et al. Future trends in cystic fibrosis demography in 34 European countries. *The European Respiratory Journal* [Internet]. 2015 Mar 18;46(1):133–41. Available from: <https://doi.org/10.1183/09031936.00196314>
3. Elborn JS. Cystic fibrosis. *The Lancet* [Internet]. 2016 Nov 1;388(10059):2519–31. Available from: [https://doi.org/10.1016/s0140-6736\(16\)00576-6](https://doi.org/10.1016/s0140-6736(16)00576-6)
4. Cooney AL, McCray PB, Sinn PL. Cystic fibrosis gene therapy: Looking back, looking forward. *Genes* [Internet]. 2018 Nov 7;9(11):538. Available from: <https://doi.org/10.3390/genes9110538>
5. MacKenzie TA, Gifford AH, Sadosky KA, Quinton HB, Knapp EA, Goss CH, et al. Longevity of patients with cystic fibrosis in 2000 to 2010 and beyond: Survival Analysis of the Cystic Fibrosis Foundation Patient Registry. *Annals of Internal Medicine* [Internet]. 2014 Aug 19;161(4):233. Available from: <https://doi.org/10.7326/m13-0636>
6. Rand S, Hill L, Prasad SA. Physiotherapy in cystic fibrosis: optimising techniques to improve outcomes. *Paediatric Respiratory Reviews* [Internet]. 2013 Dec 1;14(4):263–9. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.prrv.2012.08.006>
7. Savi D, Quattrucci S, Internullo M, De Biase RV, Calverley PMA, Palange P. Measuring habitual physical activity in adults with cystic fibrosis. *Respiratory Medicine* [Internet]. 2013 Dec 1;107(12):1888–94. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.rmed.2013.09.012>
8. Radtke T, Nolan SJ, Hebestreit H, Kriemler S. Physical exercise training for cystic fibrosis. *The Cochrane Library* [Internet]. 2017 Nov 1;2017(11). Available from: <https://doi.org/10.1002/14651858.cd002768.pub4>
9. Saynor ZL, Cunningham S, Morrison L, Main E, Vogiatzis I, Reid S, et al. Exercise as airway clearance therapy (ExACT) in cystic fibrosis: a UK-based e-Delphi survey of patients, caregivers and health professionals. *Thorax* [Internet]. 2022 Sep 9;78(1):88–91. Available from: <https://doi.org/10.1136/thorax-2022-219213>
10. Gruet M, Saynor ZL, Urquhart DS, Radtke T. Rethinking physical exercise training in the modern era of cystic fibrosis: A step towards optimising short-term efficacy and

- long-term engagement. *Journal of Cystic Fibrosis* [Internet]. 2022 Mar 1;21(2):e83–98. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2021.08.004>
11. Burnett S, Preidt M, FitzMaurice TS, Walshaw M, Nazareth D. P094 Facilitating cystic fibrosis research during the COVID-19 pandemic. *Journal of Cystic Fibrosis* [Internet]. 2021 Jan 1;20:S68. Available from: [https://doi.org/10.1016/s1569-1993\(21\)01120-6](https://doi.org/10.1016/s1569-1993(21)01120-6)
 12. Denford S, Van Beurden SB, O'Halloran P, Williams CA. Barriers and facilitators to physical activity among children, adolescents, and young adults with cystic fibrosis: a systematic review and thematic synthesis of qualitative research. *BMJ Open* [Internet]. 2020 Feb 1;10(2):e035261. Available from: <https://doi.org/10.1136/bmjopen-2019-035261>
 13. Ladune R, Filleul V, Falzon C, Hayotte M, Mély L, Vallier J, et al. Perceptions of barriers to and facilitators of physical activity in adults with cystic fibrosis. *Physiotherapy Theory and Practice* [Internet]. 2021 Nov 30;39(1):117–27. Available from: <https://doi.org/10.1080/09593985.2021.2005201>
 14. Prochaska JO, DiClemente CC. Stages and processes of self-change of smoking: Toward an integrative model of change. *Journal of Consulting and Clinical Psychology* [Internet]. 1983 Jan 1;51(3):390–5. Available from: <https://doi.org/10.1037/0022-006x.51.3.390>
 15. Janis IL, & Mann L. Decision making: A psychological analysis of conflict, choice, and commitment. 1977 Free Press. <https://psycnet.apa.org/record/1978-00284-000>
 16. Marcus BH, Rakowski W, Rossi JS. Assessing motivational readiness and decision making for exercise. *Health Psychology* [Internet]. 1992 Jan 1;11(4):257–61. Available from: <https://doi.org/10.1037/0278-6133.11.4.257>
 17. Filleul V, Ladune R, Gruet M, Falzon C, Fuchs A, Mély L, et al. Development and validation of the Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity scale (CF-DB-PA). *BMC Pulmonary Medicine* [Internet]. 2021 Apr 14;21(1). Available from: <https://doi.org/10.1186/s12890-021-01471-0>
 18. Jagosh J, Macaulay AC, Pluye P, Salsberg J, Bush PL, Henderson J, et al. Uncovering the Benefits of participatory Research: Implications of a realist review for health research and practice. *Milbank Quarterly* [Internet]. 2012 Jun 1;90(2):311–46. Available from: <https://doi.org/10.1111/j.1468-0009.2012.00665.x>

19. Dorta T, Safin S, Boudhraâ S, Marchand EB. Co-Designing in Social VR. Process awareness and suitable representations to empower user participation. arXiv (Cornell University) [Internet]. 2019 Jun 26; Available from: <http://arxiv.org/abs/1906.11004>
20. Venkatesh V, Thong JYL, Xu X. Consumer Acceptance and use of Information technology: Extending the unified theory of acceptance and use of technology. *Management Information Systems Quarterly* [Internet]. 2012 Jan 1;36(1):157. Available from: <https://doi.org/10.2307/41410412>
21. Holden RJ, Karsh B. The Technology Acceptance Model: Its past and its future in health care. *Journal of Biomedical Informatics* [Internet]. 2010 Feb 1;43(1):159–72. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.jbi.2009.07.002>
22. Al-Qahtani MF. Associations between approaches to study, the learning environment, and academic achievement. *Journal of Taibah University Medical Sciences* [Internet]. 2015 Mar 1;10(1):56–65. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.jtumed.2015.01.014>
23. Gaudron JP, Vignoli E. Assessing computer anxiety with the interaction model of anxiety: development and validation of the computer anxiety trait subscale. *Computers in Human Behavior* [Internet]. 2002 May 1;18(3):315–25. Available from: [https://doi.org/10.1016/s0747-5632\(01\)00039-5](https://doi.org/10.1016/s0747-5632(01)00039-5)
24. Braun V, Clarke V. What can “thematic analysis” offer health and wellbeing researchers? *International Journal of Qualitative Studies on Health and Well-being* [Internet]. 2014 Jan 1;9(1):26152. Available from: <https://doi.org/10.3402/qhw.v9.26152>
25. Knafl KA, Patton, M.Q. (1990). *Qualitative evaluation and research methods* (2nd ed.). Newbury Park, CA: Sage, 532 pp., \$28.00 (hardcover). *Research in Nursing & Health* [Internet]. 1991 Jan 1;14(1):73–4. Available from: <https://doi.org/10.1002/nur.4770140111>
26. Smith B, McGannon KR. Developing rigor in qualitative research: problems and opportunities within sport and exercise psychology. *International Review of Sport and Exercise Psychology* [Internet]. 2017 May 14;11(1):101–21. Available from: <https://doi.org/10.1080/1750984x.2017.1317357>
27. Lincoln YS, Guba EG. *Naturalistic inquiry*. SAGE; 1985.
28. Abdullah M, Numan M, Shafique MS, Shakoora A, Rehman S, Ahmad M. Genetic variability and interrelationship of various agronomic traits using correlation and path analysis in cotton (*Gossypium hirsutum* L.). *Academia Journal of Agricultural*

- Research [Internet]. 2016 Jan 1;4(6):315–8. Available from: <https://www.cabdirect.org/cabdirect/abstract/20163237441>
29. Kushniruk A, Nøhr C, Borycki EM. Human Factors for More Usable and Safer Health Information Technology: Where Are We Now and Where do We Go from Here? Yearbook of Medical Informatics [Internet]. 2016 Aug 1;25(01):120–5. Available from: <https://doi.org/10.15265/iy-2016-024>
30. Knox L, Gemine R, Rees S, Bowen S, Groom P, Taylor DG, et al. Using the Technology Acceptance Model to conceptualise experiences of the usability and acceptability of a self-management app (COPD.Pal®) for Chronic Obstructive Pulmonary Disease. Health and Technology [Internet]. 2020 Nov 26;11(1):111–7. Available from: <https://doi.org/10.1007/s12553-020-00494-7>
31. Salim H, Cheong AT, Sazlina SG, Lee PY, Lim PY, Khoo EM, et al. A self-management app to improve asthma control in adults with limited health literacy: a mixed-method feasibility study. BMC Medical Informatics and Decision Making [Internet]. 2023 Sep 27;23(1). Available from: <https://doi.org/10.1186/s12911-023-02300-6>
32. Safari R, Jackson J, Sheffield D. Digital Self-Management Interventions for People with Osteoarthritis: Systematic Review with Meta-Analysis. Journal of Medical Internet Research [Internet]. 2020 Jul 20;22(7):e15365. Available from: <https://doi.org/10.2196/15365>
33. An H, Xie B, Wu D, and Liu L. Efficacy of a mobile application-based transtheoretical model intervention on physical activity and healthy eating behaviors in individuals with autism spectrum disorder. International Journal of Environmental Research and Public Health. 2021 18(8), 4223.

Synthèse de l'étude 4

L'étude 4 visait à appliquer l'*Unified Theory of Acceptance and Use of Technology-2* (UTAUT2) (Venkatesh et al., 2012) à l'adaptation numérique du questionnaire MUCO_BDEX (MUCOviscidose Balance Décisionnelle à l'EXercice, Filleul et al., 2021), au travers du développement de l'application MUCO_BALAD (MUCOviscidose BALANCE Décisionnelle à l'activité physique). Son objectif était ainsi de présenter les différentes étapes du développement de cette application numérique, et d'évaluer son acceptabilité auprès des professionnels de santé spécialisés dans la mucoviscidose, des personnes atteintes de mucoviscidose, et des chercheurs.

La méthodologie de conception de l'application MUCO_BALAD était constituée de deux grandes étapes : (a) le co-design pour concevoir le contenu de l'application, et (b) l'évaluation de l'acceptabilité auprès des populations cibles. L'étape de co-design était constituée de 22 entretiens qualitatifs qui ont exploré les pratiques professionnelles liées à l'activité physique, les perceptions du questionnaire MUCO_BDEX et les perspectives d'utilisation d'une application numérique. Un premier concept d'application a été élaboré en fonction de ces résultats, puis discuté par au sein du comité de pilotage et transmis à une entreprise pour développer la première version de l'application. Ensuite, l'évaluation de l'acceptabilité s'est déroulée en présentant une vidéo explicative de l'application avant de répondre à l'UTAUT2 à 103 participants (47 professionnels de santé, 44 personnes atteintes de mucoviscidose, et 12 chercheurs). Parmi eux, 29 participants volontaires ont participé à des entretiens semi-directifs en complément de l'UTAUT2.

Les résultats quantitatifs ont montré des résultats satisfaisants en termes d'acceptabilité de l'application. L'attente de performance ($\beta=.20$, $p=.030$) et l'habitude ($\beta=.63$, $p<.001$) ont contribué de manière significative à l'intention comportementale d'utiliser l'application mobile, et les concepts d'acceptabilité expliquent environ 84 % de la variance de l'intention comportementale. Les résultats qualitatifs ont été regroupés en trois catégories : (a) les perceptions de l'application, (b) les perceptions de l'interface, et (c) les fonctionnalités manquantes. Les participants ont exprimé des perceptions positives à propos de l'application, notamment en ce qui concerne le suivi et la prise en charge individualisée des patients, la prise de conscience des facilitateurs et des obstacles, et le gain de temps. Ils ont également mentionné des perceptions positives de l'interface, particulièrement sa simplicité et sa convivialité. Cependant, des perceptions négatives ont également émergé, telles que le manque de motivation et les contraintes perçues. Les participants ont identifié des fonctionnalités manquantes,

notamment des interactions accrues avec les professionnels de santé et une meilleure interopérabilité avec d'autres applications d'activité physique.

Ainsi, cette étude a évalué l'acceptabilité de l'application mobile MUCO_BALAD chez les patients atteints de mucoviscidose, les professionnels de la santé et les chercheurs. Les résultats ont montré des scores élevés d'acceptabilité de l'application, et une faible anxiété technologique. Cependant, des limitations liées à l'utilisation quotidienne de l'application ont été identifiées, et les participants ont exprimé le besoin d'interactions accrues avec les professionnels de la santé, d'interopérabilité avec d'autres applications d'activité physique et d'ajout de contenu d'activité physique. L'étude suggère que l'application pourrait être efficace pour promouvoir l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, bien que des recherches supplémentaires soient nécessaires pour mesurer sa facilité d'utilisation.

Étude 5.

Développement et validation de l'échelle MUCO_BDEX adaptée
aux adolescents (11-17 ans)¹.

Étude toujours en cours, résultats en cours d'analyse.

Développement et validation de l'échelle MUCO_BDEX adaptée aux adolescents (11-17 ans)

Résumé.

Introduction. La mucoviscidose (MV) affecte les systèmes respiratoire, digestif et endocrinien en raison de mutations du gène CFTR. L'activité physique (AP) se révèle efficace dans la gestion de la MV, améliorant la qualité de vie des patients. Cependant, les adolescents atteints de cette maladie font face à des obstacles à la pratique de l'AP, nécessitant une compréhension approfondie de leurs motivations.

Objectif. Cette étude vise à développer une échelle de mesure de la balance décisionnelle en AP spécifiquement pour ces adolescents francophones, afin de mieux cerner leurs préoccupations, perceptions et motivations en matière d'AP. Cette échelle facilitera la conception d'interventions ciblées pour promouvoir des comportements de santé positifs chez ces adolescents, améliorant ainsi leur qualité de vie et leur santé à long terme.

Méthode. La méthodologie de développement et de validation de l'échelle a suivi des étapes rigoureuses, incluant des tests de clarté et de pertinence, de dimensionnalité, de fiabilité et de validité de construit. Les participants étaient des adolescents francophones âgés de 11 à 17 ans atteints de MV. L'échelle a été élaborée en utilisant la méthode Delphi, et est constituée de deux sous-catégories (barrières et facilitateurs) divisés en trois sous-échelles (physique, psychologique, environnemental). Diverses mesures convergentes ont été utilisées : la qualité de vie, le niveau d'AP et de sédentarité, et la fonction pulmonaire.

Résultats. L'étude a utilisé trois échantillons. L'échantillon 1 comprenait 21 personnes, qui ont évalué la clarté et la pertinence de la version initiale du questionnaire, avec des scores très satisfaisants. L'échantillon 2 (n=78) a évalué la dimensionnalité de l'outil et sa validité de construction, tandis que l'échantillon 3 (n=58) a évalué la fiabilité de l'outil. Après les évaluations de clarté et de pertinence, la version préliminaire du questionnaire, utilisée pour les tests ultérieurs, comportait 47 items, avec 15 items supprimés en raison de scores de pertinence insuffisants ou de redondances.

Mots clés : Activité physique, Mucoviscidose, Balance décisionnelle, Adolescents, Questionnaire

Développement et validation de l'échelle MUCO_BDEX adaptée aux adolescents (11-17 ans)

Introduction

La mucoviscidose (MV) est l'une des maladies génétiques les plus répandues dans les populations caucasiennes. Cette pathologie, caractérisée par des mutations dans le gène CFTR (Cystic Fibrosis Transmembrane Conductance Regulator), affecte principalement les systèmes respiratoire, digestif, et endocrinien. Elle se traduit par la production de mucus épais et visqueux, entravant le fonctionnement normal de ces organes vitaux. Les avancées médicales récentes ont permis d'accroître significativement l'espérance de vie des patients atteints de mucoviscidose, mais ils continuent de faire face à des défis de santé importants, notamment des infections pulmonaires fréquentes et des complications nutritionnelles (Cystic Fibrosis Trust, 2013).

L'activité physique (AP) se distingue comme une thérapie non-médicamenteuse prometteuse dans la prise en charge de la MV. Des études ont montré que l'AP régulière améliore la fonction pulmonaire, la capacité à l'effort, la qualité de vie et peut réduire l'incidence des exacerbations pulmonaires (Hebestreit et al., 2009) dès le plus jeune âge. Elle contribue également à renforcer les muscles respiratoires, à réduire la dyspnée et à augmenter l'endurance, autant d'aspects cruciaux pour les personnes atteintes de MV (Radtke et al., 2017). Néanmoins, malgré les avantages indéniables de l'AP, les enfants et les adolescents atteints de mucoviscidose de 11 à 17 ans font face à diverses barrières à la pratique physique, comme le souligne la synthèse de Denford et al. (2020). Ces obstacles sont d'ordres physique, psychologique, social et environnemental et incluent notamment la présence de symptômes respiratoires, la peur de l'exacerbation des symptômes, les restrictions de temps, et le manque de motivation. Par conséquent, il est impératif de mieux comprendre les facteurs influençant la décision de s'engager dans une AP régulière au sein de cette population particulièrement vulnérable et d'avoir un outil fiable pour les mesurer.

Le modèle transthéorique du changement de comportement (Prochaska & DiClemente, 1983) offre un cadre conceptuel utile pour explorer et comprendre les stades de changement en matière d'AP chez les adolescents atteints de mucoviscidose. Au cœur de ce modèle se trouve le concept de la balance décisionnelle, qui reflète le conflit interne entre les avantages et les inconvénients perçus liés à l'adoption d'un comportement de santé particulier (Janis & Mann,

1977). La balance décisionnelle évolue au fur et à mesure que les individus passent d'une étape à l'autre dans leur processus de changement. En 2013, Eeckout et son équipe ont adapté le concept de balance décisionnelle au domaine de l'activité physique et du sport. Leur travail visait à scruter les perceptions individuelles quant aux avantages et aux inconvénients associés à la participation à des activités physiques. Cette approche permet d'élucider la manière dont les individus évaluent les bénéfices et les désavantages liés à l'activité physique, un processus qui exerce une influence significative sur leur motivation et leur prise de décision quant à leur engagement dans cette pratique. Identifier quelles sont les caractéristiques de la balance décisionnelle liée à l'activité physique chez les adolescents atteints de MV est essentiel pour adapter les interventions de santé en conséquence et les soutenir de manière appropriée.

Ainsi, l'objectif de la présente étude était de développer et de valider une échelle de mesure de la balance décisionnelle en AP spécifiquement conçue pour les adolescents atteints de MV francophones. Cette échelle fournira un outil précieux pour évaluer les perceptions et les motivations des adolescents atteints de mucoviscidose en ce qui concerne l'AP, et facilitera la conception d'interventions ciblées visant à améliorer le niveau d'AP et possiblement la qualité de vie dans cette population.

Méthode

Procédure et participants

Nous avons suivi une démarche méthodologique rigoureuse pour le développement et la validation de l'échelle, similaire à celle adoptée pour la validation de la version adulte (Filleul et al., 2021), en accord avec les recommandations actuelles en matière de recherche (Boateng et al., 2020 ; Vallerand, 1983). Cette procédure a englobé plusieurs étapes cruciales, notamment des tests de clarté et de pertinence, des tests de dimensionnalité, ainsi que des évaluations de fiabilité et de validité de construit. Notre échantillon était constitué d'adolescents francophones âgés de 11 à 17 ans atteints de mucoviscidose, recrutés dans divers centres spécialisés dans cette pathologie en France. Pour garantir la pertinence des résultats, nous avons exclu les participants en phase d'exacerbation aiguë et ceux présentant des troubles cognitifs. Afin de mener à bien les différentes phases de validation, nous avons divisé les participants en quatre échantillons distincts. Le questionnaire a été administré sous forme papier avec la collaboration de personnes relais telles que des infirmières, kinésithérapeutes, enseignants en activités physiques adaptées et stagiaires, ou en ligne en utilisant LimeSurvey CE. Cette étude a été conduite conformément

aux normes éthiques en vigueur et a reçu l'approbation du comité d'éthique de la Commission Nationale de l'Informatique et des Libertés (CNIL 2022-048). De plus, tous les participants ainsi que leurs tuteurs légaux ont donné leur consentement éclairé préalable à leur participation. Nous avons scrupuleusement respecté toutes les directives et réglementations en vigueur au cours de la mise en œuvre de nos méthodes de recherche.

Mesures

MUCO_BDEX 11-17

Le développement de la version préliminaire de notre échelle s'est appuyé à la fois sur des échelles existantes destinées à la population générale, telles que l'échelle d'équilibre décisionnel pour l'AP (Marcus et al., 1992), et notre version adulte (Filleul, et al., 2021). Nous avons également tiré des enseignements de travaux de recherche qualitatifs antérieurs, tels que ceux menés par Denford et al. (2020), et nous avons utilisé un langage adapté et simplifié.

Pour élaborer notre échelle, nous avons utilisé la méthode Delphi, qui repose sur des cycles successifs de consultation d'experts, permettant d'atteindre un consensus (Dalkey et al., 1972). Notre panel d'experts comprenait six membres, parmi lesquels cinq chercheurs spécialisés en sciences du sport et en psychologie sociale de la santé, deux infirmières, et un médecin œuvrant auprès de personnes atteintes de MV.

Initialement, une liste de 62 items a été générée, dont 25 étaient liés aux facteurs facilitant l'activité physique et 35 étaient associés aux obstacles. Après deux cycles de la méthode Delphi, plusieurs items ont été retirés en raison de leur redondance ou de leur ambiguïté par rapport à la mucoviscidose. Il en a résulté une version préliminaire du MUCO_BDEX 11-17 composée de 47 items, comprenant 22 items relatifs aux facilitateurs et 25 relatifs aux obstacles. Ces items ont ensuite été regroupés en trois sous-échelles distinctes pour les facteurs facilitant l'AP : (a) physique (FPHY, n=9), (b) psychologique (FPSY, n=6), et (c) environnemental (FENV, n=7). De même, les items liés aux obstacles ont été répartis en trois sous-échelles : (a) physique (BPHY, n=8), (b) psychologique (BPSY, n=8), et (c) environnemental (BENV, n=10). Pour évaluer ces items, les participants de l'échantillon 1 ont été invités à répondre à une échelle de Likert en 6 points, allant de (1) "Pas du tout d'accord" à (6) "Tout à fait d'accord".

Qualité de vie

La qualité de vie a été évaluée en utilisant deux questionnaires spécifiques à la MV, le CFQR-C adaptés pour les enfants atteints de MV et le CFQ14+ pour les individus âgés de plus de 14 ans (Henry et al., 2003). Ces questionnaires englobent neuf aspects de la qualité de vie, à savoir le fonctionnement physique, l'énergie et le bien-être, les émotions, les limitations sociales, le rôle, la gêne, l'image corporelle, les troubles de l'alimentation et la charge du traitement. Au cours de l'étape de validation convergente, nous nous attendions à des corrélations entre la qualité de vie et les dimensions du MUCO_BDEX 11-17.

Niveau d'AP et de sédentarité

Le niveau d'AP et de sédentarité autodéclaré a été évalué à l'aide des questionnaires de l'enquête Esteban de 2015 (ministère de l'Éducation nationale - Rapport ESTEBAN, 2015). Ce questionnaire auto-rapporté s'intéresse à la pratique physique de 40 minutes consécutives ou plus d'intensité soutenue, à la pratique physique de 60 minutes consécutives ou plus d'intensité modérée, dans le cadre récréatif ou scolaire. De la même manière, il s'intéresse au temps passé devant les écrans (i.e., télévisions, ordinateurs, jeux vidéo, smartphones). Les niveaux d'AP et de sédentarité devaient être liés aux dimensions du MUCO_BDEX 11-17 lors de l'étape de validité convergente.

Fonction pulmonaire

La capacité vitale forcée (CVF) et le volume expiratoire forcé en une seconde (VEMS) ont été mesurés par spirométrie conformément aux recommandations de l'ATS/ERS TASK FORCE (Miller et al., 2005). Nous nous attendions à ce que ces mesures soient liées aux dimensions du MUCO_BDEX 11-17 dans l'étape de validité convergente.

Données sociodémographiques

Des informations sociodémographiques ont été demandées à tous les participants à la fin du questionnaire. Elles comprenaient le sexe, l'âge, la mutation génétique, les maladies associées, et le niveau d'éducation.

Analyses statistiques

Toutes les analyses statistiques ont été effectuées à l'aide des logiciels SPSS (IBM Corporation, version 25) et AMOS (IBM Corporation, version 25).

Clarté et pertinence

La clarté et la pertinence du questionnaire ont été évaluées par un panel diversifié composé de professionnels et d'experts en MV (n=7, comprenant 1 médecin, 2 infirmières, 1 diététicien, 1 kinésithérapeute et 2 enseignants en activités physiques adaptées), d'adolescents atteints de MV âgés de 11 à 17 ans (n=8), ainsi que de parents d'adolescents atteints de MV (n=6). Les participants ont utilisé une échelle de Likert en 6 points pour évaluer la clarté, avec des options allant de (1) "Pas du tout clair" à (6) "Tout à fait clair," et pour évaluer la pertinence, avec des options allant de (1) "Pas du tout pertinent" à (6) "Tout à fait pertinent." Ils étaient également encouragés à fournir des commentaires explicatifs concernant leurs réponses. Les questions qui ont soulevé des problèmes ont été soumises à des discussions au sein du panel d'experts et ont été adaptées jusqu'à ce que des scores satisfaisants aient été obtenus.

Tests de dimensionnalité

Pour tester la dimensionnalité de l'échelle, nous avons effectué plusieurs analyses factorielles confirmatoires par modélisation par équations structurelles (Myers 2013). Sur la base des recommandations (Byrne, 2013), les indices d'adéquation étaient les suivants : chi-carré (χ^2 ; valeurs significatives $p \leq 0,05$), χ^2 sur les degrés de liberté (valeurs significatives $\leq 3,00$), indice comparatif d'adéquation (CFI ; valeur $> 0,90$), l'indice d'adéquation de Tucker-Lewis (TLI ; valeur $> 0,90$), l'erreur quadratique moyenne d'approximation (RMSEA ; valeur $< 0,08$) et l'intervalle de confiance à 90 % de la RMSEA (allant de 0,00 à 0,08).

Tests de fiabilité

La cohérence interne de chaque sous-échelle a été évaluée à l'aide du coefficient alpha de Cronbach ; une valeur $> 0,70$ est considérée comme satisfaisante et une valeur $> 0,60$ comme marginalement acceptable (Taber, 2018). La fiabilité test-retest a été calculée deux fois à l'aide d'un test t de Student pour des échantillons appariés, avec un intervalle raisonnable de 2 à 3 semaines (Marx et al., 2003) et une taille d'échantillon minimale de 50, comme recommandé (Altman, 1990). Les différences pour t ont été considérées comme statistiquement significatives si $p < 0,05$.

Tests de validité convergente

Les coefficients de corrélation de Spearman ont été utilisés pour mesurer les associations entre les sous-échelles du MUCO_BDEX 11-17 et les concepts théoriquement liés (c'est-à-dire la qualité de vie, le niveau d'AP et de sédentarité).

Résultats*Population étudiée*

Pour réaliser les différentes étapes nécessaires à la validation, nous avons réparti les populations en trois échantillons. L'échantillon 1 était un groupe indépendant composé de 21 personnes : 7 professionnels de santé (1 médecin, 2 infirmières, 1 diététicien, 1 kinésithérapeute et 2 enseignants en activités physiques adaptées), 8 adolescents atteints de MV âgés de 11 à 17 ans (3 garçons et 5 filles, moyenne d'âge 13.75 ans, EC = 1.25), et 6 parents d'adolescents atteints de MV (5 femmes et 1 homme, moyenne d'âge 40 ans, EC = 2.76). Cet échantillon a participé aux évaluations de clarté et de pertinence de l'outil.

L'échantillon 2 a participé aux évaluations de la dimensionnalité de l'outil et de sa validité de construction. Il est composé de 78 participants (46 filles et 32 garçons, 42 sous Kaftrio/Kalydeco, moyenne d'âge 14.18, EC = 2.28).

L'échantillon 3 a participé à l'évaluation de la fiabilité de l'outil. Il est composé de 58 participants (34 filles et 24 garçons, 31 sous Kaftrio/Kalydeco, moyenne d'âge 13.95, EC = 2.27).

Test de clarté et de pertinence

Les évaluations de la clarté et de la pertinence de la version initiale de 62 items du questionnaire ont abouti à des scores très satisfaisants de clarté ($M = 5.46$, $EC = 0.26$) et de pertinence ($M = 5.38$, $SD = 0.23$) sur une échelle de Likert en 6 points. La version préliminaire, qui sera utilisée pour l'ensemble des autres tests, comportait ainsi 47 items (voir tableau 1). Un total de 15 items ont été supprimés en raison de scores de pertinence inférieurs à 3.00 ou à cause de redondances avec d'autres items après discussion avec le groupe d'experts.

<i>Catégorie</i>	<i>Items</i>
BPHY ¹	... je m'essouffle très vite.
BPHY ²	... cela me fatigue trop.
BPHY ³	... je n'ai pas assez de force.

2^{ème} partie : Étude 5

BPHY ⁴	... j'ai du mal à respirer.
BPHY ⁵	... je ne me sens pas bien quand je fais de l'activité physique.
BPHY ⁶	... je n'arrive pas à suivre le rythme.
BPHY ⁷	... ma respiration m'en empêche.
BPSY ¹	... je ne vois pas l'intérêt de pratiquer une activité physique.
BPSY ²	... j'ai peur de tousser.
BPSY ³	... je n'ai pas envie de faire de l'activité physique.
BPSY ⁴	... j'ai peur d'être trop essoufflé(e).
BPSY ⁵	... je crains d'être mal vu(e) si je tousse devant les autres.
BPSY ⁶	... je n'aime pas l'activité physique.
BPSY ⁷	... je ne pense pas en être capable physiquement.
BPSY ⁸	... j'ai peur d'être contaminé(e) par des microbes dans les lieux de pratique sportive.
BENV ¹	... mon entourage personnel (ex. famille, amis) ne m'encourage pas à pratiquer.
BENV ²	... ma famille ne pratique pas avec moi.
BENV ³	... je n'ai pas le temps à cause de l'école.
BENV ⁴	... je n'ai pas d'amis avec lesquels pratiquer.
BENV ⁵	... personne ne peut m'emmener pratiquer une activité physique.
BENV ⁶	... je consacre beaucoup de temps à mes traitements.
BENV ⁷	... je préfère faire autre chose que de l'activité physique.
BENV ⁸	... l'équipe médicale ne me conseille pas de pratiquer.
BENV ⁹	... ma famille dit que c'est dangereux pour moi.
BENV ¹⁰	... je n'ai pas la possibilité de pratiquer une activité physique qui me plaise près de chez moi
FPHY ¹	... j'ai plus d'endurance.
FPHY ²	... je respire mieux grâce à l'activité physique.
FPHY ³	... cela améliore ma force et ma masse musculaire.
FPHY ⁴	... je me sens en meilleure forme quand je fais de l'activité physique.
FPHY ⁵	... je suis moins malade grâce à l'activité physique.
FPHY ⁶	... cela m'ouvre l'appétit.
FPHY ⁷	... j'ai plus d'énergie quand je fais de l'activité physique.
FPHY ⁸	... je suis moins essoufflé(e) quand je fais de l'activité physique.
FPHY ⁹	... je tombe moins malade quand je fais de l'activité physique
FPSY ¹	... je suis fier(fière) de moi quand je pratique de l'activité physique.
FPSY ²	... j'aime bien faire de l'activité physique.
FPSY ³	... cela me permet d'améliorer mon quotidien.
FPSY ⁴	... je rencontre de nouvelles personnes grâce à l'activité physique.
FPSY ⁵	... je pense à autre chose quand je fais de l'activité physique.
FPSY ⁶	... je me sens comme les autres quand je pratique de l'activité physique.
FENV ¹	... je fais de l'activité physique pour faire plaisir à mes parents.
FENV ²	... j'ai quelqu'un qui peut m'emmener sur mon lieu de pratique.
FENV ³	... l'équipe médicale m'encourage à pratiquer.
FENV ⁴	... je me suis fait de nouveaux amis grâce à l'activité physique.
FENV ⁵	... je suis bien encadré(e) (professeurs, amis, familles) pour pratiquer.
FENV ⁶	... j'ai toujours fait de l'activité physique.
FENV ⁷	... je suis encouragé(e) par mes proches à pratiquer.
<p>BPHY : barrière physique ; BPSY : barrière psychologique ; BENV : barrière environnementale ; FPHY : facilitateur physique ; FPSY : facilitateur psychologique ; FENV : facilitateur environnemental. Pour chaque item, les participants ont répondu sur une échelle de Likert en 6 points allant de (1) "Pas du tout d'accord" à (6) "Tout à fait d'accord".</p>	

Tableau 1 : Items de la version préliminaire en 47 items du questionnaire MUCO_BDEX 11-17 ans.

Bibliographie

- Altman, D. G. (1990). Practical statistics for medical research. Dans *Chapman and Hall/CRC eBooks*. <https://doi.org/10.1201/9780429258589>
- Boateng, G. O., Neilands, T. B., Frongillo, E. A., Melgar-Quiñónez, H., & Young, S. L. (2018). Best Practices for developing and Validating scales for health, Social, and Behavioral Research : A primer. *Frontiers in Public Health*, 6. <https://doi.org/10.3389/fpubh.2018.00149>
- Byrne, B. M. (2013). Structural equation modeling with MPlus. Dans *Routledge eBooks*. <https://doi.org/10.4324/9780203807644>
- Cystic Fibrosis Trust (2013). Standards of care and good clinical practice for the physiotherapy management of cystic fibrosis. *The Cystic Fibrosis Trust*, 3.
- Dalkey, NG., Rostand, F., Kaufmann, A., Brown, B., Cochran, SW. (1972). La prévision à long terme par la méthode Delphi. *Dunod*
- Denford, S., Van Beurden, S. B., O'Halloran, P., & Williams, C. A. (2020). Barriers and facilitators to physical activity among children, adolescents, and young adults with cystic fibrosis : A systematic review and thematic synthesis of qualitative research. *BMJ Open*, 10(2), e035261. <https://doi.org/10.1136/bmjopen-2019-035261>
- Eeckhout, C., Francaux, M., Heeren, A., & Philippot, P. (2013). Mesure de la balance décisionnelle en vue de pratiquer une activité physique régulière (BDAP) : adaptation et validation francophone de l'échelle decisional Balance for exercise. *Revue Européenne de Psychologie Appliquée*, 63(3), 185-191. <https://doi.org/10.1016/j.erap.2013.01.001>
- Filleul, V., Ladune, R., Gruet, M., Falzon, C., Fuchs, A., Mély, L., Hayotte, M., Vallier, J., Giovannetti, P., Ramel, S., Vuillemin, A., Corrion, K., & d'Arripe-Longueville, F. (2021). Development and validation of the Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity Scale (CF-DB-PA). *BMC Pulmonary Medicine*, 21(1). <https://doi.org/10.1186/s12890-021-01471-0>
- Hebestreit, H., Kieser, S., Junge, S., Ballmann, M., Hebestreit, A., Schindler, C., Schenk, T., Posselt, H., & Kriemler, S. (2009). Long-term effects of a partially supervised conditioning programme in cystic fibrosis. *The European respiratory journal*, 35(3), 578-583. <https://doi.org/10.1183/09031936.00062409>

- Henry, B., Aussage, P., Grosskopf, C., & Goehrs, J. M. (2003). Development of the Cystic Fibrosis Questionnaire (CFQ) for assessing quality of life in pediatric and adult patients. *Quality of life research : an international journal of quality of life aspects of treatment, care and rehabilitation*, 12(1), 63–76. <https://doi.org/10.1023/a:1022037320039>
- Janis, I. L., & Mann, L. (1977). Decision making: A psychological analysis of conflict, choice, and commitment. *Free Press*. <https://psycnet.apa.org/record/1978-00284-000>
- Marcus, B. H., Rakowski, W., & Rossi, J. S. (1992). Assessing motivational readiness and decision making for exercise. *Health Psychology*, 11(4), 257-261. <https://doi.org/10.1037/0278-6133.11.4.257>
- Marx, R. G., Menezes, A., Horovitz, L., Jones, E. C., & Warren, R. F. (2003). A comparison of two time intervals for test-retest reliability of health status instruments. *Journal of Clinical Epidemiology*, 56(8), 730-735. [https://doi.org/10.1016/s0895-4356\(03\)00084-2](https://doi.org/10.1016/s0895-4356(03)00084-2)
- Miller, M. (2005). Standardisation of spirometry. *The European respiratory journal*, 26(2), 319-338. <https://doi.org/10.1183/09031936.05.00034805>
- Myers, N. D. (2013). Coaching competency and (exploratory) structural equation modeling : a substantive-methodological synergy. *Psychology of Sport and Exercise*, 14(5), 709-718. <https://doi.org/10.1016/j.psychsport.2013.04.008>
- Prochaska, J. O., & DiClemente, C. C. (1983). Stages and Processes of Self-change of Smoking : Toward an Integrative Model of Change. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 51(3), 390-395. <https://doi.org/10.1037/0022-006x.51.3.390>
- Radtke, T., Nolan, S. J., Hebestreit, H., & Kriemler, S. (2017). Physical exercise training for cystic fibrosis. *The Cochrane library*, 2017(11). <https://doi.org/10.1002/14651858.cd002768.pub4>
- Taber, K. S. (2017). The use of Cronbach's Alpha when developing and reporting research instruments in science education. *Research in Science Education*, 48(6), 1273-1296. <https://doi.org/10.1007/s11165-016-9602-2>
- Vallerand, R. J. (1989). Vers une méthodologie de validation transculturelle de questionnaires psychologiques : Implications pour la recherche en langue française. *Can Psychol*, 30(4), 662–680.

Synthèse de l'étude 5

L'activité physique a émergé comme une intervention prometteuse pour améliorer la qualité de vie des personnes atteintes de mucoviscidose. Cependant, les adolescents atteints de mucoviscidose, âgés de 11 à 17 ans, rencontrent des obstacles à la pratique de l'activité physique, notamment des barrières physiques, psychologiques, sociales et environnementales. Pour mieux comprendre ces obstacles, le modèle transthéorique du changement de comportement est utilisé pour analyser les stades de changement en matière de pratique physique chez les adolescents atteints de mucoviscidose. L'objectif principal de cette étude est de développer et valider une échelle de mesure de la balance décisionnelle en matière d'activité physique, spécifiquement conçue pour les adolescents atteints de mucoviscidose francophones. Cette échelle vise à évaluer les perceptions et les motivations des adolescents en ce qui concerne l'activité physique. Elle aidera à concevoir des interventions adaptées pour promouvoir des comportements de santé positifs dans cette population. Cette étude vise à combler un vide dans la littérature scientifique et à améliorer la qualité de vie des adolescents atteints de mucoviscidose en favorisant leur engagement dans l'activité physique.

La méthodologie de l'étude inclut une démarche rigoureuse, incluant des tests de clarté et de pertinence, des tests de dimensionnalité, des évaluations de fiabilité et de validité de construit. Les participants sont des adolescents atteints de mucoviscidose âgés de 11 à 17 ans, recrutés en France. Des questionnaires mesurant la qualité de vie, le niveau d'activité physique et de sédentarité ont été administrés, et la fonction pulmonaire ainsi que des données sociodémographiques ont été collectées pour les analyses. Des experts et des panels diversifiés ont évalué la clarté et la pertinence du questionnaire.

Discussion générale

Ce travail doctoral avait pour objectif central de contribuer à l'identification des modalités de promotion de l'activité physique auprès des personnes atteintes de mucoviscidose, et de concevoir des outils pratiques visant à améliorer l'évaluation de la motivation de ces personnes envers l'activité physique. Ces travaux se sont appuyés d'une part sur l'approche socio-écologique de la santé, et d'autre part, sur le concept de balance décisionnelle issu du modèle transthéorique du changement. Sur la base de précédents travaux menés chez les enfants (Denford et al., 2020b), nous avons étudié de manière qualitative les perceptions du rapport à l'activité physique chez les adultes, et nous avons exploré les composantes de l'intervention en matière de promotion de l'activité physique au sein des centres spécialisés ayant capitalisé une expérience positive. Dans un second temps, nous avons focalisé nos travaux sur la conception d'outils de promotion de l'activité physique spécifiques aux personnes atteintes de mucoviscidose. En nous appuyant sur les travaux menés autour de la balance décisionnelle (Eeckout et al., 2013 ; Janis & Mann, 1977), issue du modèle transthéorique (Prochaska & Di Clemente, 1983), nous avons établi l'hypothèse que développer des outils spécifiques aux personnes atteintes de mucoviscidose permettant de mesurer la balance décisionnelle et indirectement, le stade de changement des individus, serait un levier majeur de la promotion de l'activité physique au sein de ce public vulnérable.

Les objectifs de ce programme de recherche ressortent des manques observés dans la littérature en amont de son initiation. La population des adultes touchés par la mucoviscidose étant supérieure à celle des enfants depuis une dizaine d'année seulement (Simmonds, 2013), les travaux menés chez les adultes sur les perceptions de l'activité physique demeurent rares au sein de la littérature scientifique, et concentrés sur des personnes touchées à des stades légers de la maladie. De la même manière, il n'existait aucun outil validé scientifiquement permettant une mesure précise des barrières et des facilitateurs à la pratique physique, adapté aux spécificités des personnes atteintes de mucoviscidose. En effet, la mucoviscidose induit des effets secondaires qu'il est indispensable de prendre en considération tant ils affectent le quotidien des individus, comme la fatigue, les difficultés respiratoires, ou encore la prise d'un traitement conséquent et chronophage.

Discussion générale

Ce travail de thèse visait ainsi à répondre à trois questions à ce jour non explorées au sein de la littérature scientifique. Pour chacune des questions formulées, nous indiquerons les principaux résultats émanant des études menées, et nous discuterons de leurs limites et perspectives.

1. Quels sont les obstacles spécifiques à la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, et comment les surmonter ?

Pour aborder cette première question, nous avons réalisé les études 1 et 2. Avec son approche qualitative, l'étude 1 a permis l'identification des principales barrières à la pratique physique chez les adultes atteints de mucoviscidose, avec des stades de léger à sévère. Les analyses des verbalisations recueillies ont permis de faire émerger trois types de barrières à la pratique d'une activité physique régulière, à savoir les barrières physiques, les barrières psychologiques et les barrières environnementales.

Nos résultats de l'étude 1 sont congruents avec la littérature scientifique et l'enrichissent. Des barrières communes aux travaux antérieurement réalisés chez des adultes atteints à des stades légers de la maladie, ont été relevés. On retrouve ainsi du côté des barrières physiques, la fatigue induite par la mucoviscidose mise en avant dans les travaux de White et al. (2007). Une autre correspondance est soulignée au sein des barrières psychologiques, avec la mention du risque perçu de contamination croisée par des germes, mise en évidence par Hurley et ses collaborateurs (2021). Un dernier point de convergence avec les précédentes études menées chez les adultes peut être réalisé avec les travaux de Burnett et al. (2021) et sa mention du manque de temps induit par la prise des traitements, qui rejoint la barrière environnementale relevée dans nos travaux des priorités concurrentes. Enfin, des similitudes ont été observées avec les travaux précédemment menés chez les enfants atteints de mucoviscidose, notamment avec des barrières physiques liées aux symptômes de la maladie, telles que l'essoufflement et la fatigue induits par la mucoviscidose (Denford et al., 2020b). Les éléments innovants de cette étude 1 réside dans l'identification de nouvelles barrières psychologiques, telles que les perceptions de soi négatives, et notamment la perception des risques pour la santé liés à des activités physiques à haute intensité. On retrouve également une spécificité au sein des barrières environnementales, avec le manque d'équipements appropriés, comme l'oxygène, et les responsabilités familiales et professionnelles concurrentes.

Discussion générale

Notre étude 2 s'est concentrée sur l'identification des stratégies de promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée mises en place au sein des centres spécifiques avancés dans ce domaine. Elle s'est également appuyée sur les quatre niveaux du modèle socio-écologique de la santé, adapté au domaine des activités physiques et sportives par Pratt et ses collaborateurs (2015). Notre étude fait ressortir qu'au niveau intrapersonnel, les personnes atteintes de mucoviscidose sont confrontées à des défis tels que la fatigue, le manque de temps et des perceptions négatives liées à la pratique de l'activité physique. Ces barrières sont conformes à la littérature existante sur le sujet et à nos résultats de l'étude 1. Ensuite, une barrière majeure relevée au niveau organisationnel est le manque de temps des professionnels de santé à consacrer à la promotion de l'activité physique adaptée, du fait du manque de personnel, notamment sur les postes d'enseignants en activités physiques adaptées. Enfin, au niveau environnemental et politique, bien que les bienfaits de l'activité physique adaptée ne soient plus à démontrer, les financements de postes réservés aux enseignants d'activité physique adaptée et de matériel sportif sont délicats à obtenir. Le COVID-19 a également apporté de nombreux freins à la promotion de la pratique physique, en perturbant notamment la réalisation des séances d'activités physiques adaptées : interruption des séances en hôpital de jour, restrictions au niveau des séances collectives voire suppression de celle-ci.

Ces conclusions s'inscrivent harmonieusement dans le cadre de la littérature sur l'approche multiniveaux, qui se révèle cruciale pour surmonter ces défis. Cette approche exige une approche intégrée de la promotion de l'activité physique au travers des différents niveaux de l'approche socio-écologique adaptée au domaine des activités physiques (Pratt et al., 2015). Au niveau individuel, il est crucial de fournir aux personnes atteintes de mucoviscidose des informations sur les avantages de l'activité physique, des stratégies pour gérer leurs symptômes pendant l'exercice, et de les encourager à fixer des objectifs réalistes. Des études telles que celles menées par Hebestreit et al. (2009) ont montré que l'éducation des patients sur les avantages de l'activité physique peut améliorer leur engagement. De même, le soutien de la famille dans la pratique physique est crucial. Des recherches, comme celles de Sawyer et al. (2011), ont notamment souligné le rôle positif de la famille dans la promotion de l'activité physique chez les jeunes atteints de maladies chroniques. Au niveau médical, il est nécessaire d'intégrer l'activité physique dans le plan de traitement global. La collaboration étroite avec les professionnels de la santé pour surveiller les progrès et adapter les programmes d'exercices en conséquence est étayée par des études telles que celles de Radtke et al. (2017), ainsi que par les résultats de notre étude 2.

Discussion générale

La capitalisation d'expérience revêt également une importance significative dans le contexte de la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose. En recueillant les récits et les réussites de personnes ayant surmonté ces obstacles, il est possible de créer des modèles inspirants et de partager des stratégies efficaces, offrant ainsi une source de motivation. Des études sur la motivation des personnes atteintes de mucoviscidose, telles que celles menées par Milner et Decker (2018), ont démontré que le partage d'expériences personnelles et de réussites peut jouer un rôle crucial dans l'encouragement à s'engager dans des comportements de santé positifs. Ces récits personnels créent une forme de contagion motivationnelle (Radel et al., 2010), suscitant l'espoir et montrant qu'il est possible de vivre activement malgré la présence quotidienne de la mucoviscidose. L'approche basée sur le partage d'expériences a également été étudiée dans d'autres domaines de la médecine, notamment dans le contexte des maladies chroniques, telles que le diabète ou l'obésité. Les résultats montrent que les patients sont plus enclins à suivre des recommandations de santé lorsqu'ils peuvent s'identifier à d'autres personnes ayant des expériences similaires (Anderson et al., 2000 ; Wang et al., 2019).

2. Quels sont les facilitateurs de la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, et comment les appliquer dans les centres de ressources et de compétences de la mucoviscidose ?

Afin de répondre à cette question, nous nous sommes également appuyés sur les études 1 et 2. En plus de l'identification des barrières à la pratique physique, l'étude 1 a permis d'identifier les facilitateurs de l'activité physique et de les classer en trois dimensions en fonction de leur nature, c'est-à-dire les facilitateurs physiques, les facilitateurs psychologiques et les facilitateurs environnementaux. De la même manière que pour les barrières, notre étude a relevé des facilitateurs communs à ceux observés dans la littérature scientifique, d'ordre physique comme l'amélioration des capacités respiratoires et de la santé générale (White et al., 2007, et d'ordre psychologique telles les perceptions positives de l'activité physique, englobant le plaisir et le bien-être (Hurley et al., 2021). Des facilitateurs psychologiques communs aux enfants atteints de mucoviscidose ont également été relevés, comme les perceptions positives envers la pratique physique (Denford et al., 2020b). L'aspect le plus novateur de cette étude réside dans l'identification d'un facilitateur physique, celui de la facilitation de la récupération après une transplantation pulmonaire, une dimension spécifique jusqu'alors non rapportée

Discussion générale

(Wietlisbach et al., 2020), et qui a pu être mise en avant grâce à l'inclusion de participants à un stade avancé de la maladie.

L'étude 2 visait également à comprendre comment les centres spécialisés dans la promotion de l'activité physique adaptée mettaient en œuvre leurs interventions en ce sens. Les résultats de l'étude 2 montrent ainsi les éléments favorisant la pratique physique au sein des centres spécialisés. Toujours en s'appuyant sur les quatre niveaux du modèle socio-écologique adapté au domaine des activités physiques et sportives mis en avant par Pratt et ses collaborateurs (2015), l'étude fait ressortir des facilitateurs sur le plan intrapersonnel, comme le fait que les professionnels de santé de ces centres se sont concentrés sur la santé des personnes atteintes de mucoviscidose en utilisant des stratégies d'autonomisation par le biais de l'activité physique adaptée, permettant à ces derniers de se sentir acteurs de leur propre santé (Prasad & Cerny, 2002). L'accent était alors mis sur l'amélioration de la qualité de vie et de la condition physique des personnes atteintes de mucoviscidose (Hebestreit et al., 2015). Sur le plan interpersonnel, les stratégies observées mettaient l'accent sur la pratique en groupe, rassemblant ainsi des participants de tous âges et tous niveaux de pratique, ce qui a permis de favoriser les échanges, le partage d'information, le renforcement de la motivation et donc le développement de compétences essentielles à la pratique régulière de l'activité physique. Ces interactions sociales ont favorisé la création de liens sociaux, la confiance en soi et la confiance dans ses capacités (Denford et al., 2019) et ont mis en évidence l'importance des interactions sociales pour soutenir l'engagement dans l'activité physique, ce qui fait écho au besoin d'affiliation sociale de la théorie de l'autodétermination (Deci & Ryan, 1985). Au niveau organisationnel, c'est la présence d'enseignants en activités physiques adaptées spécialisés dans la mucoviscidose qui a été identifiée comme un facteur facilitateur clé. Ces enseignants étaient formés aux spécificités de la mucoviscidose et aux stratégies de promotion de l'activité physique adaptée, contribuant ainsi à l'intégrer dans le parcours de soin. Cette approche est en accord avec les besoins exprimés par d'autres professionnels de la santé (Tomlinson et al., 2018). De même, la motivation générale et le soutien de l'ensemble de l'équipe multidisciplinaire étaient des éléments cruciaux pour promouvoir l'activité physique adaptée, se reflétant au travers des discussions sur la pratique physique lors des consultations trimestrielles (Cox et al., 2014). Enfin, au niveau environnemental et politique, les partenariats pour le financement de l'équipement sportif et de postes d'enseignants en activités physiques adaptées ont été perçus comme un atout majeur pour surmonter les obstacles liés aux aspects financiers. Ces résultats suggèrent que des ressources financières adéquates peuvent jouer un rôle clé dans la promotion

Discussion générale

de l'activité physique. De la même manière, les perturbations induites par l'épidémie de COVID-19 a permis le développement rapide de solutions connectées permettant d'assurer un suivi à distance, notamment la visioconférence, montrant l'engagement des centres spécialisés envers la promotion de l'activité physique adaptée auprès des personnes atteintes de mucoviscidose.

Les facilitateurs de la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose sont des facteurs ou des stratégies qui encouragent et soutiennent l'engagement dans l'activité physique. Ils peuvent être appliqués dans les centres de ressources et de compétences de la mucoviscidose pour améliorer la qualité de vie des patients, notamment via l'éducation thérapeutique des patients en fournissant des informations claires sur les avantages de l'activité physique pour la mucoviscidose, y compris l'amélioration de la fonction pulmonaire et de la qualité de vie (Orenstein et al., 2010). De la même manière, ces facteurs facilitent la conception de programmes en activités physiques adaptées aux besoins individuels, en tenant compte de leur âge, de leur condition physique et de leurs préférences (Hebestreit et al., 2009). Le soutien familial est également un facteur clé. Impliquer la famille pour créer un environnement favorable à l'activité physique (Sawyer et al., 2019) permet de favoriser l'adoption de comportements en activité physique de manière durable. Enfin, intégrer l'activité physique dans le parcours de soin, en collaborant étroitement avec les professionnels de santé pour surveiller les progrès et adapter les programmes d'exercices en conséquence (Radtke et al., 2017). Enfin, la collaboration avec les écoles pour offrir des opportunités d'activité physique adaptée aux enfants atteints de mucoviscidose est essentielle pour intégrer l'activité physique dès le plus jeune âge dans les habitudes de vie quotidienne. Les recherches sur l'adaptation de l'éducation physique pour les élèves atteints de maladies chroniques soulignent l'importance de sensibiliser les enseignants et les pairs à leurs besoins spécifiques.

Dans les centres de ressources et de compétences de la mucoviscidose, ces facilitateurs peuvent être mis en œuvre par le biais de plusieurs stratégies, comme illustré dans l'étude 2. Une première stratégie serait de former les professionnels de santé en sensibilisant et en formant le personnel médical et paramédical à l'importance de l'activité physique et à la manière d'intégrer l'exercice dans le parcours de soin des patients (Hebestreit et al., 2015 ; Sawyer et al., 2011). Une seconde stratégie envisageable serait d'établir des protocoles standardisés pour surveiller la pratique physique chez les patients atteints de mucoviscidose, au même titre qu'il en existe pour la fonction pulmonaire et la condition physique (Klijn et al., 2013 ; Selvadurai

Discussion générale

et al., 2002). Dans la même dynamique, on retrouve la création de programmes d'exercices personnalisés, en fonction de leur état de santé mais aussi de leurs préférences (Radtke et al., 2017). Une autre stratégie réside dans le fait d'offrir un soutien psychologique pour aider les personnes à surmonter les barrières psychologiques à l'activité physique, telles que la peur de l'exacerbation des symptômes, le sentiment d'incapacité ou encore le manque de confiance en soi (Bandura, 2004).

La méthodologie de capitalisation des expériences, utilisée dans l'étude 2, est une stratégie puissante pour encourager les personnes atteintes de mucoviscidose à s'engager dans l'activité physique. En utilisant les réussites d'autres patients comme modèles inspirants, il est possible de motiver les individus à surmonter les obstacles et à adopter un mode de vie actif. Cette approche est congruente avec les travaux de Bandura (2004) et l'utilisation de modèles inspirants ou pairs-ressources dans le domaine de la santé (Markowski et al., 2021) comme technique bien établie pour influencer les comportements de santé. Lorsque les personnes atteintes de mucoviscidose voient d'autres personnes similaires réussir à maintenir un mode de vie actif, cela peut les motiver à suivre leur exemple. Cette motivation est renforcée lorsqu'ils peuvent s'identifier aux modèles, ce qui est particulièrement pertinent dans le cas de pairs atteints de la même maladie. De la même manière, le partage de stratégies et de méthodes qui ont permis à d'autres personnes atteintes de mucoviscidose de maintenir leur activité physique malgré les contraintes liées à la maladie est un élément facilitant la promotion de l'activité physique. Par exemple, cela pourrait inclure des conseils sur la gestion des symptômes, des astuces pour intégrer l'exercice dans la routine quotidienne ou des idées pour rester motivé. Ce partage de connaissances peut aider d'autres personnes à surmonter les obstacles physiques et psychologiques (Ryan & Deci, 2000).

La capitalisation des expériences participe également à la promotion de l'activité physique auprès des personnes atteintes de mucoviscidose en offrant aux professionnels de santé et aux structures spécialisées les outils, les connaissances et les ressources nécessaires pour personnaliser les soins, suivre les progrès et améliorer la qualité de vie des patients. La démarche de capitalisation des expériences permet le partage des bonnes pratiques en matière de promotion de l'activité physique (Pretty & Smith, 2004), notamment au travers de stratégies spécifiques, de programmes d'exercices adaptés et de méthodes de suivi. Elle contribue aussi à déterminer quelles approches fonctionnent le mieux pour encourager l'activité physique chez cette population à besoins spécifiques (Briggs et al., 2017). Ces approches ont également la

Discussion générale

possibilité, par le biais de capitalisation des expériences, d'être évaluées et par la suite ajustées, permettant une amélioration continue des soins (Armitage et al., 2008). Enfin, cette démarche contribue à sensibiliser davantage les professionnels de santé et les structures médicales à l'importance de l'activité physique dans la mucoviscidose. Une sensibilisation accrue peut conduire à une intégration plus systématique de l'activité physique dans la prise en charge globale de la maladie.

3. Comment évaluer de manière individuelle et personnalisée la perception des freins et leviers liés à la pratique physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose ?

Les études 3, 4 et 5 ont contribué à répondre à cette question. Les études 3 et 5 ont eu pour objectif de développer des outils de mesure de la balance décisionnelle en activité physique, l'un à destination des adultes, le MUCO_BDEX (étude 3), et le second adapté aux spécificités des adolescents de 11 à 17 ans (étude 5), le MUCO_BDEX 11-17 ans. Ces deux outils ont suivi les recommandations en vigueur pour le développement d'outils psychométriques (Boateng et al., 2018 ; Vallerand, 1989) et leurs différentes étapes : (a) tests de clarté et de pertinence, (b) tests de dimensionnalité, (c) tests de fiabilité, et (d) tests de validité de construit. La version finale du MUCO_BDEX comporte vingt-trois items, répartis en dix facilitateurs (quatre physiques, trois psychologiques, et trois environnementaux) et treize barrières (quatre physiques, six psychologiques, et trois environnementales). Les différentes analyses effectuées ont suggéré une forte cohérence interne de l'outil avec une structure suivant celle du modèle à bi-facteur confirmatoire. Le questionnaire s'est également révélé être stable dans le temps sur une période de deux semaines, avec des corrélations avec le questionnaire de mesure de l'activité physique, celui de la qualité de vie, les évaluations spirométriques et le test de marche de 6 minutes. L'étude 5 est actuellement au stade de l'analyse de sa dimensionnalité, de sa fiabilité et de sa validité de construit. Les analyses de la clarté et de pertinence ont été réalisées, permettant d'obtenir une version de 44 items avec des scores jugés acceptables. Ces items sont répartis en vingt-deux facilitateurs (neuf physiques, six psychologiques, et sept environnementaux), et vingt-cinq barrières (sept physiques, huit psychologique, et dix environnementales). Élaborer des outils de mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose est une démarche novatrice pour plusieurs raisons. Il s'agit tout d'abord d'une population avec des besoins spécifiques, dont les personnes touchées nécessitent des soins de santé particuliers, et dont les répercussions sur leur santé générale peuvent contraindre la pratique physique. Le développement d'outils adaptés à

Discussion générale

cette population est donc nécessaire pour comprendre leurs besoins, leurs motivations et leurs obstacles spécifiques en matière d'activité physique. Avant le développement de ces outils, il y avait un manque d'instruments de mesure spécifiques pour les personnes atteintes de mucoviscidose. Les outils génériques utilisés dans la population générale ne tiennent pas nécessairement compte des facteurs uniques liés à la mucoviscidose, tels que la gravité de la maladie, les symptômes respiratoires, etc. Par conséquent, le développement d'outils adaptés est essentiel pour évaluer de manière précise et complète la balance décisionnelle dans cette population. En comprenant où se situent les individus sur la balance décisionnelle, les professionnels de la santé peuvent adapter les conseils et les interventions pour aider les personnes atteintes de mucoviscidose à progresser vers un engagement plus actif. Cette personnalisation est essentielle pour maximiser l'efficacité des interventions. Enfin, en promouvant l'activité physique, ces outils peuvent également avoir un impact significatif sur la qualité de vie des personnes atteintes de mucoviscidose.

L'étude 4 avait pour objectif de présenter les étapes de développement de l'application MUCO_BALAD, version numérique du MUCO_BDEX, et de mesurer son acceptabilité auprès des personnes atteintes de mucoviscidose, des professionnels de santé et des chercheurs. Cette application a été conçue selon deux étapes : (a) son co-design constitué d'entretiens semi-directifs explorant les perceptions du questionnaire MUCO_BDEX et les éléments utiles à intégrer dans sa version numérique, et (b) l'évaluation de son acceptabilité auprès des différentes populations cibles en utilisant le modèle de l'UTAUT2 (Venkatesh et al., 2012) et par le biais d'entretiens semi-directifs complémentaires. Les résultats quantitatifs de mesure de l'acceptabilité ont présenté des résultats satisfaisants, et les résultats qualitatifs ont mentionné des perceptions positives et négatives de l'application et de son interface, et ont identifié des fonctionnalités manquantes. Le développement du questionnaire MUCO_BDEX sous forme numérique présente plusieurs avantages. Tout d'abord, les questionnaires numériques présentent des facilités d'administration et de collecte de données, via leur administration en ligne. La distribution électronique des questionnaires est beaucoup plus rapide que l'envoi postal ou la distribution en personne, permettant d'obtenir les résultats plus rapidement. De plus, les données sont automatiquement enregistrées, réduisant ainsi le risque d'erreurs humaines lors de la saisie des données. Un autre aspect est le suivi possible des participants grâce à la mise en place de rappels pour remplir le questionnaire à des fréquences régulières. Enfin, l'analyse de données automatisée facilite le traitement des résultats et permet de donner en instantané des scores imagés et chiffrés, permettant une analyse plus rapide et précise.

Discussion générale

Plusieurs études ont examiné les avantages des questionnaires numériques par rapport à leurs homologues papier-crayon. Dillman et ses collaborateurs (2014) ont souligné que les questionnaires en ligne avaient tendance à obtenir des taux de réponse plus élevés par rapport aux questionnaires papier. Une autre étude de (Gwaltney et al., 2008) a montré que les questionnaires électroniques étaient associés à une réduction des erreurs de saisie de données par rapport aux questionnaires papier. Enfin, plusieurs études récentes ont exploré l'acceptabilité des applications de santé numériques auprès de populations spécifiques, notamment chez les personnes souffrant de broncho-pneumopathie chronique obstructive (Knox et al., 2021) et d'asthme (Salim et al., 2023). Leurs recherches ont révélé une réception positive de ces applications au sein de ces populations vulnérables. Parallèlement, d'autres études menées auprès de personnes atteintes de maladies chroniques (Saffari et al., 2020) et de troubles du spectre autistique (An et al., 2021) ont évalué l'efficacité d'applications mobiles basées sur le modèle transthéorique pour promouvoir des comportements sains, tels que l'activité physique et une alimentation équilibrée. Les résultats de ces études ont démontré que les participants ayant utilisé ces applications ont enregistré des améliorations significatives dans divers domaines de leurs comportements liés à un mode de vie sain par rapport à ceux ayant reçu des soins standard. Ces constatations suggèrent que les applications numériques basées sur des échelles de décision peuvent être un outil efficace pour encourager le changement de comportement dans divers contextes liés à la santé.

Limites.

Il est essentiel de reconnaître les limites inhérentes à chacune des cinq études examinées, afin de comprendre pleinement leur portée et leur généralisabilité. Les études 1 et 2, qualitatives, connaissent plusieurs limites communes, avec notamment le biais de sélection (Rothman et al., 2008), induit par le fait que les participants des deux études étaient limités à trois centres spécialisés, dont deux étaient des références en matière de promotion de l'activité physique adaptée. De ce fait, la généralisation des résultats à l'ensemble des personnes francophones atteintes de mucoviscidose peut être limitée. En effet, les patients participant à ces deux études étaient familiarisés avec la promotion de l'activité physique, ce qui a pu avoir un impact sur leurs perceptions de l'activité physique. De la même manière, la généralisation à l'ensemble des structures spécialisées dans la mucoviscidose peut être restreinte. Notamment, les centres au sein desquels la capitalisation des expériences (étude 2) a été réalisée sont des

Discussion générale

centres où la promotion de l'activité physique occupe une place prépondérante. Ils bénéficient ainsi de ressources allouées supplémentaires, ainsi que d'un environnement favorable (i.e., grand parc, forêt et plage privée) difficilement transposables.

Une seconde limite réside dans le fait que ces études se sont appuyées sur des entretiens semi-directifs et des données auto-rapportées, y compris des informations sur les habitudes d'activité physique, sans mesurer objectivement le niveau d'activité physique. Par conséquent, il est possible que les participants aient délibérément ou involontairement déformé leurs réponses ou omis des informations (i.e., biais de désirabilité sociale, Philips & Clancy, 1972). En effet, la plupart des participants de l'étude 1 ont affirmé avoir un mode de vie actif, bien que des preuves de la littérature indiquent souvent que les personnes atteintes de mucoviscidose ne respectent pas les recommandations en matière d'activité physique (Cox et al., 2013 ; Selvadurai et al., 2004). Il se peut que les participants aient surestimé leur niveau d'activité physique, ou que ceux qui ont accepté de participer aux entretiens étaient plus actifs que les autres, ce qui pourrait constituer un biais de sélection. Une autre explication possible est le fait que les participants côtoyaient l'un des centres les plus avancés en termes de promotion de l'activité physique adaptée. Ce biais de désirabilité sociale se retrouve également au sein des études 3, 4 et 5 et dans les questionnaires à nature autodéclarée, pouvant aboutir à des minimisations de comportements indésirables, ou à des exagérations de comportements souhaitables, altérant alors la précision des données recueillies. Pour atténuer ces biais, les questionnaires MUCO_BDEX et MUCO_BDEX 11-17 ans utilisent des questions à réponses fermées. Si l'anonymat des réponses n'est pas possible dans le cadre de la passation de ces questionnaires, qui sont là à des fins d'amélioration de la prise en charge en activité physique, l'application MUCO_BALAD offre un cadre sécurisé et confidentiel pour remplir le questionnaire.

Les études 3, 4 et 5 ont comme limite d'être des outils validés uniquement en langue française, et ne pouvant donc être utilisés que par des personnes atteintes de mucoviscidose, des professionnels de santé et des chercheurs francophones. Tout d'abord, les biais culturels et linguistiques inhérents à la langue française peuvent influencer les réponses des participants, ce qui restreint la généralisation de l'outil à des populations d'autres cultures ou langues. Par conséquent, il est difficile d'appliquer les conclusions de ces instruments à des contextes internationaux ou multiculturels, ce qui limite leur portée. De plus, cette restriction linguistique exclut *de facto* les individus non francophones, réduisant ainsi l'utilité de ces outils dans d'autres nationalités. De même, la validation exclusive en langue française complique la comparaison directe avec des études menées dans d'autres pays ou utilisant des outils validés

Discussion générale

dans d'autres langues, limitant ainsi la recherche internationale. Enfin, cela peut entraîner un manque de diversité culturelle au sein des échantillons de recherche, ce qui nuit à la représentativité et à la validité des résultats. Pour surmonter ces limites, il est couramment recommandé de traduire et d'adapter l'outil dans d'autres langues, en suivant des procédures rigoureuses de validation transculturelle (Vallerand, 1989), afin de le rendre accessible à un public plus vaste et d'étendre son applicabilité à l'échelle internationale. Des études futures sur la validation en anglais de l'outil ou sa traduction dans d'autres langues seraient intéressantes pour internationaliser son utilisation et permettre des comparaisons entre les pays.

Une autre limite importante à souligner est relative à l'étude 4. Dans un premier temps, elle se limite à mesurer exclusivement l'acceptabilité de l'application MUCO_BALAD, et non son utilisabilité. L'acceptabilité se concentre sur les réactions subjectives des utilisateurs à l'égard de l'application, ce qui peut ne pas refléter fidèlement l'expérience réelle de son utilisation. Les perceptions positives de l'application ne garantissent pas nécessairement une expérience d'utilisation réussie (Marangunic & Granic, 2014). De plus, évaluer l'acceptabilité sans tester l'utilisabilité dans un environnement d'utilisation réelle peut ne pas refléter la réalité de l'interaction de l'utilisateur avec l'application. Les réactions des utilisateurs peuvent différer lorsqu'ils interagissent directement avec l'application. La convivialité est un aspect crucial, car elle détermine la facilité d'utilisation de l'application. Elle est souvent liée à l'engagement à long terme des utilisateurs. Une application difficile à utiliser peut entraîner un désengagement précoce, tandis qu'une application conviviale favorise un engagement durable, notamment dans l'atteinte d'objectifs de santé. Une autre limitation réside dans l'absence d'éléments rendant l'application MUCO_BALAD utilisable dans la vie quotidienne des personnes atteintes de mucoviscidose, et pas seulement lors des visites et des examens annuels. Une suggestion avancée par plusieurs professionnels et personnes atteintes de mucoviscidose consisterait à intégrer du contenu lié à l'activité physique (e.g., des tutoriels, des conseils, des exemples de séances), ainsi que des moyens d'échange d'informations avec les professionnels de la santé et les associations de patients spécialisées dans l'activité physique.

Enfin, une dernière limite commune à ces cinq études est l'arrivée récente d'un nouveau traitement, l'association Kaftrio®/Kalydeco®, accessible depuis 2019, avec des résultats qualifiés de révolutionnaires en raison de leur efficacité étendue et de son impact positif sur la santé et la qualité de vie des personnes atteintes de mucoviscidose, ouvrant de nouvelles perspectives de traitement pour de nombreuses personnes et devenant un espoir pour ceux qui

Discussion générale

vivent avec cette maladie génétique lourde de conséquences. Ce traitement touche un large éventail de mutations (i.e., plus de 82% des personnes atteintes de mucoviscidose, Heijerman et al., 2020), en apportant notamment des améliorations significatives de la fonction pulmonaire et une réduction des exacerbations pulmonaires réduisant le besoin d'hospitalisations fréquentes (Middleton et al., 2019), ou encore la diminution des complications digestives grâce à une amélioration de la fonction pancréatique et de la digestion des graisses (Mun et al., 2020). La qualité de vie de ces personnes s'en trouve nettement améliorée, avec moins de contraintes liées à la maladie et une meilleure capacité à mener une vie plus normale (Bierlaagh et al., 2021). Enfin, ce traitement est sûr et efficace pour une utilisation chez les enfants, dès l'âge de 6 ans, ouvrant ainsi la possibilité d'une utilisation précoce pour prévenir ou atténuer les complications de la mucoviscidose (Ratjen et al., 2021). En impactant positivement le quotidien des personnes atteintes de mucoviscidose, les barrières relatives à la pratique physique vont se trouver également modifiées.

Perspectives de recherche.

Ces différentes études peuvent aboutir à plusieurs perspectives de recherche importantes dans le domaine de la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose. Tout d'abord, l'étude 1 nous invite à réfléchir aux modèles explicatifs des perceptions et du comportement en activité physique chez cette population spécifique. Ces modèles pourraient offrir un cadre théorique pour comprendre les raisons sous-jacentes qui motivent ou entravent la participation à l'activité physique dans cette population. Ils engloberaient l'identification des facteurs de motivation à s'engager durablement dans une activité physique, la compréhension des barrières perçues à cet engagement dans la pratique physique, l'influence de l'environnement social (i.e., pairs, famille, professionnels de santé) et l'importance de l'accessibilité et de l'acceptabilité des activités physiques. Une fois ces facteurs mieux compris, il deviendra possible de concevoir des interventions ciblées visant à encourager l'activité physique. Cela rejoint nos résultats à l'étude 1, regroupés avec ceux de la littérature chez les enfants de 4 à 17 ans, classifiant les barrières et les facilitateurs à la pratique physique en trois sous-catégories en fonction de leur nature (tableau n°1).

Discussion générale

	Physiques	Psychologiques	Environnementales
Barrières et facilitateurs chez les enfants de 4 à 17 ans	Fluctuations de santé	Perceptions de l'activité physique : <i>Positives et négatives</i> Valeur attribuée à l'activité physique : <i>Forte ou faible</i> Sentiment de normalité Croyances en matière de contrôle de la maladie Stratégies d'adaptation	Influences sociales : <i>Rôle des parents, professionnels de santé et groupes d'amis</i> Priorités concurrentes Disponibilité des installations
Barrières chez les adultes	Bénéfices respiratoires Amélioration de la santé générale Préparation à la greffe	Perceptions positives de l'activité physique Amélioration de l'estime de soi et du sentiment d'accomplissement	Soutien social Disponibilité des infrastructures sportives
Facilitateurs chez les adultes	Fatigue Difficultés respiratoires	Perceptions négatives de l'activité physique Manque de motivation et/ou d'intérêt envers l'activité physique Manque de capacités physiques perçues	Priorités concurrentes Manque d'offres adaptées en activité physique Manque de soutien social

Tableau n°1 : Perceptions de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose (Denford et al., 2020 ; Ladune et al., 2021).

L'étude 2 pourrait être cruciale pour le développement de modèles de motivation adaptés aux personnes atteintes de mucoviscidose, pour comprendre les mécanismes sous-jacents qui influencent les motivations à agir d'une certaine manière. Ces modèles regrouperaient l'identification des sources de motivation spécifiques qui ont conduit certaines personnes atteintes de mucoviscidose à s'engager dans l'activité physique malgré les défis inhérents à leur état de santé, l'analyse des stratégies qui ont fonctionné pour maintenir la motivation à long terme, le rôle primordial du soutien social, l'importance des facteurs personnels et contextuels incluant les perceptions de la maladie, les objectifs personnels, les changements dans la gestion de la maladie, les transitions de soins, ou encore les variations de la condition physique.

Discussion générale

De même, sur la base de l'étude 2, le développement de stratégies de promotion de l'activité physique dans les centres de référence de la mucoviscidose moins avancés dans la promotion de l'activité physique pourrait être envisagé. Ces interventions pourraient grandement bénéficier de la mise en place d'un modèle socio-écologique. Au niveau individuel, des supports tels que des livrets, des sites web ou des applications smartphone pourraient être créés pour sensibiliser à l'importance de l'activité physique, en fournissant des informations spécifiques à la maladie, des recommandations claires sur la fréquence et le type d'exercices, ainsi qu'une cartographie des offres de pratique. Au niveau interpersonnel, la mise en place d'un réseau social et de discussions avec des "patients-experts" et des professionnels de santé permettrait de répondre aux besoins sociaux et communautaires, de discuter des barrières à la pratique physique tout en adoptant une prise en charge individualisée. Au niveau institutionnel, l'élaboration d'un programme détaillé de promotion de l'activité physique adaptée permettrait de guider la conception et la mise en place de projets et d'actions spécifiques. Enfin, au niveau politique et environnemental, une estimation des ressources humaines et financières nécessaires serait effectuée pour planifier de manière adéquate le développement de l'activité physique adaptée. En mettant en œuvre ce modèle, les centres moins avancés pourraient ainsi développer leurs stratégies de promotion de l'activité physique adaptée, améliorer la qualité de vie des personnes atteintes de mucoviscidose et contribuer à une meilleure gestion de cette maladie chronique. Adopter une approche socio-écologique qui met l'accent sur les environnements favorables dans la promotion de l'activité physique chez les individus atteints de mucoviscidose représente un domaine de recherche d'une importance majeure. Investiguer comment les centres spécialisés, notamment en s'intéressant à la disponibilité et à l'accessibilité des équipements sportifs, et autres caractéristiques environnementales susceptibles d'influencer la motivation des personnes atteintes de mucoviscidose sont des questions de recherche qui permettraient de fournir de nouvelles stratégies de promotion de l'activité physique adaptée. Il serait tout aussi essentiel d'analyser les facteurs sociaux et culturels qui influencent les choix en matière d'activité physique, notamment les normes sociales et les croyances au sein de cette population. Enfin, l'implication des patients dans le processus de recherche, en particulier dans la conception et l'évaluation des interventions de promotion de l'activité physique, pourrait garantir que ces programmes répondent véritablement à leurs besoins et reflètent leur expérience vécue.

Les études 3, 4 et 5 pourraient enrichir les travaux existants sur la balance décisionnelle et les perceptions en activité physique, présentant ainsi un intérêt crucial pour la gestion et l'amélioration de la santé et de la qualité de vie de cette population spécifique. Tout d'abord, il

Discussion générale

s'agit de domaines essentiels pour améliorer la gestion de la mucoviscidose et la qualité de vie des personnes touchées par cette maladie. L'adaptation de la pratique de l'activité physique en fonction des perceptions de l'activité physiques et des besoins individuels peut favoriser une meilleure adhésion aux programmes d'exercices, ce qui, à son tour, peut améliorer les résultats de santé. En outre, la prise en compte des antécédents physiologiques et psychosociaux dans l'évaluation de la balance décisionnelle permettrait de mieux comprendre les déterminants qui influencent les choix des personnes atteintes de mucoviscidose en matière d'activité physique. Les antécédents physiologiques, tels que la gravité de la mucoviscidose, la fonction pulmonaire, et la capacité d'exercice, peuvent jouer un rôle majeur dans la prise de décision de ces personnes. Les facteurs psychosociaux, notamment les croyances, la motivation, les attitudes et les influences sociales, sont également des éléments clés dans ce processus. Des études longitudinales seraient nécessaires pour examiner l'évolution de la balance décisionnelle au fil du temps et pour évaluer les conséquences de ces choix sur la santé des patients. En comprenant comment les décisions en matière d'activité physique évoluent en réponse à des facteurs physiologiques et psychosociaux changeants, il serait possible de développer des interventions plus efficaces pour soutenir les patients dans leur parcours de soins.

Perspectives cliniques.

Les résultats suggèrent d'ores et déjà des perspectives cliniques intéressantes qui pourront être développées pour encourager l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose. Les études 1 et 2 examinent les obstacles à la pratique physique, qu'il s'agisse de barrières physiques, psychologiques ou environnementales, mais également au sein de sa promotion elle-même dans les centres spécialisés. Comprendre ces obstacles est essentiel pour élaborer des stratégies efficaces de promotion de l'activité physique chez cette population. Elles soulignent également l'importance de la promotion de l'activité physique adaptée chez cette population à besoins spécifiques. Les résultats obtenus invitent à améliorer la promotion de l'activité physique en mettant l'accent sur la levée des barrières identifiées, tout en mettant en évidence le besoin d'évaluations objectives et de mesures de fiabilité accrues dans de futures recherches pour renforcer la crédibilité de ces résultats. Enfin, ces études peuvent contribuer à l'évaluation de la balance décisionnelle des personnes atteintes de mucoviscidose vis-à-vis de l'activité physique.

Discussion générale

De même, les résultats des études 1 et 2 suggèrent des perspectives cliniques intéressantes pour améliorer l'adhésion à l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, notamment en améliorant l'accessibilité aux installations sportives, en encourageant les programmes de préparation à la transplantation et en proposant des programmes personnalisés. Des lignes directrices spécifiques pourraient également être développées pour compléter les recommandations existantes pour les personnes atteintes de mucoviscidose et les membres de l'équipe de soins (Karila et al., 2010). Par exemple, pour faciliter l'engagement dans une activité physique durable, les activités devraient être proposées dans des installations adaptées et régulièrement désinfectées pour limiter le risque de contamination croisée. Elles doivent également être compatibles avec les contraintes de temps et d'organisation résultant des obligations professionnelles et familiales et prendre en compte les symptômes induits par la maladie (c'est-à-dire l'essoufflement et l'adaptation de l'intensité). Enfin, ces résultats pointent l'absence de document reprenant l'ensemble des barrières et des facilitateurs à la pratique physique spécifiques aux personnes atteintes de mucoviscidose. Ils mettent également en avant le manque de partage de connaissance sur les éléments clés de la promotion en activité physique dans ces centres spécialisés, expliquant en partie l'importante hétérogénéité qu'il existe dans les prises en charge dans ce domaine.

Les études 3, 4 et 5 ont permis de développer des outils utilisables par les professionnels de santé pour assurer la promotion de l'activité physique, tout en fournissant des pistes pour une prise en charge individualisée. Ils comblent un manque dans la littérature actuelle, et dans la liste des outils psychométriques validés par un protocole rigoureux (Boateng et al., 2018 ; Vallerand, 1989). Ces outils, et notamment l'adaptation numérique de la version adulte, vont permettre de toucher davantage cette population spécifique et ainsi mettre en lumière leurs barrières et facilitateurs liés à l'activité physique, ainsi que leur évolution dans le temps. L'ensemble de ces études pourrait contribuer à la création et au développement de nouvelles interventions visant à promouvoir l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, tout en mettant en avant les méthodes les plus efficaces pour encourager le changement de comportement. Afin de sensibiliser à l'importance d'adopter des comportements réguliers et inscrits sur le long terme en activité physique et proposer une prise en charge dès le plus jeune âge, il serait intéressant de développer une version adaptée aux enfants de 6 à 10 ans du MUCO_BDEX. Celle-ci prendrait en compte les spécificités de l'enfance des personnes atteintes de mucoviscidose, aussi bien dans sa forme que dans son contenu, en proposant des items adéquats et un format clair et succinct accompagné

Discussion générale

d'illustrations. Une version préliminaire, ayant obtenu des scores de clarté et de pertinence acceptables est présenté en annexe de ce document.

L'ensemble de ces cinq études permet d'aboutir à des recommandations en termes de promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée spécifiques aux personnes atteintes de mucoviscidose. Celles-ci regroupent les bénéfices liés à la pratique physique, les barrières et les facilitateurs à l'activité physique, les éléments clés de la promotion de l'activité physique avec des exemples d'actions inspirantes tirées de la capitalisation des expériences, et la présentation des outils développés dans le cadre de la mesure de la balance décisionnelle en activité physique. Un exemple de ces recommandations est présenté sous forme de livret en annexe de ce manuscrit. Cela rejoint également l'édition de la fiche de capitalisation, disponible en annexe, et disponible sur le portail de la capitalisation des expériences en promotion de la santé.

Conclusion.

Ce travail de thèse aura participé à l'identification des modalités de promotion de l'activité physique auprès des personnes atteintes de mucoviscidose, et à la conception d'outils pratiques visant à mesurer la balance décisionnelle en activité physique spécifiques à cette population. Il a abordé des questions cruciales liées à la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose. Les résultats obtenus ont permis de mettre en lumière les obstacles et les facilitateurs spécifiques à cette population vulnérable. Les outils développés, tels que le MUCO_BDEX et l'application MUCO_BALAD, offrent des moyens pratiques et personnalisés d'évaluer la motivation des individus envers l'activité physique, tout en prenant en compte les spécificités de la mucoviscidose.

Il ressort de cette recherche que la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose puisse bénéficier d'une approche multiniveaux, intégrant des interventions aux niveaux individuel, interpersonnel, organisationnel, environnemental et politique. Les collaborations entre professionnels de santé, enseignants en activités physiques adaptées, et la capitalisation d'expériences positives, ont le potentiel de motiver et soutenir les personnes atteintes de mucoviscidose dans leur engagement dans l'activité physique.

Enfin, les outils développés permettent une évaluation précise de la perception des freins et des leviers liés à la pratique physique, ce qui peut guider les interventions personnalisées pour améliorer la qualité de vie des personnes atteintes de mucoviscidose. Les applications numériques, en particulier, offrent des avantages significatifs en termes de collecte de données, de suivi et d'analyse.

Dans l'ensemble, cette thèse contribue à la compréhension des enjeux de la promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose, tout en fournissant des outils pratiques pour soutenir ces individus dans leur parcours vers une vie plus active et en meilleure santé. Elle ouvre la voie à de futures recherches et à des interventions plus ciblées visant à améliorer la qualité de vie de cette population.

Bibliographie

- An, H., Xie, B., Wu, D., & Liu, L. (2021). Efficacy of a mobile application-based transtheoretical model intervention on physical activity and healthy eating behaviors in individuals with autism spectrum disorder. *International Journal of Environmental Research and Public Health*, 18(8), 4223.
- Anderson, R. M., Funnell, M. M., Fitzgerald, J. T., & Marrero, D. G. (2000). The Diabetes Empowerment Scale : a measure of psychosocial self-efficacy. *Diabetes Care*, 23(6), 739-743. <https://doi.org/10.2337/diacare.23.6.739>
- Andrade LB, Britto RR, Lucena-Silva N. (2011). Effects of an exercise program in people with cystic fibrosis related to physical fitness, fatigue, and perceived dyspnea. *Physical Therapy*, 91(4), 510-516.
- Armitage, D., Marschke, M., & Plummer, R. (2008). Adaptive co-management and the paradox of learning. *Global Environmental Change*, 18(1), 86-98. <https://doi.org/10.1016/j.gloenvcha.2007.07.002>
- Baert, V., Gorus, E., Mets, T., Geerts, C., & Bautmans, I. (2011). Motivators and Barriers for Physical Activity in the Oldest Old : A Systematic review. *Ageing Research Reviews*, 10(4), 464-474. <https://doi.org/10.1016/j.arr.2011.04.001>
- Balicco, A., Oleko, A., Szego, E., Boschat, L., Deschamps, V., Saoudi, A., Zeghnoun, A., & Fillol, C. (2017). Protocole Esteban : une étude transversale de santé sur l'environnement, la biosurveillance, l'activité physique et la nutrition (2014–2016). *Toxicologie Analytique et Clinique*, 29(4), 517-537. <https://doi.org/10.1016/j.toxac.2017.06.003>
- Bandura, A. (2004). Health promotion by social cognitive means. *Health Education & Behavior*, 31(2), 143-164. <https://doi.org/10.1177/1090198104263660>
- Bandura, A., & Adams, N. E. (1977). Analysis of self-efficacy Theory of Behavioral Change. *Cognitive Therapy and Research*, 1(4), 287-310. <https://doi.org/10.1007/bf01663995>

Bibliographie

- Bauman, A., Reis, R. S., Sallis, J. F., Wells, J. C. K., Loos, R. J., & Martin, B. W. (2012). Correlates of physical activity : Why are some people physically active and others not ? *The Lancet*, 380(9838), 258-271. [https://doi.org/10.1016/s0140-6736\(12\)60735-1](https://doi.org/10.1016/s0140-6736(12)60735-1)
- Berkes, F., Folke, C., & Colding, J. (1998). Linking social and ecological systems : management practices and social mechanisms for building resilience. *Choice Reviews Online*, 36(01), 36-0288. <https://doi.org/10.5860/choice.36-0288>
- Bierlaagh, M., Muilwijk, D., Beekman, J. M., & Van Der Ent, C. K. (2021). A new era for people with cystic fibrosis. *European Journal of Pediatrics*, 180(9), 2731-2739. <https://doi.org/10.1007/s00431-021-04168-y>
- Boateng, G. O., Neilands, T. B., Frongillo, E. A., Melgar-Quiñónez, H., & Young, S. L. (2018). Best Practices for developing and Validating scales for health, Social, and Behavioral Research : A primer. *Frontiers in Public Health*, 6. <https://doi.org/10.3389/fpubh.2018.00149>
- Booth, S. L., Sallis, J. F., Ritenbaugh, C., Hill, J. O., Birch, L. L., Frank, L. D., Glanz, K., Himmelgreen, D., Mudd, M., Popkin, B. M., Rickard, K. A., St Jeor, S., & Hays, N. P. (2009). Environmental and societal factors affect food choice and physical activity : rationale, influences, and leverage points. *Nutrition Reviews*, 59(3), S21-S36. <https://doi.org/10.1111/j.1753-4887.2001.tb06983.x>
- Booth, A., Harris, J., Croot, E., Springett, J., Campbell, F., & Wilkins, E. (2013). Towards a methodology for cluster searching to provide conceptual and contextual “richness” for systematic reviews of complex interventions : Case Study (CLUSTER). *BMC Medical Research Methodology*, 13(1). <https://doi.org/10.1186/1471-2288-13-118>
- Bradley, J., & Moran, F. (2008). Physical training for cystic fibrosis. *Cochrane Database of Systematic Reviews*. <https://doi.org/10.1002/14651858.cd002768.pub2>
- Braun, V., & Clarke, V. (2014). What can “thematic analysis” offer health and wellbeing researchers ? *International Journal of Qualitative Studies on Health and Well-being*, 9(1), 26152. <https://doi.org/10.3402/qhw.v9.26152>
- Braveman, P., & Gottlieb, L. M. (2014). The social determinants of health : It’s time to consider the causes of the causes. *Public Health Reports*, 129(1_suppl2), 19-31. <https://doi.org/10.1177/00333549141291s206>
- Briggs, J., Garner, M., & Jennings, S. (2017). An introduction to the study of mixed ecological and social systems. *Annual Review of Resource Economics*, 9, 371-394.

Bibliographie

- Burgel, P., Bellis, G., & Elborn, J. (2017). Modelling Future trends in cystic Fibrosis demography using the French Cystic Fibrosis Registry : update and sensitivity analysis. *The European respiratory journal*, 50(2), 1700763. <https://doi.org/10.1183/13993003.00763-2017>
- Burkholder, G. J., & Nigg, C. (2002). Overview of the Transtheoretical Model, Promoting exercise and behavior change in older adults: Interventions with the transtheoretical model. In P. M. Burbank & D. Riebe, 57–84.
- Burnett, S., Preidt, M., FitzMaurice, T. S., Walshaw, M., & Nazareth, D. (2021). P094 Facilitating cystic fibrosis research during the COVID-19 pandemic. *Journal of Cystic Fibrosis*, 20, S68. [https://doi.org/10.1016/s1569-1993\(21\)01120-6](https://doi.org/10.1016/s1569-1993(21)01120-6)
- Cash, D. W., Adger, W. N., Berkes, F., Garden, P., Lebel, L., Olsson, P., Pritchard, L., & Young, O. (2006). Scale and Cross-Scale Dynamics: Governance and Information in a Multilevel World. *Ecology and Society*, 11(2). <http://www.jstor.org/stable/26265993>
- Chesbrough, H. W. (2003). *Open innovation : The New Imperative for Creating and Profiting from Technology*. Harvard Business Press.
- Collaco, J. M., Blackman, S. M., Raraigh, K. S., Morrow, C. B., Cutting, G. R., & Paranjape, S. (2014). Self-reported exercise and longitudinal outcomes in cystic fibrosis : a retrospective cohort study. *BMC Pulmonary Medicine*, 14(1). <https://doi.org/10.1186/1471-2466-14-159>
- Cox, N. S., Alison, J. A., Button, B., Wilson, J. W., Morton, J., & Holland, A. E. (2015a). Physical activity participation by adults with cystic fibrosis : an observational study. *Respirology*, 21(3), 511-518. <https://doi.org/10.1111/resp.12719>
- Cox, N. S., Alison, J. A., Button, B., Wilson, J. W., Morton, J., & Holland, A. E. (2015b). Physical activity participation by adults with cystic fibrosis : an observational study. *Respirology*, 21(3), 511-518. <https://doi.org/10.1111/resp.12719>
- Cox, N. S., Alison, J. A., Holland, A. E., & Schembri, R. (2013). Interventions for promoting physical activity in people with cystic fibrosis. *The Cochrane library*, 2022(5). <https://doi.org/10.1002/14651858.cd009448.pub2>
- Cox, N. S., Alison, J., & Holland, A. (2014). Interventions to promote physical activity in people with cystic fibrosis. *Paediatric Respiratory Reviews*, 15(3), 237-239. <https://doi.org/10.1016/j.prrv.2014.05.001>
- Cystic Fibrosis Trust (2013). Standards of care and good clinical practice for the physiotherapy management of cystic fibrosis. *The Cystic Fibrosis Trust*, 3.

Bibliographie

- Davenport, T. H., Davenport, P. D. O. M. I. S. O. M. T. H., & Prusak, L. (1998). *Working knowledge : How Organizations Manage what They Know*. Harvard Business Press.
- Davies, R. (2005). From seed crystal to iceberg?: Identifying the stages of community-based tourism development. *Tourism Recreation Research*, 30(3), 51-58.
- De Jong, W., Kaptein, A. A., Van Der Schans, C. P., Mannes, G. P. M., Van Aalderen, W. M. C., Grevink, R. G., & Koëter, G. H. (1997). Quality of life in patients with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, 23(2), 95-100. [https://doi.org/10.1002/\(sici\)1099-0496\(199702\)23:2](https://doi.org/10.1002/(sici)1099-0496(199702)23:2)
- Deci, E. L., & Ryan, R. M. (1985). The general causality orientations scale : self-determination in personality. *Journal of Research in Personality*, 19(2), 109-134. [https://doi.org/10.1016/0092-6566\(85\)90023-6](https://doi.org/10.1016/0092-6566(85)90023-6)
- Defeo, J. A., & Juran, J. M. (2010). *Juran's Quality Handbook : The Complete Guide to Performance Excellence 6/E*. McGraw Hill Professional.
- Denford, S., Hill, D. M., Mackintosh, K. A., McNarry, M. A., Barker, A. R., & Williams, C. A. (2019). Using photo-elicitation to explore perceptions of physical activity among young people with cystic fibrosis. *BMC Pulmonary Medicine*, 19(1). <https://doi.org/10.1186/s12890-019-0985-5>
- Denford, S., Mackintosh, K. A., McNarry, M. A., Barker, A. R., & Williams, C. A. (2019). Enhancing intrinsic motivation for physical activity among adolescents with cystic fibrosis : A Qualitative study of the views of Healthcare professionals. *BMJ Open*, 9(6), e028996. <https://doi.org/10.1136/bmjopen-2019-028996>
- Denford, S., Mackintosh, K. A., McNarry, M. A., Barker, A. R., & Williams, C. A. (2020). Promotion of physical activity for adolescents with cystic fibrosis : A Qualitative study of UK multi disciplinary cystic fibrosis teams. *Physiotherapy*, 106, 111-118. <https://doi.org/10.1016/j.physio.2019.01.012>
- Denford, S., Van Beurden, S. B., O'Halloran, P., & Williams, C. A. (2020). Barriers and facilitators to physical activity among children, adolescents, and young adults with cystic fibrosis : A systematic review and thematic synthesis of qualitative research. *BMJ Open*, 10(2), e035261. <https://doi.org/10.1136/bmjopen-2019-035261>
- Dillman, D. A., Smyth, J. D., & Christian, L. M. (2014). *Internet, phone, mail, and Mixed-Mode surveys : The Tailored Design Method*. John Wiley & Sons.

Bibliographie

- Donà, M., Tartali, C., Lanza, M., Perobelli, S., Zoico, E., Borruso, A., Zorzanello, A., Cornacchia, M., Assael, B., & Braggion, C. (2006). 375 Aerobic and strength training in patients with cystic fibrosis (CF) and severe airway obstruction. *Journal of Cystic Fibrosis*, 5, S83. [https://doi.org/10.1016/s1569-1993\(06\)80322-x](https://doi.org/10.1016/s1569-1993(06)80322-x)
- Dooris, M., Wills, J., & Newton, J. (2014). Theorizing Healthy Settings : A critical discussion with reference to healthy universities. *Scandinavian Journal of Public Health*, 42(15_suppl), 7-16. <https://doi.org/10.1177/1403494814544495>
- Edmondson, A. C., Bohmer, R. M., & Pisano, G. P. (2001a). Disrupted routines : team learning and new technology implementation in hospitals. *Administrative Science Quarterly*, 46(4), 685-716. <https://doi.org/10.2307/3094828>
- Edmondson, A. C., Bohmer, R. M., & Pisano, G. P. (2001b). Disrupted routines : team learning and new technology implementation in hospitals. *Administrative Science Quarterly*, 46(4), 685-716. <https://doi.org/10.2307/3094828>
- Eeckhout, C., Francaux, M., Heeren, A., & Philippot, P. (2013). Mesure de la balance décisionnelle en vue de pratiquer une activité physique régulière (BDAP) : adaptation et validation francophone de l'échelle decisional Balance for exercise. *Revue Européenne de Psychologie Appliquée*, 63(3), 185-191. <https://doi.org/10.1016/j.erap.2013.01.001>
- Fereday, J., MacDougall, C., Spizzo, M., Darbyshire, P., & Schiller, W. (2009). « There's nothing I can't do – I just put my mind to anything and I can do it » : A qualitative analysis of how children with chronic disease and their parents account for and manage physical activity. *BMC Pediatrics*, 9(1). <https://doi.org/10.1186/1471-2431-9-1>
- Filleul, V., Ladune, R., Gruet, M., Falzon, C., Fuchs, A., Mély, L., Hayotte, M., Vallier, J., Giovannetti, P., Ramel, S., Vuillemin, A., Corrion, K., & d'Arripe-Longueville, F. (2021). Development and validation of the Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity Scale (CF-DB-PA). *BMC Pulmonary Medicine*, 21(1). <https://doi.org/10.1186/s12890-021-01471-0>
- Fogarty, A., Britton, J., Clayton, A., & Smyth, A. (2012). Are measures of body habitus associated with mortality in cystic fibrosis ? *Chest*, 142(3), 712-717. <https://doi.org/10.1378/chest.11-2124>
- Gal, C. L., Vandervelde, L., Poncin, W., & Reychler, G. (2016). Impact de l'exercice physique chez les patients atteints de mucoviscidose : revue systématique. *Revue des Maladies Respiratoires*. <https://doi.org/10.1016/j.rmr.2015.08.006>

Bibliographie

- Garcia, J. L., Mendoza, R. M., & Tomás, A. V. (2006). The system of lessons learned on public works in Catalonia, Spain: Concept and experience. *Project Management Journal*, 37(1), 98-111.
- Gennari, C., & Fuchs, A. (2016). P15 – Sport et mucoviscidose. La place de l'activité physique dans la prise en charge des patients. *Kinésithérapie, la Revue*, 16(170), 36. <https://doi.org/10.1016/j.kine.2015.11.053>
- Glanz, K., Rimer, B. K., & Viswanath, K. (2008). Theory, research, and practice in health behavior and health education. In K. Glanz, B. K. Rimer, & K. Viswanath (Eds.), *Health behavior and health education: Theory, research, and practice* (23–40). Jossey-Bass.
- Golden, S. D., McLeroy, K. R., Green, L. W., Earp, J. A., & Lieberman, L. D. (2015). Upending the social ecological model to guide health promotion efforts toward policy and environmental change. *Health Education & Behavior*, 42(1_suppl), 8S-14S. <https://doi.org/10.1177/1090198115575098>
- Gray, L., Schuft, L., Bergamaschi, A., Filleul, V., Colson, S. S., & d'Arripe-Longueville, F. (2019). Perceived barriers to and facilitators of physical activity in people living with HIV : a qualitative study in a French sample. *Chronic Illness*, 17(2), 111-128. <https://doi.org/10.1177/1742395319826638>
- Gruber, W., Orenstein, D. M., Braumann, K., & Beneke, R. (2014). Interval exercise training in cystic fibrosis — Effects on exercise capacity in severely affected adults. *Journal of Cystic Fibrosis*, 13(1), 86-91. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2013.06.005>
- Gruet, M., Brisswalter, J., Vallier, C., Mély, L., & Vallier, J. (2013). Stratégies d'amélioration de la performance physique chez le patient atteint de mucoviscidose. *Science & Sports*, 28(3), 115-124. <https://doi.org/10.1016/j.scispo.2012.02.008>
- Gruet, M., Decorte, N., Mély, L., Vallier, J., Camara, B., Quétant, S., Wuyam, B., & Vergès, S. (2016). Skeletal muscle contractility and fatigability in adults with cystic fibrosis. *Journal of Cystic Fibrosis*, 15(1), e1-e8. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2015.05.004>
- Gruet, M., Mély, L., & Vallier, J. (2018). Overall and differentiated sensory responses to cardiopulmonary exercise test in patients with cystic fibrosis : kinetics and ability to predict peak oxygen uptake. *European Journal of Applied Physiology*, 118(9), 2007-2019. <https://doi.org/10.1007/s00421-018-3923-y>
- Gruet, M., Saynor, Z. L., Urquhart, D. S., & Radtke, T. (2022). Rethinking physical exercise training in the modern era of cystic fibrosis : a step towards optimising short-term

Bibliographie

- efficacy and long-term engagement. *Journal of Cystic Fibrosis*, 21(2), e83-e98. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2021.08.004>
- Gwaltney, C. J., Shields, A. L., & Shiffman, S. (2008). Equivalence of Electronic and Paper-and-Pencil Administration of Patient-Reported Outcome Measures : A Meta-Analytic Review. *Value in Health*, 11(2), 322-333. <https://doi.org/10.1111/j.1524-4733.2007.00231.x>
- Happ, M. B., Hoffman, L. A., Higgins, L. W., Divirgilio, D., & Orenstein, D. M. (2013). Parent and child perceptions of a Self-Regulated, Home-Based exercise Program for children with cystic fibrosis. *Nursing Research*, 62(5), 305-314. <https://doi.org/10.1097/nnr.0b013e3182a03503>
- Hayotte, M., Nègre, V., Gray, L., Sadoul, J., & d'Arripe-Longueville, F. (2019). The Transtheoretical Model (TTM) to Gain Insight into young women's long-term physical activity after bariatric surgery : A Qualitative study. *Obesity Surgery*, 30(2), 595-602. <https://doi.org/10.1007/s11695-019-04220-9>
- Hebestreit, H., Kieser, S., Junge, S., Ballmann, M., Hebestreit, A., Schindler, C., Schenk, T., Posselt, H., & Kriemler, S. (2009). Long-term effects of a partially supervised conditioning programme in cystic fibrosis. *The European respiratory journal*, 35(3), 578-583. <https://doi.org/10.1183/09031936.00062409>
- Hebestreit, H., Kriemler, S., & Radtke, T. (2015). Exercise for all cystic fibrosis patients. *Current Opinion in Pulmonary Medicine*, 21(6), 591-595. <https://doi.org/10.1097/mcp.0000000000000214>
- Heijerman, H. G. M., McKone, E. F., Downey, D. G., et al. (2020). Efficacy of the cystic fibrosis transmembrane conductance regulator potentiator ivacaftor in patients with cystic fibrosis who have a non-G551D gating mutation: A randomised controlled trial. *New England Journal of Medicine*, 363(21), 2021-2031.
- Hulzebos, E. H., Bomhof-Roordink, H., Van De Weert-Van Leeuwen, P. B., Twisk, J. W. R., Arets, H. G., Van Der Ent, C. K., & Takken, T. (2014). Prediction of mortality in adolescents with cystic fibrosis. *Medicine and Science in Sports and Exercise*, 46(11), 2047-2052. <https://doi.org/10.1249/mss.0000000000000344>
- Hurley, N., Moyna, N. M., Furlong, B., McCaffrey, N., Redmond, K., & Hardcastle, S. J. (2021). Factors influencing physical activity in adults with cystic fibrosis. *BMC Pulmonary Medicine*, 21(1). <https://doi.org/10.1186/s12890-021-01482-x>
- Janis, I. L., & Mann, L. (1977). Decision making: A psychological analysis of conflict, choice, and commitment. *Free Press*. <https://psycnet.apa.org/record/1978-00284-000>

Bibliographie

- Jantzen, A., Opoku-Pare, M., Bieli, C., Ruf, K., Hebestreit, H., & Moeller, A. (2016). Perspective on cystic fibrosis and physical activity : Is there a difference compared to healthy individuals ? *Pediatric Pulmonology*, *51*(10), 1020-1030. <https://doi.org/10.1002/ppul.23532>
- Karila, C., Ravilly, S., Gauthier, R., Tardif, C., Neveu, H., Maire, J., Ramel, S., Cracowski, C., Legallais, P., Fouré, H., Halm, A., Saugier, J., Bordas, G., Loire, N., Kirszenbaum, M., Dassonville, J., Mély, L., Wuyam, B., Giovannetti, P., . . . Denjean, A. (2010). Activité physique et réentraînement à l'effort du patient atteint de mucoviscidose. *Revue des Maladies Respiratoires*, *27*(4), 301-313. <https://doi.org/10.1016/j.rmr.2010.02.012>
- Klijn, P., Oudshoorn, A., Van Der Ent, C. K., Van Der Net, J., Kimpen, J. L. L., & Helders, P. J. M. (2004). Effects of anaerobic training in children with cystic fibrosis. *Chest*, *125*(4), 1299-1305. <https://doi.org/10.1378/chest.125.4.1299>
- Knox, L., Gemine, R., Rees, S., Bowen, S., Groom, P., Taylor, D. G., Bond, I. A., Rosser, W., & Lewis, K. (2020). Using the Technology Acceptance Model to conceptualise experiences of the usability and acceptability of a self-management app (COPD.Pal®) for chronic obstructive pulmonary disease. *Health and Technology*, *11*(1), 111-117. <https://doi.org/10.1007/s12553-020-00494-7>
- Kriemler, S., Kieser, S., Junge, S., Ballmann, M., Hebestreit, A., Schindler, C., Stüssi, C., & Hebestreit, H. (2013). Effect of supervised training on FEV1 in cystic fibrosis : a randomised controlled trial. *Journal of Cystic Fibrosis*, *12*(6), 714-720. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2013.03.003>
- Ladune, R., Filleul, V., Falzon, C., Hayotte, M., Mély, L., Vallier, J., Gruet, M., Vuillemin, A., & d'Arripe-Longueville, F. (2021). Perceptions of barriers to and facilitators of physical activity in adults with cystic fibrosis. *Physiotherapy Theory and Practice*, *39*(1), 117-127. <https://doi.org/10.1080/09593985.2021.2005201>
- Lewis, R. D., & Cramp, F. (2010). Facilitators and Barriers to exercise maintenance in Chronic Obstructive Pulmonary Disease : Patient views. *Physiotherapy Practice and Research*, *31*(2), 19-24. <https://doi.org/10.3233/ppr-2010-31205>
- MacKenzie, T. A., Gifford, A. H., Sabadosa, K. A., Quinton, H. B., Knapp, E. A., Goss, C. H., & Marshall, B. C. (2014). Longevity of patients with cystic fibrosis in 2000 to 2010 and beyond : Survival Analysis of the Cystic Fibrosis Foundation Patient Registry. *Annals of Internal Medicine*, *161*(4), 233. <https://doi.org/10.7326/m13-0636>
- Mancuso, C. A., Sayles, W., Robbins, L. P., Phillips, E., Ravenell, K. L., Duffy, C., Wenderoth, S., & Charlson, M. E. (2006). Barriers and facilitators to healthy physical activity in

Bibliographie

- asthma patients. *Journal of Asthma*, 43(2), 137-143. <https://doi.org/10.1080/02770900500498584>
- Marangunić, N., & Granić, A. (2014). Technology Acceptance Model : A literature review from 1986 to 2013. *Universal Access in The Information Society*, 14(1), 81-95. <https://doi.org/10.1007/s10209-014-0348-1>
- Marcus, B. H., Rakowski, W., & Rossi, J. S. (1992). Assessing motivational readiness and decision making for exercise. *Health Psychology*, 11(4), 257-261. <https://doi.org/10.1037/0278-6133.11.4.257>
- Markowski, M., Bower, H., Essex, R., & Yearley, C. (2021). Peer learning and Collaborative placement models in Health care : A systematic review and qualitative synthesis of the literature. *Journal of Clinical Nursing*, 30(11-12), 1519-1541. <https://doi.org/10.1111/jocn.15661>
- McLeroy, K. R., Bibeau, D. L., Steckler, A., & Glanz, K. (1988). An Ecological Perspective on Health Promotion Programs. *Health education quarterly*, 15(4), 351-377. <https://doi.org/10.1177/109019818801500401>
- Middleton, P. G., Mall, M., Dřevínek, P., Lands, L. C., McKone, E. F., Polineni, D., Ramsey, B. W., Taylor-Cousar, J. L., Tullis, E., Vermeulen, F., Marigowda, G., McKee, C. M., Moskowitz, S. M., Nair, N., Savage, J. R. K., Simard, C., Tian, S., Waltz, D. A., Xuan, F., . . . Jain, R. (2019). Elexacaftor–Tezacaftor–Ivacaftor for cystic fibrosis with a single PHE508Del Allele. *The New England Journal of Medicine*, 381(19), 1809-1819. <https://doi.org/10.1056/nejmoa1908639>
- Miles, M. B., & Huberman, A. M. (1994). *Qualitative data analysis : An Expanded Sourcebook*. SAGE.
- Milner, L. B., & Decker, J. W. (2018). Overcoming barriers to physical activity in children with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, 53(2), 123-133.
- Moola, F., Faulkner, G., Kirsh, J. A., & Schneiderman, J. E. (2011). Developing physical activity interventions for youth with cystic fibrosis and congenital heart disease : learning from their parents. *Psychology of Sport and Exercise*, 12(6), 599-608. <https://doi.org/10.1016/j.psychsport.2011.07.001>
- Moola, F., Faulkner, G., & Schneiderman, J. E. (2012). « No Time to Play » : Perceptions toward physical activity in youth with cystic fibrosis. *Adapted Physical Activity Quarterly*, 29(1), 44-62. <https://doi.org/10.1123/apaq.29.1.44>
- Mun, S., Wieghard, N., Elens, I., et al. (2020). Improved glucose metabolism in CF patients treated with ivacaftor. *Gastroenterology*, 158(7), 1989-1998.

Bibliographie

- Nixon, P. A., Orenstein, D. M., Kelsey, S. F., & Doershuk, C. F. (1992). The prognostic value of exercise testing in patients with cystic fibrosis. *The New England Journal of Medicine*, 327(25), 1785-1788. <https://doi.org/10.1056/nejm199212173272504>
- Orava, C., Fitzgerald, J., Figliomeni, S., Lam, D., Naccarato, A., Szego, E., Yoshida, K., Fox, P., Sykes, J., & Wu, K. K. (2018). Relationship between physical activity and fatigue in adults with cystic fibrosis. *Physiotherapy Canada*, 70(1), 42-48. <https://doi.org/10.3138/ptc.2016-75>
- Orenstein, D. M., Winnie, G. B., & Altman, H. (2010). Cystic fibrosis: A model for collaboration between pulmonologists and exercise professionals. *Chest*, 138(3), 542-547.
- Orenstein, D. M., Nixon, P. A., Ross, E. A., & Kaplan, R. M. (1989). The quality of well-being in cystic fibrosis. *Chest*, 95(2), 344-347. <https://doi.org/10.1378/chest.95.2.344>
- Patton, M. Q. (1990). *Qualitative evaluation and research methods*. SAGE Publications, Incorporated.
- Phillips, D. L., & Clancy, K. J. (1972). Some effects of « Social desirability » in survey studies. *American Journal of Sociology*, 77(5), 921-940. <https://doi.org/10.1086/225231>
- Piggin, J. (2020). What is physical activity ? a holistic definition for teachers, researchers and policy makers. *Frontiers in sports and active living*, 2. <https://doi.org/10.3389/fspor.2020.00072>
- Prasad, S. A., & Cerny, F. J. (2002). Factors that influence adherence to exercise and their effectiveness : application to cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, 34(1), 66-72. <https://doi.org/10.1002/ppul.10126>
- Pratt, M., Macera, C. A., Sallis, J. F., O'Donnell, M. P., & Frank, L. D. (2004). Economic interventions to promote physical activity. *American Journal of Preventive Medicine*, 27(3), 136-145. <https://doi.org/10.1016/j.amepre.2004.06.015>
- Pratt, M., Perez, L. G., Goenka, S., Brownson, R. C., Bauman, A., Sarmiento, O. L., & Hallal, P. C. (2015). Can population levels of physical activity be increased ? Global evidence and experience. *Progress in Cardiovascular Diseases*, 57(4), 356-367. <https://doi.org/10.1016/j.pcad.2014.09.002>
- Pratt, M., Sarmiento, O. L., Montes, F., Ogilvie, D., Marcus, B. H., Perez, L. G., & Brownson, R. C. (2012). The implications of megatrends in information and communication technology and transportation for changes in global physical activity. *The Lancet*, 380(9838), 282-293. [https://doi.org/10.1016/s0140-6736\(12\)60736-3](https://doi.org/10.1016/s0140-6736(12)60736-3)

Bibliographie

- Pretty, J., & Smith, D. J. (2004). Social capital in biodiversity conservation and management. *Conservation Biology*, 18(3), 631-638. <https://doi.org/10.1111/j.1523-1739.2004.00126.x>
- Prochaska, J. O., & DiClemente, C. C. (1983). Stages and Processes of Self-change of Smoking : Toward an Integrative Model of Change. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 51(3), 390-395. <https://doi.org/10.1037/0022-006x.51.3.390>
- Radel, R., Sarrazin, P., Legrain, P., & Wild, T. C. (2010). Social contagion of motivation between teacher and student : Analyzing underlying processes. *Journal of Educational Psychology*, 102(3), 577-587. <https://doi.org/10.1037/a0019051>
- Radtke, T., Nolan, S. J., Hebestreit, H., & Kriemler, S. (2017). Physical exercise training for cystic fibrosis. *The Cochrane library*, 2017(11). <https://doi.org/10.1002/14651858.cd002768.pub4>
- Radtke T, Hebestreit H, Puhan MA, Kriemler S. (2013). The 6-minute walk test in cystic fibrosis: comparison of maximal walking distance, oxygen saturation, and dyspnea during and after the test. *Chest*, 143(4), 1050-1057.
- Rand, S., Hill, L., & Prasad, S. A. (2013). Physiotherapy in Cystic Fibrosis : Optimising techniques to improve outcomes. *Paediatric Respiratory Reviews*, 14(4), 263-269. <https://doi.org/10.1016/j.prrv.2012.08.006>
- Ratjen, F., Hug, C., Marigowda, G., Tian, S., Huang, X., Stanojevic, S., Milla, C., Robinson, P. D., Waltz, D. A., Davies, J. C., Rosenfeld, M., Starner, T. D., Retsch-Bogart, G., Chmiel, J. F., Orenstein, D. M., Milla, C., Rubenstein, R. C., Walker, S., Cornell, A., . . . Hjelte, L. (2017). Efficacy and safety of Lumacaftor and Ivacaftor in patients aged 6–11 years with cystic fibrosis homozygous for F508DEL-CFTR : a randomised, placebo-controlled phase 3 trial. *The Lancet Respiratory Medicine*, 5(7), 557-567. [https://doi.org/10.1016/s2213-2600\(17\)30215-1](https://doi.org/10.1016/s2213-2600(17)30215-1)
- Reason, J. (2000). Human Error : models and management. *BMJ*, 320(7237), 768-770. <https://doi.org/10.1136/bmj.320.7237.768>
- Reychler, G., Leonard, A., Van Ossel, C., Godding, V., Gigi, J., Simon, A., & Lebecque, P. (2009). Impact of hypochlorite-based disinfection on bacterial contamination of cystic fibrosis patients' home-nebulisers. *Journal of Hospital Infection*, 72(4), 351-357. <https://doi.org/10.1016/j.jhin.2009.05.011>
- Rifkin, S. B. (2009). Lessons from community participation in health programmes : A review of the post Alma-Ata experience. *International Health*, 1(1), 31-36. <https://doi.org/10.1016/j.inhe.2009.02.001>

Bibliographie

- Riquier, O., Van Hoye, A., & Vuillemin, A. (2023). Capitalization of experience of Physical Activity Resumption Programs : Lessons learned for adherence and post-program referral. *Evaluation and Program Planning, 100*, 102349. <https://doi.org/10.1016/j.evalprogplan.2023.102349>
- Rosenstock, I. M. (1974). The health belief model and Preventive health behavior. *Health education monographs, 2*(4), 354-386. <https://doi.org/10.1177/109019817400200405>
- Rothman, K. J., Greenland, S., & Lash, T. L. (2008). *Modern epidemiology*. Lippincott Williams & Wilkins.
- Ryan, R. M., & Deci, E. L. (2000). Intrinsic and Extrinsic Motivations : classic definitions and new directions. *Contemporary Educational Psychology, 25*(1), 54-67. <https://doi.org/10.1006/ceps.1999.1020>
- Saffari, M., Ghanizadeh, G., Koenig, H. G., & Pakpour, A. H. (2020). Health-promoting lifestyle interventions for chronic diseases: A systematic review and meta-analysis. *American Journal of Health Promotion, 34*(8), 885-897.
- Salim, H., Cheong, A. T., Sazlina, S., Lee, P. Y., Lim, P. Y., Khoo, E. M., Hussein, N., Harrun, N. H., Ho, B. K., & Pinnock, H. (2023). A Self-management app to improve asthma control in adults with limited health literacy : A mixed-method Feasibility study. *BMC Medical Informatics and Decision Making, 23*(1). <https://doi.org/10.1186/s12911-023-02300-6>
- Sallis, J. F., Owen, N., & Fisher, E. B. (2008). Ecological models of health behavior. In K. Glanz, B. K. Rimer, & K. Viswanath (Eds.), *Health behavior and health education: Theory, research, and practice* (4th ed., pp. 465-486). Jossey-Bass.
- Sandelowski, M. (1993). Theory Unmasked : The uses and Guises of Theory in Qualitative research. *Research in Nursing & Health, 16*(3), 213-218. <https://doi.org/10.1002/nur.4770160308>
- Satge, J., Grémeaux, V., Guiraud, T., Granger, R., Pathak, A., & Labrunée, M. (2013). Comment optimiser l'alliance thérapeutique autour de l'activité physique dans les maladies cardiovasculaires ? *La Lettre De Médecine Physique Et De Réadaptation*. <https://doi.org/10.1007/s11659-013-0362-3>
- Savage, E., Beirne, P. V., Chróinín, M. N., Duff, A., Fitzgerald, T., & Farrell, D. (2011). Self-management education for cystic fibrosis. *Cochrane Database of Systematic Reviews*. <https://doi.org/10.1002/14651858.cd007641.pub2>

Bibliographie

- Sawyer, S. M., et al. (2011). The relationship between health-related quality of life and adherence to the medical regimen in adolescents with cystic fibrosis. *Quality of Life Research*, 20(6), 939-945.
- Saynor, Z. L., Cunningham, S., Morrison, L., Main, E., Vogiatzis, I., Reid, S., & Urquhart, D. (2022). Exercise as airway Clearance therapy (EXACT) in cystic fibrosis : A UK-based e-Delphi survey of patients, caregivers and health professionals. *Thorax*, 78(1), 88-91. <https://doi.org/10.1136/thorax-2022-219213>
- Schmidt, A., Jacobsen, U. L., Bregnballe, V., Olesen, H. V., Ingemann-Hansen, T., Thastum, M., & Schiøtz, P. O. (2011). Exercise and quality of life in patients with cystic fibrosis : a 12-week intervention study. *Physiotherapy Theory and Practice*, 27(8), 548-556. <https://doi.org/10.3109/09593985.2010.545102>
- Schneiderman, J. E., Wilkes, D. L., Atenafu, E. G., Nguyen, T. H., Wells, G. D., Alarie, N., Tullis, E., Lands, L. C., Coates, A. L., Corey, M., & Ratjen, F. (2013). Longitudinal relationship between physical activity and lung health in patients with cystic fibrosis. *The European respiratory journal*, 43(3), 817-823. <https://doi.org/10.1183/09031936.00055513>
- Schwandt, T. A. (2000). Three epistemological stances for qualitative inquiry: Interpretivism, hermeneutics, and social constructionism. In *Handbook of qualitative research*, Vol 2 189-213.
- Scriven, A., & Garman, S. (2007). *Public health : Social Context and Action*. McGraw-Hill Education (UK).
- Selvadurai, H., Blimkie, C. J., Cooper, P., Mellis, C., & Van Asperen, P. P. (2004). Gender differences in habitual activity in children with cystic fibrosis. *Archives of Disease in Childhood*, 89(10), 928-933. <https://doi.org/10.1136/adc.2003.034249>
- Selvadurai, H., Blimkie, C. J., Meyers, N., Mellis, C., Cooper, P., & Van Asperen, P. P. (2002). Randomized controlled study of in-hospital exercise training programs in children with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, 33(3), 194-200. <https://doi.org/10.1002/ppul.10015>
- Shelley, J., Fairclough, S. J., Knowles, Z., Southern, K. W., McCormack, P., Dawson, E. A., Graves, L. E. F., & Hanlon, C. (2018). A formative study exploring perceptions of physical activity and physical activity monitoring among children and young people with cystic fibrosis and health care professionals. *BMC Pediatrics*, 18(1). <https://doi.org/10.1186/s12887-018-1301-x>

Bibliographie

- Simmonds, N. J. (2013). Ageing in cystic fibrosis and long-term survival. *Paediatric Respiratory Reviews*, *14*, 6-9. <https://doi.org/10.1016/j.prrv.2013.01.007>
- Simmonds, N. J., Cullinan, P., & Hodson, M. E. (2009). Growing old with cystic fibrosis – The characteristics of long-term survivors of cystic fibrosis. *Respiratory Medicine*, *103*(4), 629-635. <https://doi.org/10.1016/j.rmed.2008.10.011>
- Smith, B., & McGannon, K. R. (2017). Developing rigor in qualitative research : Problems and opportunities within sport and exercise psychology. *International Review of Sport and Exercise Psychology*, *11*(1), 101-121. <https://doi.org/10.1080/1750984x.2017.1317357>
- Stokols, D. (1992). Establishing and maintaining healthy environments : toward a social ecology of health promotion. *American Psychologist*, *47*(1), 6-22. <https://doi.org/10.1037/0003-066x.47.1.6>
- Strauss, G. D., Osher, A. B., Wang, C. I., Goodrich, E. J., Gold, F., Colman, W., Stabile, M. W., Dobrenchuk, A., & Keens, T. G. (1987). Variable weight training in cystic fibrosis. *Chest*, *92*(2), 273-276. <https://doi.org/10.1378/chest.92.2.273>
- Swinburn, B., Sacks, G., Hall, K. D., McPherson, K., Finegood, D. T., Moodie, M., & Gortmaker, S. L. (2011). The global obesity pandemic : shaped by global drivers and local environments. *The Lancet*, *378*(9793), 804-814. [https://doi.org/10.1016/s0140-6736\(11\)60813-1](https://doi.org/10.1016/s0140-6736(11)60813-1)
- Swisher, A. K., & Erickson, M. (2008). Perceptions of physical activity in a group of adolescents with cystic fibrosis. *Cardiopulmonary physical therapy journal*, *19*(4), 107-114. <https://doi.org/10.1097/01823246-200819040-00002>
- Tomlinson, O. W., Shelley, J., Denford, S., Barker, A. R., Oades, P., & Williams, C. A. (2018). Promotion of Exercise in the management of Cystic Fibrosis - Summary of national meetings. *European Journal for Person Centered Healthcare*, *6*(2), 196. <https://doi.org/10.5750/ejpch.v6i2.1430>
- Turchetta, A., Salerno, T., Lucidi, V., Libera, F., Cutrera, R., & Bush, A. (2004). Usefulness of a program of hospital-supervised physical training in patients with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, *38*(2), 115-118. <https://doi.org/10.1002/ppul.20073>
- Urquhart, D., Sell, Z., Dhouieb, E., Bell, G., Oliver, S., Black, R. A., & Tallis, M. (2012). Effects of a supervised, outpatient exercise and physiotherapy programme in children with cystic fibrosis. *Pediatric Pulmonology*, *47*(12), 1235-1241. <https://doi.org/10.1002/ppul.22587>

Bibliographie

- Vallerand, R. J. (1989). Vers une méthodologie de validation transculturelle de questionnaires psychologiques : Implications pour la recherche en langue française. *Can Psychol*, 30(4), 662–680.
- Van Hoya, A., Johnson, S., Geidne, S., Donaldson, A., Rostan, F., Lemonnier, F., & Vuillemin, A. (2020). The Health Promoting Sports Club Model : An Intervention Planning Framework. *Health Promotion International*, 36(3), 811-823. <https://doi.org/10.1093/heapro/daaa093>
- Venkatesh, V., Thong, J. Y., & Xu, X. (2012). Consumer Acceptance and use of Information technology : Extending the unified theory of acceptance and use of technology. *Management Information Systems Quarterly*, 36(1), 157. <https://doi.org/10.2307/41410412>
- Wang, L., Wang, H., Zhang, Y., & Xu, M. (2019). The role of social capital and self-efficacy in managing type 2 diabetes: A structural equation model. *PLoS ONE*, 14(8), e0220714.
- White, D., Stiller, K., & Haensel, N. (2007). Adherence of adult cystic fibrosis patients with airway clearance and exercise regimens. *Journal of Cystic Fibrosis*, 6(3), 163-170. <https://doi.org/10.1016/j.jcf.2006.06.006>
- Whittemore, R., Chase, S. K., & Mandle, C. L. (2001). Validity in qualitative research. *Qualitative Health Research*, 11(4), 522-537. <https://doi.org/10.1177/104973201129119299>
- Wietlisbach, M., Benden, C., Koutsokera, A., Jahn, K., Soccal, P. M., & Radtke, T. (2020). Perceptions towards physical activity in adult lung transplant recipients with cystic fibrosis. *PLOS ONE*, 15(2), e0229296. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0229296>

Annexes

- Annexe 1** Autorisations éthiques
- Étude 1 et 3
 - Étude 2
 - Étude 4
 - Étude 5
- Annexe 2** Fiche de capitalisation de l'expérience de promotion de l'activité physique adaptée au sein des centres de ressources et de compétences de la mucoviscidose de Giens
- Annexe 3** Questionnaires utilisés lors de l'étude 3 :
- Mesure du niveau en activité physique : questionnaire de Baecke (*Baecke et al., 1982*)
 - Mesure de la qualité de vie : questionnaire CFQ14+ (*Henry et al., 2003*)
- Annexe 4** Questionnaire MUCO_BDEX validé
- Annexe 5** Questionnaires utilisés lors de l'étude 4 :
- Mesure de l'acceptabilité : questionnaire de l'Unified Theory of Acceptance and Use of Technology (UTAUT2) (*Venkatesh et al., 2003*)
 - Mesure de l'anxiété technologique : questionnaire Computer Anxiety Trait Subscale (CATS), items portant sur l'anxiété technologique (*Gaudron & Vignoli, 2002*)
- Annexe 6** Questionnaires utilisés lors de l'étude 5 :
- Mesure du niveau en activité physique : questionnaires sur l'activité physique de l'Étude de Santé sur l'Environnement, la Biosurveillance, l'Activité Physique et la Nutrition (ESTEBAN, *Balicco et al., 2017*)
 - Mesure de la qualité de vie : questionnaire CFQ-R enfant, questionnaire CFQ-R 14 ans et plus (*Henry et al., 2003*)
- Annexe 7** Développement de l'outil de mesure de la balance décisionnelle en activité physique pour les enfants de 6 à 10 ans atteints de mucoviscidose : version préliminaire après passation des tests de clarté et de pertinence
- Annexe 8** Livret de promotion de l'activité physique adaptée

Annexe 1. Autorisations éthiques

Étude 1 et 3 :



Université Nice Sophia Antipolis
BP 2135 - 28, avenue de Valrose - 06103
NICE CEDEX 2
<http://www.unice.fr>

T 39-2017

Récépissé d'enregistrement du traitement dans le registre du CIL

Selon l'Article 22 III de la loi du 6 janvier 1978 modifiée, la désignation d'un correspondant informatique et libertés, ou «CIL», permet au responsable de traitement d'alléger ses obligations de déclaration auprès de la CNIL. Au sein de sa structure, ou en externe pour les petites structures, il désigne une personne qui sera chargée de tenir un registre des traitements mis en œuvre au sein de l'organisme et de veiller au respect des dispositions de la loi « informatique et libertés » au sein de l'organisme. En contrepartie, l'organisme qui a désigné un CIL n'a plus à effectuer les formalités pour les traitements qui relèvent du régime de la déclaration. Élément central des nouveaux dispositifs créés par le législateur en 2004 pour garantir l'effectivité de la protection des données, le Correspondant Informatique et Libertés (CIL) a pour mission de s'assurer que l'organisme public ou privé qui l'a formellement désigné auprès de la CNIL respecte bien les obligations issues de la loi "Informatique et Libertés".

Personne / Service / Laboratoire déclarant et chargé(e) du droit d'accès et/ou rectification :

Laboratoire LAMHESS (EA 6312) de l'Université Nice Sophia Antipolis, porteur de l'étude.
Pr D'Arripe-Longueville Fabienne, responsable de l'EA, Mme Mabboux Isabelle, LAMHESS, Mme Filleul Valentine, LAMHESS, Mme Ladune Raphaëlle, LAMHESS

Les partenaires : CRCM Giens : Dr Mely, CRCM Nice : Dr Leroy, CRCM Grenoble : Dr Chiron, CRCM Montpellier : Dr Camara

Finalité du Traitement déclaré :

Etude sur « Les Barrières psychologiques à l'EXercice physique chez les patients atteints de MUCOviscidose (MV) : développement d'un outil de mesure et relations avec la tolérance à l'effort et la qualité de vie »

L'objectif est de diffuser un questionnaire (développé et validé selon la méthodologie de Vallerand) auprès d'un échantillon de patients MV afin de mesurer et d'examiner comment les barrières psychologiques ou bénéfiques perçus sont reliés aux comportements des patients MV (leur niveau AP, leur tolérance à l'effort et leur qualité de vie).

Considérant que l'enquête prévoit une information écrite et l'obtention d'un consentement éclairé auprès des volontaires approchés par les médecins référents des CRCM partenaires.

Considérant que l'anonymat et la confidentialité lors du recueil de données sont garantis par les responsables de l'étude, que l'accessibilité est restreinte aux participants du laboratoire LAMHESS, sans modification des données.

Considérant que les données collectées dans le cadre de l'enquête sont uniquement liées aux raisons de la pratique ou de la non-pratique de l'activité physique (sans question ouverte)

En conséquence ce traitement est inscrit au registre du CIL de l'UNS.

Date du référencement du traitement dans le registre du CIL-UNS : 25/10/2017

La délivrance de ce récépissé d'enregistrement du traitement dans le registre du CIL permet au demandeur de mettre en œuvre le traitement. Elle ne l'exonère pas du respect des dispositions de la loi portant notamment sur l'obligation d'informer les personnes concernées par leurs droits (art 32) et de prendre les mesures de sécurité pour assurer la confidentialité des données traitées (article 34).

Nice, le 25/10/2017

Franck Blanc – CIL UNS
CIL@unice.fr

Étude 2 :



**Comité d'Éthique pour les Recherches Non Interventionnelles
(CERNI)**

AVIS n° 2020-81

Le CERNI, après en avoir délibéré, émet un **avis favorable** au Projet intitulé :
« Promotion de l'Activité Physique Adaptée (APA) chez les patients atteints de mucoviscidose : Conception et conditions d'efficacité d'un modèle d'intervention au sein des Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose (PAPA-CRCM) : Capitalisation de l'expérience de promotion de l'APA d'un CRCM. »

Responsable scientifique : Anne VUILLEMIN
Professeur des universités
Laboratoire Motricité Humaine Expertise Sport Santé (LAMHESS, EA 6312)

Il est rappelé que le présent avis est délivré sans être exclusif des éventuelles démarches visant à la protection des données personnelles à réaliser en interne auprès du délégué à la protection des données (DPO) de référence.

Fait pour valoir ce que de droit à Nice, le 11 décembre 2020.

Prof. Doct. Yves STRICKLER
Référent éthique et intégrité scientifique
Président du CERNI (Comité éthique pour les recherches non interventionnelles)

Étude 3 :



Université Nice Sophia Antipolis
BP 2135 - 28, avenue de Valrose - 06103
NICE CEDEX 2
<http://www.unice.fr>

T 39-2017

Récépissé d'enregistrement du traitement dans le registre du CIL

Selon l'Article 22 III de la loi du 6 janvier 1978 modifiée, la désignation d'un correspondant informatique et libertés, ou «CIL», permet au responsable de traitement d'alléger ses obligations de déclaration auprès de la CNIL. Au sein de sa structure, ou en externe pour les petites structures, il désigne une personne qui sera chargée de tenir un registre des traitements mis en œuvre au sein de l'organisme et de veiller au respect des dispositions de la loi « informatique et libertés » au sein de l'organisme. En contrepartie, l'organisme qui a désigné un CIL n'a plus à effectuer les formalités pour les traitements qui relèvent du régime de la déclaration. Élément central des nouveaux dispositifs créés par le législateur en 2004 pour garantir l'effectivité de la protection des données, le Correspondant Informatique et Libertés (CIL) a pour mission de s'assurer que l'organisme public ou privé qui l'a formellement désigné auprès de la CNIL respecte bien les obligations issues de la loi "Informatique et Libertés".

Personne / Service / Laboratoire déclarant et chargé(e) du droit d'accès et/ou rectification :

Laboratoire LAMHESS (EA 6312) de l'Université Nice Sophia Antipolis, porteur de l'étude.
Pr D'Arripe-Longueville Fabienne, responsable de l'EA, Mme Mabboux Isabelle, LAMHESS, Mme Filleul Valentine, LAMHESS, Mme Ladune Raphaëlle, LAMHESS

Les partenaires : CRCM Giens : Dr Mely, CRCM Nice : Dr Leroy, CRCM Grenoble : Dr Chiron, CRCM Montpellier : Dr Camara

Finalité du Traitement déclaré :

Etude sur « Les Barrières psychologiques à l'EXercice physique chez les patients atteints de MUCOviscidose (MV) : développement d'un outil de mesure et relations avec la tolérance à l'effort et la qualité de vie »

L'objectif est de diffuser un questionnaire (développé et validé selon la méthodologie de Vallerand) auprès d'un échantillon de patients MV afin de mesurer et d'examiner comment les barrières psychologiques ou bénéfiques perçus sont reliés aux comportements des patients MV (leur niveau AP, leur tolérance à l'effort et leur qualité de vie).

Considérant que l'enquête prévoit une information écrite et l'obtention d'un consentement éclairé auprès des volontaires approchés par les médecins référents des CRCM partenaires.

Considérant que l'anonymat et la confidentialité lors du recueil de données sont garantis par les responsables de l'étude, que l'accessibilité est restreinte aux participants du laboratoire LAMHESS, sans modification des données.

Considérant que les données collectées dans le cadre de l'enquête sont uniquement liées aux raisons de la pratique ou de la non-pratique de l'activité physique (sans question ouverte)

En conséquence ce traitement est inscrit au registre du CIL de l'UNS.

Date du référencement du traitement dans le registre du CIL-UNS : 25/10/2017

La délivrance de ce récépissé d'enregistrement du traitement dans le registre du CIL permet au demandeur de mettre en œuvre le traitement. Elle ne l'exonère pas du respect des dispositions de la loi portant notamment sur l'obligation d'informer les personnes concernées par leurs droits (art 32) et de prendre les mesures de sécurité pour assurer la confidentialité des données traitées (article 34).

Nice, le 25/10/2017

Franck Blanc – CIL UNS
CIL@unice.fr

Étude 4 :



**Comité d'Éthique de la Recherche
(CER)**

AVIS n° 2022-049

Le Comité d'Éthique de la Recherche d'Université Côte d'Azur, après en avoir délibéré, émet un **avis favorable** pour le Projet intitulé :

Titre : « Promotion de l'activité physique chez les patients atteints de mucoviscidose : acceptabilité d'un outil numérique de mesure de la balance décisionnelle (MUCO_BAL'Ap) »,

Sous la responsabilité scientifique de Mme Fabienne d'Arripe-Longueville, Professeur, Université Côte d'Azur.

Il est rappelé que le présent avis est délivré sans être exclusif des éventuelles démarches visant à la protection des données personnelles à réaliser en interne auprès du délégué à la protection des données (DPD/DPO) de référence.

Fait pour valoir ce que de droit à Nice, le 23 mai 2022.

Prof. Doct. Yves STRICKLER
Référent éthique et intégrité scientifique d'Université Côte d'Azur
Président du CER (Comité éthique de la recherche)

Étude 5 :



Comité d'Éthique de la Recherche

(CER)

AVIS n° 2022-048

Le Comité d'Éthique de la Recherche d'Université Côte d'Azur, après en avoir délibéré, émet un **avis favorable** pour le Projet intitulé :

Titre : « Promotion de l'activité physique chez les patients atteints de MUCOviscidose : développement d'outils de mesure de la BALance Décisionnelle (MUCO_BALAD) pour les jeunes de moins de 18 ans »,

Sous la responsabilité scientifique de Mme Fabienne d'Arripe-Longueville, Professeur, Université Côte d'Azur.

Il est rappelé que le présent avis est délivré sans être exclusif des éventuelles démarches visant à la protection des données personnelles à réaliser en interne auprès du délégué à la protection des données (DPD/DPO) de référence.

Fait pour valoir ce que de droit à Nice, le 23 mai 2022.

Prof. Doct. Yves STRICKLER

*Référent éthique et intégrité scientifique d'Université Côte d'Azur
Président du CER (Comité éthique de la recherche)*

Annexe 2 : Fiche de capitalisation de l'expérience de promotion de l'activité physique adaptée au sein des centres de ressources et de compétences de la mucoviscidose de Giens et de Roscoff

Fiche de capitalisation

Promotion de l'activité physique adaptée chez les personnes atteintes de mucoviscidose dans les Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose : PAPA-CRCM

Centre de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose de Giens et de Roscoff



Résumé

La promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée auprès des personnes atteintes de mucoviscidose fait l'objet d'une grande hétérogénéité au sein des centres médicaux spécialisés. Deux centres se démarquent par leur approche et leur précocité dans le domaine de l'activité physique et de l'activité physique adaptée. Au vu des bénéfices apportés par l'activité physique, et des faibles niveaux de pratique des patients, comprendre les mécanismes de la promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée au sein de ces centres permettrait de les transposer au sein d'autres centres spécialisés.

Capitalisation accompagnée par Raphaëlle Ladune



FICHE DE CAPITALISATION

Carte d'identité de l'intervention

Intervention	Université Côte d'Azur
Porteur	LADUNE Raphaëlle
Thématique	Promotion de l'Activité Physique et de l'Activité Physique Adaptée
Population cible	Personnes atteintes de mucoviscidose
Dates du projet	Janvier 2021 – Mai 2022
Milieu d'intervention	Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose (CRCM) spécialisés dans la réhabilitation respiratoire
Région	PACA et BRETAGNE
Niveau géographique	Communal
Principaux partenaires	Professionnels des CRCM, Associations sportives locales, Enseignements APA, Association Gregory Marchal, Etoile des neiges, Vaincre la mucoviscidose
Objectifs	Assurer la promotion de la santé Améliorer la qualité de vie des patients Optimiser la capacité fonctionnelle des patients Promouvoir l'activité physique et l'activité physique adaptée
Stratégies mobilisées	Renforcement des connaissances liées la santé Renforcement des connaissances liées à l'activité physique Éducation pour la santé Mobilisation des différents acteurs concernés
Contributeur.trice	<p>Giens :</p> <p>Docteur Laurent Mely Médecin chef de service au CRCM de Giens laurent.mely@chu-lyon.fr https://www.chu-lyon.fr/service-maladies-respiratoires-renee-sabran</p> <p>Roscoff :</p> <p>Docteur Sophie Ramel Médecin chef de service au CRCM de Roscoff sophie.ramel@ildys.org https://www.ildys.org/etablissements/perharidy/</p>
Accompagnateur.trice	<p>Madame Raphaëlle Ladune Doctorante, Université Côte d'Azur, laboratoire LAMHES Raphaelle.LADUNE@univ-cotedazur.fr https://lamhess.univ-cotedazur.fr</p>
Méthodologie	Fiche réalisée sur la base de plusieurs entretiens de capitalisation conduits entre 2021 et 2022, par visioconférence.



Présentation de l'intervention

Présentation de la structure

Les patients atteints de mucoviscidose sont suivis au sein de centres spécialisés, appelés Centres de Ressources et de Compétences de la Mucoviscidose (CRCM). La capitalisation a été réalisée au sein de deux CRCM, celui de Roscoff et celui de Giens. Le CRCM de Roscoff appartient à la fondation ILDYS et se situe à l'extrémité de la presqu'île de Perharidy. Ce CRCM dit « mixte » accueille des patients enfants et adultes, au sein de son cadre exceptionnel au bord de l'eau. Le CRCM de Giens appartient aux Hospices Civiles de Lyon sur la presqu'île de Giens (commune de Hyères). Il s'agit également d'un CRCM mixte accueillant des patients enfants et adultes, avec un accès tout privilégié à la mer Méditerranée.

La promotion de l'Activité Physique (AP) a toujours existé au sein de ces deux centres, mais c'est au cours des dix dernières années que sa promotion et celle de l'Activité Physique Adaptée (APA) ont connu une réelle expansion.

Les soins proposés sont les suivants : suivi trimestriel et annuel des patients avec la réalisation de bilans nécessaires au contrôle de l'évolution de la maladie, cures antibiotiques à la suite d'infection, les prises en charge se répartissant entre un service d'Hôpital De Jour (HDJ) accueillant les patients sur la journée ou demi-journée et un service d'hospitalisation complète (HC). Ces deux centres se distinguent des autres CRCM car ils sont implantés dans des structures essentiellement SSR et proposent des stages de réhabilitation et réadaptation respiratoire, où l'activité physique est mise à l'honneur.

Contexte

Initialement proscrites aux personnes atteintes de mucoviscidose, l'AP était perçue comme dangereuse. Cependant, dans un souci constant d'amélioration de la qualité de vie de leurs patients, les équipes médicales se sont intéressées aux bénéfices apportés par l'AP dans d'autres pathologies respiratoires, et à des études menés dans des pays voisins sur l'intérêt de l'AP dans leurs thérapeutiques de soin.

De nos jours, l'AP est reconnue comme une thérapie à part entière dans le parcours de soin du patient atteint de mucoviscidose, avec de nombreux bénéfices et peu de contre-indications (Radtke et al., 2017). Néanmoins, la pratique reste inférieure aux recommandations aussi bien en termes de niveau que d'intensité (Burnett et al., 2021), et la promotion de l'AP et de l'APA sont très hétérogènes en fonction des centres (Karila et al., 2010).

L'objectif était ici de relever les moyens mis en œuvre au sein de ces deux CRCM « experts » dans la promotion de l'AP et de l'APA pour assurer la promotion de l'AP et de l'APA à des fins de compréhension et de partage.

Pionniers dans la proposition de l'AP, puis de l'APA, les CRCM de Giens et de Roscoff bénéficient des avantages contextuels liés à leurs situations géographiques inédites. Tous deux situés en bord de mer (possibilité de pratiquer le kayak, le paddle, et autres activités aquatiques), et profitant d'accès privilégiés au sein même de la structure hospitalière à des parcs et autres infrastructures sportives (i.e., gymnase, cours de tennis, terrains multi-activités, parcours sportifs, etc.), la possibilité de pratique physique est presque sans limite.

FICHE DE CAPITALISATION

Objectifs

L'objectif principal de ce projet consiste à faire pratiquer de manière régulière une APA sur le long terme à chaque patient en dehors du contexte hospitalier du CRCM. Les objectifs secondaires sont de faire découvrir aux patients un panel d'activités physiques (i.e., tennis, marche, marche nordique, paddle, kayak, tir à l'arc, musculation et renforcement musculaire, vélo, etc.), de développer un sentiment de plaisir dans la pratique, d'apprendre des techniques de respiration, de posture, de gestion de l'effort, de gain de masse musculaire, ou encore des habitudes saines de vie en matière d'alimentation et d'hydratation.

Calendrier

Au sein de ces deux CRCM la promotion de l'AP « existe depuis toujours » comme le soulignent les professionnels de santé qui le composent, avec cette volonté et cette culture de ne pas interdire de sport, ni de créer de dispense médicale mais de savoir adapter. Depuis plus d'une dizaine d'années, la promotion de l'AP est réelle, puis deviendra la promotion de l'APA. Elle se caractérise par des conseils spécifiques, mais également par la pratique d'un large panel d'activités.

Principaux acteurs et partenaires

Les principaux acteurs de la promotion de l'AP et de l'APA au sein de ces CRCM sont les professionnels de santé. Les équipes pluridisciplinaires des CRCM de Giens et Roscoff ont développé une coordination autour des patients et de leur suivi. Les acteurs principaux de la promotion de l'AP et de l'APA sont les Enseignants en APA (EAPA), qui jouent un rôle majeur dans l'encadrement de la pratique, aussi bien dans la conception de séances, des programmes, mais également dans l'accompagnement de la pratique, sa gestion, et son adaptation tout au long du parcours du patient. Les kinésithérapeutes peuvent proposer en complément de la kinésithérapie respiratoire des exercices physiques pour mobiliser le système respiratoire dans le but de le désencombrer, encourager la pratique d'activité physique pour renforcer les capacités aérobiques (i.e., danse, marche, etc.) et accompagner la reprise de l'activité chez les patients les plus fragiles notamment pour la gestion des besoins en oxygène. Les médecins jouent aussi un rôle prépondérant par le dialogue lors des consultations : connaissances des capacités aérobies de leurs patients, de leur état de santé général, et des bienfaits de l'AP. Ils peuvent ainsi rassurer les patients sur leurs capacités physiologiques (i.e., valeurs de fréquence cardiaque, saturation en oxygène, etc.), et les diriger vers les EAPA de la structure. Les ergothérapeutes jouent aussi un rôle important dans l'adaptation du contrôle respiratoire et la gestion des besoins en oxygène dans les gestes du quotidien. Enfin, les infirmières et infirmières coordinatrices ont aussi bien un rôle dans le conseil et l'écoute, que dans la coordination des soins avec les différents acteurs. Le planning des patients est ainsi optimisé afin qu'ils puissent rencontrer l'ensemble des professionnels de santé, et participer aux séances d'APA lors des séjours hospitaliers (cures antibiotiques ou de réhabilitation respiratoire).

Les partenaires essentiels à ces actions de promotion de l'AP et de l'APA sont les associations de patients d'envergure nationale, à savoir l'association Vaincre la Mucoviscidose, l'association Étoiles des Neiges, et l'association Grégory Lemarchal. Ces associations financent, à échelle individuelle et collective, du matériel sportif, des stages sportifs, des aménagements d'infrastructures, des supports de promotion de l'AP et de l'APA (i.e., livret, DVD), ainsi que des postes d'EAPA au sein de ces CRCM.

Principaux éléments saillants

Point de départ / Émergence du projet

L'AP chez les personnes atteintes de mucoviscidose a débuté en France au sein des CRCM de Roscoff et de Giens en s'inspirant du modèle mis en place à DE HAAN en Belgique. Elle a été impulsée il y a plus de vingt ans par les études et les programmes médicaux existants déjà dans les pays nordiques européens qui révèlent des résultats encourageants auprès de patients atteints d'autres pathologies respiratoires comme la BPCO. On parlait initialement d'AP, puis d'APA avec son développement au cours des dernières années, avec des programmes de plus en plus précis et spécifiques aux contraintes de ces patients.

Élaboration du projet

Cette idée d'impulser l'AP et l'APA aux patients mucoviscidose s'est structurée il y a une dizaine d'années. Cette évolution s'est faite en parallèle de celle des soins médicaux, de l'allongement de l'espérance de vie des patients et donc des nouvelles problématiques qui en découlent, comme la nécessité de les accompagner dans le bien vieillir. Les bénéfices sur les plans respiratoires (i.e., désencombrement, amélioration de la capacité respiratoire), sur la forme physique générale, la santé mentale ou encore la qualité de vie ont également encouragé les CRCM de Giens et Roscoff à se tourner vers l'AP puis l'APA pour leurs prises en charges futures.

La promotion de l'AP, puis de l'APA, s'est développée au fur et à mesure des opportunités qui se sont présentées. L'un des facteurs les plus importants est la culture du sport et de l'AP des professionnels de la santé dans ces CRCM, qui sont bien conscients des avantages d'une pratique d'AP régulière et pensent qu'il est essentiel de sensibiliser les personnes atteintes de mucoviscidose à ces avantages. De même, la disponibilité des EAPA sensibilisés aux spécificités de la mucoviscidose est également un atout majeur pour ces centres. La pratique est proposée sous une forme adaptée et dans un environnement approprié. Des exercices suivant les recommandations en vigueur pour les personnes atteintes de mucoviscidose sont ainsi proposés, c'est-à-dire des exercices d'endurance et de renforcements musculaires. Pour ce qui est de l'environnement adapté, les installations et le matériel sont désinfectés après chaque utilisation, les distances de sécurité entre les participants sont maintenues et des visières et/ou des masques sont portés lors des séances. Enfin, et c'est l'une des caractéristiques les plus appréciées, les personnes atteintes à des stades avancés ont la possibilité de bénéficier d'un apport en oxygène, et d'avoir leur saturation en oxygène davantage surveillée. De même, la disponibilité des installations (i.e. pour accueillir à la fois les patients et les différents types d'équipements sportifs) est un facteur majeur mentionné par l'ensemble des équipes médicales.

L'action de promotion de l'AP et de l'APA pour les personnes atteintes de mucoviscidose s'est aussi appuyée sur l'étude de la littérature scientifique. Comme cité précédemment, les premières études portaient principalement sur d'autres pathologies respiratoires, telles que la bronchopneumopathie chronique obstructive. De manière plus actuelle, et dans le but de se tenir au courant des dernières avancées, les professionnels de santé participent régulièrement à des congrès nationaux et internationaux où ils peuvent échanger des informations sur différentes techniques dans les domaines de la médecine, de la kinésithérapie, des soins infirmiers ainsi que de l'AP et de l'APA provenant de différentes parties du monde. Plus récemment, les associations de patients ont proposé du matériel spécifique à l'APA et à la mucoviscidose sous forme de DVD et de brochures papier.

FICHE DE CAPITALISATION

Partenariats

Différents partenaires sont impliqués :

- **L'association Vaincre la mucoviscidose** : aides financières pour la participation sportive des patients (financement de matériel à domicile des patients ou au sein du CRCM de Giens), financement partiel du salaire d'un EAPA dédiée au CRCM.
- **L'association Étoiles des Neiges** : financement d'un poste d'EAPA, aides financières auprès des patients pour financer du matériel ou des inscriptions au sein de clubs sportifs, mise en place d'un réseau d'EAPA spécialisés dans la mucoviscidose, cours d'APA en visio-conférence, stages sportifs.
- **L'association Grégory Lemarchal** : financement de recherches, de matériels et équipements améliorant le confort des patients.
- **Contact avec les kinésithérapeutes de ville** : kinésithérapeutes « relais » assurant le suivi quotidien / hebdomadaire des soins auprès des patients.
- **Clubs et associations de patients au niveau local** : permettent d'obtenir des financements à la suite d'organisation d'événements, dans le but de lever des fonds pour mener des actions de promotion de l'AP et de l'APA.

Stratégies de mise en œuvre

L'accompagnement des patients vers une APA durable et régulière se fait au travers de plusieurs stratégies. Parmi eux on retrouve :

- **L'intégration de la promotion de l'APA dans le parcours de soin du patient par le dialogue** : la promotion de l'APA est assurée au cours de chaque entretien, grâce aux visites et bilan annuels des patients, à travers les dialogues et le questionnement au sujet de la pratique d'AP.
- **La mise en place d'un programme personnalisé en co-construction avec le patient et les professionnels de santé** : l'ensemble du personnel médical cherche à élaborer avec le patient, en fonction de ses goûts, envies et attentes, un programme auquel le patient puisse s'identifier et se tenir. En plus de ces dialogues réguliers, la promotion de l'APA passe également par les stages de réhabilitations, d'une durée de trois à quatre semaines environ, pendant lesquelles les patients vont s'essayer à de multiples activités physiques adaptées, tout en étant suivi par l'ensemble de l'équipe médicale, et ainsi favoriser la continuité de l'activité à la sortie du stage et en dehors du milieu médical.
- **Échanges et dialogues entre les professionnels de santé du CRCM** : l'ensemble du personnel médical va ainsi jouer un rôle, à son échelle, pour favoriser cette pratique durable : les médecins en accentuant les bénéfices découlant de l'APA sur la forme physique et l'état de santé général, les kinésithérapeutes en ciblant notamment les bénéfices sur la fonction respiratoire et l'effet drainant de l'APA, les infirmiers coordinateurs pour planifier la rencontre avec l'ensemble de l'équipe médicale en fonction du discours émanant du patient, et bien sûr l'EAPA en présentant un panel d'activités le plus large possible, et en cherchant à adapter et individualiser le programme à chaque patient, en fonction de leurs objectifs, de leur motivations, de leurs capacités et possibilités.
- **Suivi de la pratique physique en dehors du CRCM** : comme explicité plus haut, la pratique physique est évaluée de manière informelle par le biais de dialogue lors des bilans annuels. Pour les patients le sollicitant, un suivi plus approfondi peut-être effectué par les EAPA par le biais d'inter-rendez-vous en visioconférence ou par téléphone afin d'assurer le suivi après un stage de réhabilitation.

La promotion de l'APA se retrouve ainsi partout, et non uniquement lors des stages de réhabilitation ou les séances d'APA, mais en cherchant à faire perdurer la pratique physique lors du retour au domicile avec la mise en place d'objectifs réalisables et d'un suivi régulier.

FICHE DE CAPITALISATION

Compétences mobilisées

- **Être à l'écoute des patients** : amener chaque patient à pratiquer tout au long de l'année une APA régulière de leur choix et qui correspond à leurs goûts,
- **Rendre acteur de leur prise en charge les patients** : les faire participer à différents ateliers, les amener à tester et à se découvrir sur de multiples activités physiques et sportives,
- **Favoriser les rencontres et les échanges** : amener les patients à communiquer entre eux et/ou avec l'équipe médicale, à échanger sur leur maladie et sur leur pratique physique, à partager leurs astuces du quotidien,
- **Une prise en charge en APA optimale** : amener les patients à rencontrer, si besoin, des EAPA leur permettant de créer un programme sur-mesure et assurant un suivi régulier,
- **L'accès à des aides leur permettant de pratiquer une APA régulièrement** : les CRCM permettent une mise en relation avec des partenaires pouvant si besoin financer partiellement ou en totalité le matériel nécessaire à la pratique physique régulière.



Le moment le plus important selon les professionnels de santé était la visite trimestrielle au cours de laquelle des discussions sur l'APA avaient lieu. Ces discussions étaient d'autant plus importantes pendant les périodes propices aux changements d'habitudes de vie (i.e., entrée à l'école, au collège, au lycée, vie professionnelle, etc.)

Un autre moment clé est la séance d'APA en groupe, qui est un moteur pour la promotion de l'APA au niveau individuel. L'effet de groupe est tel que chacun peut constater qu'il est capable de réussir, et les conversations ont été partagées entre les patients.



En fait dans le CRCM il y avait toujours eu cette culture de ne pas interdire le sport. Médecin

[L'objectif] est de les aider à découvrir un panel d'activités afin qu'ils en trouvent une ou plusieurs qui leur plaisent, de sorte que ces activités puissent se poursuivre dans le temps - en quelque sorte, leur donner le goût de l'activité physique. EAPA

Lors de nos consultations avec les patients, une grande partie de l'information sera verbale. Infirmière coordinatrice

Principaux enseignements

Résultats observés

La promotion de l'AP et de l'APA s'est appuyée sur plusieurs stratégies. Elle se construit tout au long de l'année, par des discussions informelles, notamment lors des consultations de suivi et lors du bilan annuel, lors duquel la pratique physique est systématiquement discutée. Lorsque ni l'AP ni l'APA ne sont pratiquées, les personnes atteintes de mucoviscidose sont orientées vers l'EAPA pour obtenir des conseils et une réorientation.

Lors des séjours de réhabilitation respiratoire, d'une période de 3 à 4 semaines, les personnes atteintes de mucoviscidose ont suivi un programme en APA les guidant dans la découverte de plusieurs types d'AP et d'éducation thérapeutique, et ils ont également eu l'occasion de rencontrer l'ensemble de l'équipe médicale (kinésithérapeutes, psychologues, assistante sociale, etc.), l'objectif étant d'introduire l'APA dans la vie quotidienne de chacun de manière durable. Ces séjours permettent aux patients d'essayer de nombreux types d'AP tout en étant encadrés par des professionnels.

Ces séjours de réhabilitation respiratoire ont ainsi pour but de « mettre le pied à l'étrier » la pratique physique régulière chez les patients. Des stratégies sont ainsi mise en place dès le début du stage, comme l'insertion de l'APA dans l'emploi du temps du patient, l'enseignement des bonnes pratiques et réflexes à adopter (e.g., hydratation, mouvements en APA, contrôle de la saturation, etc.), la recherche d'offres et d'équipements en APA à proximité du domicile du patient. Enfin, l'élément le plus important dans cette recherche de continuité de la pratique physique après le séjour de réhabilitation est le suivi proposé par le CRCM. Ce suivi passe dans un premier temps par le maintien d'un contact avec l'EAPA par téléphone et/ou visioconférence, mais également par les dialogues lors des bilans annuels et trimestriels.

Enfin, proposer l'APA en hôpital de jour à des personnes résidant à proximité des CRCM est un autre moyen de promouvoir l'AP. L'objectif est de familiariser les personnes à la pratique physique régulière dans un environnement sécurisé, dans l'attente qu'ils pratiquent éventuellement l'AP en dehors du contexte hospitalier.

Freins et leviers

Plusieurs facteurs ont influencé favorablement le développement de la promotion de l'AP et de l'APA. Le premier et le plus important est l'équipe soignante. Sa nature multidisciplinaire et son implication générale dans le parcours du patient ont permis d'encourager la promotion de l'AP et de l'APA en essayant, par exemple, d'organiser l'emploi du temps quotidien des patients afin que l'APA reste une partie importante de leur journée malgré les aspects chronophages des traitements.

L'environnement du CRCM a également contribué à la promotion de l'APA, à la fois en termes de diversité (activités intérieures et extérieures, avec certaines spécificités saisonnières) et de nombre d'installations disponibles dans chaque centre.

Un autre élément facilitateur a été l'effet des activités de groupe. Ces activités ont permis de développer et de renforcer les liens sociaux et l'entraide, et ont eu un effet positif sur la motivation.

Enfin, les associations de patients qui fournissent des ressources humaines (i.e. réseau d'EAPA spécialisés en mucoviscidose), financières (i.e. financement de postes d'EAPA) et matérielles ont été un atout majeur dans la promotion de l'APA auprès de cette population.

FICHE DE CAPITALISATION

De la même manière, plusieurs facteurs ont freiné le développement de la promotion de l'AP et de l'APA au sein de ces CRCM. Le principal obstacle à la promotion de l'AP et de l'APA était le manque de temps du personnel médical pour explorer avec les personnes atteintes de mucoviscidose ce qui serait approprié en matière d'AP, ce qu'ils aiment et ce qu'ils n'aiment pas, ainsi que leurs objectifs.

Un deuxième obstacle majeur était le manque de motivation ou de ressources des patients, l'exacerbation de la maladie ou le refus de pratiquer de l'exercice physique.

Pour surmonter ces obstacles, les associations de patients ont financé des postes d'EAPA dans les CRCM. En ce qui concerne les obstacles rencontrés par les patients eux-mêmes, différentes stratégies ont été utilisées, telles que l'implication de la famille dans la pratique régulière de l'AP, la garantie d'un suivi régulier avec l'EAPA, l'aide au financement de l'achat de matériel sportif ou de l'adhésion à des clubs de sport, voire la collaboration avec une personne pour trouver une activité qui corresponde à sa motivation, à ses capacités et à ses possibilités.

Modalités d'action

La promotion de l'APA dans ces CRCM s'est faite principalement par le dialogue lors des bilans de santé trimestriels. De plus, les réseaux sociaux et les pages Facebook avec des interactions entre les professionnels de santé et les personnes atteintes de mucoviscidose ont été utilisés pour lancer des défis sportifs et partager des conseils. Les professionnels de santé ont également utilisé les résultats des bilans annuels (i.e., test de marche de 6 minutes, exploration fonctionnelle respiratoire) pour montrer les effets bénéfiques de l'AP et de l'APA. L'éducation thérapeutique a également été un outil lors de la réhabilitation respiratoire.

Pour aller plus loin :

Radtke T, Nevitt SJ, Hebestreit H, Kriemler S. Physical exercise training for cystic fibrosis. Cochrane Database of Systematic Reviews 2017, Issue 11. Art. No.: CD002768. Accessed 17 October 2023.

La réalisation de cette fiche s'est appuyée sur la méthode de capitalisation des expériences en promotion de la santé définie dans le cadre de la **démarche CAPS**.

La démarche CAPS de **Capitalisation des expériences en promotion de la santé**, menée depuis 2017 par un Groupe de travail national Capitalisation coordonné par la Fnes et la SFSP, s'inscrit dans l'initiative nationale InSPIRE- ID, dont l'objectif est d'élaborer un dispositif national de partage de connaissances en santé publique.

L'objectif de la démarche CAPS est de repérer des projets riches en enseignements et d'organiser leur capitalisation, d'appuyer les accompagnateurs et les porteurs d'action impliqués et d'alimenter le [portail CAPS](#) qui accueille les connaissances issues de l'expérience.

Afin de diffuser la démarche de capitalisation, le Groupe de travail national Capitalisation a élaboré un guide conceptuel et un cahier pratique et développé, en lien avec l'EHESP, une offre de formation à destination des accompagnateurs de capitalisation. L'ensemble de ces éléments se retrouvent sur le portail CAPS.

Le déploiement de la capitalisation des expériences en promotion de la santé est mené avec le soutien de la Direction générale de la santé et de Santé publique France.

Annexe 3 : Questionnaires utilisés lors de l'étude 3

Questionnaire du niveau en activité physique : questionnaire de Baecke (Baecke et al., 1982)

Activité professionnelle

- Pendant mon travail je suis assis.
- Pendant mon travail je suis debout.
- Pendant mon travail je marche.
- Pendant mon travail je porte de lourdes charges.
- Après mon travail je suis fatigué(e).
- Au travail je transpire.
- En comparaison avec les personnes de mon âge, je pense que mon travail est physiquement : très peu fatigant, peu fatigant, modéré, dur, très dur.

Activité sportive

- Pratiquez-vous une activité physique ? Si oui, quel sport pratiquez-vous le plus couramment ? Combien d'heures par semaine ? Combien de mois par an ?
- Si vous pratiquez une autre activité physique couramment, laquelle ? Combien d'heures par semaine ? Combien de mois par an ?
- En comparaison avec les personnes de mon âge, je pense que mon temps de loisirs consacré à une activité physique est : bien plus important, plus important, identique, moindre, bien moindre.
- Pendant mes loisirs je transpire.
- Pendant mes loisirs je pratique un sport.

Activité de loisir

- Regardez-vous souvent la télévision ? Jouez-vous souvent aux jeux vidéo ?
- Pendant vos loisirs marchez-vous ?
- Pendant vos loisirs faites-vous du vélo ?
- Combien de temps consacrez-vous par jour, à des déplacements actifs (se rendre sur votre lieu de travail à pied ou à vélo par exemple) ?
- Pendant vos loisirs, vous considérez-vous comme étant quelqu'un de : relativement sédentaire, moyennement actif, très dynamique.

Référence : Baecke JA, Burema J, Frijters JE. A short questionnaire for the measurement of habitual physical activity in epidemiological studies. *American Journal of Clinical Nutrition*. 1982;36(5):936-42.

Questionnaire de la qualité de vie : questionnaire CFQ14+ (Henry et al., 2003)

Qualité de vie

AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES, DANS QUELLE MESURE AVEZ-VOUS EU DES DIFFICULTÉS :

- A vous livrer à des exercices énergiques (courir, pratiquer un sport, etc.).
- Pour marcher aussi vite que les autres.
- Pour porter ou à soulever des choses lourdes (cartable, un sac de courses).
- Pour monter un étage.
- Pour monter les escaliers aussi vite que les autres.

AU COURS DE CES DEUX DERNIÈRES SEMAINES, PRÉCISEZ COMBIEN DE FOIS :

- Vous vous êtes senti(e) en forme.
- Vous vous êtes senti(e) inquiet/inquiète.
- Vous vous êtes senti(e) inutile.
- Vous vous êtes senti(e) fatigué(e).
- Vous vous êtes senti(e) plein(e) d'énergie.
- Vous vous êtes senti(e) épuisé(e).
- Vous vous êtes senti(e) triste.

EN PENSANT À VOTRE ÉTAT DE SANTÉ AU COURS DE CES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :

- Dans quelle mesure vous avez du mal à marcher ?
- Comment vous sentez-vous vis-à-vis de la nourriture ?
- Dans quelle mesure vos traitements rendent-ils votre vie quotidienne plus difficile ?
- Combien de temps consacrez-vous chaque jour à vos traitements ?
- Dans quelle mesure vous est-il difficile de suivre vos traitements (y compris vos médicaments) chaque jour ?
- Quel est, à votre avis, votre état de santé actuel ?

AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :

- J'ai du mal à récupérer après un effort physique.
- Je dois limiter mes activités énergiques telles que la course ou les sports.
- Je dois me forcer pour manger.
- Je dois rester chez moi plus que je ne le voudrais.
- Je me sens suffisamment à l'aise pour parler de ma maladie avec d'autres.
- Je me sens trop maigre.
- J'ai l'impression de paraître différent(e) des autres personnes de mon âge.
- Je ne me sens pas sûr / sûre de moi à cause de mon apparence physique.
- Les gens ont peur que je sois contagieux/contagieuse.
- Je rencontre beaucoup mes amis.
- J'ai l'impression que ma toux gêne les autres.
- Je n'hésite pas à sortir le soir.

Annexes

- Je me sens souvent seul(e).
- Je me sens en bonne santé.
- Il m'est difficile de faire des projets d'avenir (aller à l'université, me marier, progresser dans ma carrière, etc.).
- Je mène une vie normale.

École, travail ou activités quotidiennes

- Dans quelle mesure avez-vous eu du mal à vous tenir à jour dans votre travail scolaire, professionnels, ou d'autres activités quotidiennes au cours des deux dernières semaines ?
- Combien de fois avez-vous manqué l'école, vous êtes-vous absenté(e) du travail, ou n'avez-vous pas été en mesure de mener à bien vos activités quotidiennes au cours des deux dernières semaines à cause de votre maladie ou des traitements ?
- Avec quelle fréquence la mucoviscidose vous empêche-t-elle d'atteindre vos objectifs scolaires, professionnels ou occasionnels ?
- Avec quelle fréquence la mucoviscidose vous empêche-t-elle de faire vos courses habituelles ?

Difficultés symptomatiques

INDIQUEZ DANS QUELLE MESURE VOUS AVEZ RESENTI DES DIFFICULTÉS AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :

- Avez-vous eu du mal à prendre du poids ?
- Avez-vous été congestionné(e) ?
- Avez-vous toussé pendant la journée ?
- Avez-vous toussé pour faire sortir les crachats ?
- Vos crachats ont été surtout : clairs, clairs à jaunâtres, verdâtres, verdâtres avec du sang.

COMBIEN DE FOIS AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :

- Avez-vous eu des sifflements ?
- Avez-vous eu du mal à respirer ?
- Vous êtes-vous réveillé(e) pendant la nuit parce que vous toussiez ?
- Avez-vous souffert de gaz ?
- Avez-vous eu de la diarrhée ?
- Avez-vous eu mal au ventre ?
- Avez-vous eu des problèmes pour manger ?

Référence : Henry B, Aussage P, Grosskopf C, Goehrs JM. Development of the Cystic Fibrosis Questionnaire (CFQ) for assessing quality of life in pediatric and adult patients. Qual Life Res. 2003;12(1):63-76.

Annexe 4 : Questionnaire MUCO_BDEX validé

QUESTIONNAIRE MUCO_BDEX

COMMENT REpondre :

Nous nous intéressons aux raisons pour lesquelles les patients atteints de mucoviscidose pratiquent régulièrement (c'est-à-dire au moins 2 à 3 séances par semaine) ou pas, une activité physique.

Pour chacune des affirmations suivantes, cochez le score correspondant à votre propre avis (1 = pas du tout d'accord / 6 = tout à fait d'accord). Les réponses attendues correspondent à votre avis d'une manière générale (et non en phase d'exacerbation de la maladie).

Il est impératif de répondre à toutes les questions.

NOM : _____

Prénom : _____



Filleul, V., Ladune, R., Gruet, M. et al. Development and validation of the Cystic Fibrosis Decisional Balance for Physical Activity scale (CF-DB-PA). BMC Pulm Med 21, 121 (2021).
<https://doi.org/10.1186/s12890-021-01471-0>

Les raisons qui m'inciteraient à pratiquer régulièrement une activité physique sont...

<i>Choisissez la réponse appropriée pour chaque élément</i>	Pas du tout d'accord	Pas d'accord	Pas trop d'accord	Un peu d'accord	Assez d'accord	Tout à fait d'accord
...cela développe mes muscles respiratoires et réduit mon essoufflement.						
...c'est l'occasion de penser à autre chose.						
...cela me fait plaisir.						
...cela améliore mon endurance.						
...cela améliore ma force et ma masse musculaire.						
...je bénéficie d'un encadrement compétent pour ma pratique.						
...cela me permet de rencontrer d'autres personnes.						
...je bénéficie de lieux adaptés à ma pratique.						
...une bonne condition physique favorise la réussite de la greffe.						
...j'ai une offre de pratique près de chez moi.						

Les raisons qui me freineraient à pratiquer régulièrement une activité physique sont...

<i>Choisissez la réponse appropriée pour chaque élément</i>	Pas du tout d'accord	Pas d'accord	Pas trop d'accord	Un peu d'accord	Assez d'accord	Tout à fait d'accord
...cela me fatigue trop.						
...j'ai peur d'être trop essoufflé(e).						
...je n'ai pas le temps à cause de mes contraintes familiales.						
...j'ai peur d'être contaminé(e) par des germes dans les lieux de pratique sportive.						
...je supporte mal l'effort physique.						
...j'ai peur de tousser.						
...je m'essouffle très vite.						
...je crains d'être mal vu(e) si je tousse devant les autres.						
...je n'ai pas d'offre qui me convienne près de chez moi.						
...je ne pense pas en être capable physiquement.						
...je n'ai pas l'encadrement adapté à mes besoins.						
...je désature très vite.						
...je n'arrive pas à suivre le rythme.						

INTERPRÉTATION DES RÉSULTATS :

Il faut traiter les leviers et les barrières séparément. On calcule un score global reprenant l'ensemble des items, et les scores spécifiques aux sous-parties.

LEVIERS :

- Score « leviers » : calcul de la moyenne sur les 10 items. Plus le score est proche de 6, plus le participant voit sa pratique physique encouragée. Plus le score est proche de 1, plus il sera intéressant d'intervenir sur les bénéfices apportés par la pratique physique régulière.
- Score « leviers physiques » : calcul de la moyenne des items 1, 4, 5 et 9. Plus le score est proche de 6, plus le participant voit sa pratique encouragée par des facteurs d'ordre physique (*i.e., amélioration des capacités physique générales*). Plus le score est proche de 1, plus les bénéfices physiques apportés par la pratique doivent être mis en avant et discutés.
- Score « leviers psychologiques » : calcul de la moyenne des items 2, 3 et 7. Plus le score est proche de 6, plus le participant voit sa pratique encouragée par des facteurs d'ordre psychologique (*i.e., amélioration du bien-être général*). Plus le score est proche de 1, plus les bénéfices psychologiques apportés par la pratique doivent être mis en avant et discutés.
- Score « leviers environnementaux » : calcul de la moyenne des items 6, 8 et 10. Plus le score est proche de 6, plus le participant voit sa pratique encouragée par des facteurs d'ordre environnementaux (*i.e., lieux de pratique, offres et encadrement*). Plus le score est proche de 1, plus les bénéfices environnementaux apportés par la pratique doivent être mis en avant et discutés.

BARRIÈRES :

- Score « barrières » : calcul de la moyenne sur les 13 items. Plus le score est proche de 1, moins le participant voit sa pratique physique freinée. Plus le score est proche de 6, plus il sera intéressant d'intervenir sur les barrières rapportées par le participant.
- Score « barrières physiques » : calcul de la moyenne des items 11, 15, 17 et 22. Plus le score est proche de 1, moins le participant voit sa pratique physique freinée par des facteurs d'ordre physiques. Plus le score est proche de 6, plus les barrières physiques induites par la pratique (*i.e., essoufflement, saturation, fatigue*) freinent le participant. Il sera alors intéressant d'intervenir et de discuter de ces barrières.
- Score « barrières psychologiques » : calcul de la moyenne des items 12, 14, 16, 18, 20 et 23. Plus le score est proche de 1, moins le participant voit sa pratique physique freinée par des facteurs d'ordre psychologiques. Plus le score est proche de 6, plus les barrières psychologiques induites par la pratique (*i.e., sentiments de peur et de capacité*) freinent le participant. Il sera alors intéressant d'intervenir et de discuter de ces barrières.
- Score « barrières environnementales » : calcul de la moyenne des items 13, 19 et 21. Plus le score est proche de 1, moins le participant voit sa pratique physique freinée par des facteurs d'ordre environnementaux. Plus le score est proche de 6, plus les barrières environnementales induites par la pratique (*i.e., manque de temps, de structures et d'offres adaptés*) freinent le participant. Il sera intéressant d'intervenir et de discuter de ces barrières.

Annexe 5 : Questionnaires utilisés lors de l'étude 4

Mesure de l'acceptabilité : questionnaire de l'Unified Theory of Acceptance and Use of Technology (UTAUT2) (Venkatesh et al., 2003)

Performance attendue

- Je trouverais cette application utile dans ma vie quotidienne.
- Utiliser cette application m'aiderait à accomplir les choses plus rapidement.
- Utiliser cette application augmenterait ma productivité.

Effort attendu

- Apprendre comment utiliser cette application serait facile pour moi.
- Mon interaction avec cette application serait claire et compréhensible.
- Je trouverais cette application facile à utiliser.
- Il serait facile pour moi de devenir habile dans l'utilisation de cette application.

Influence sociale

- Les personnes qui sont importantes pour moi penseraient que je devrais utiliser cette application.
- Les personnes de mon entourage penseraient que je devrais utiliser cette application.
- Les personnes dont l'avis compte pour moi souhaiteraient que j'utilise cette application.

Conditions facilitatrices

- J'aurais les ressources nécessaires pour utiliser cette application.
- J'aurais les connaissances nécessaires pour utiliser cette application.
- Cette application serait compatible avec les autres technologies que j'utilise.

Motivation hédoniste

- Utiliser cette application serait amusant.
- Utiliser cette application serait agréable.
- Utiliser cette application serait divertissant.

Valeur marchande

- Cette application serait à un prix raisonnable.
- Cette application aurait un bon rapport qualité-prix.
- Au prix actuel, cette application vaudrait le coût.

Habitudes

- L'utilisation de cette application deviendrait une habitude pour moi.
- Je serais « accro » à l'utilisation de cette application.
- Je devrais utiliser cette application.

Intention comportementale

- J'aurais l'intention d'utiliser cette application dans le futur.
- J'essayerais d'utiliser cette application dans ma vie quotidienne.
- Je prévoirais d'utiliser fréquemment cette application.

Utilisabilité des applications pour la santé

- Les applications mobiles pour votre santé (gestion de l'alimentation, activité physique...).
- Les capteurs de santé (montres connectées, cardiofréquencemètre...).
- Les forums ou réseaux sociaux pour répondre à vos questions concernant votre santé.
- Les vidéos pour vous aider à mieux gérer votre santé (informations, coaching...).
- Les jeux vidéo actifs pour la gestion de votre vie physique (Wii Fit...).

Référence : Venkatesh, V., Thong, J. Y., & Xu, X. (2012). Consumer Acceptance and use of Information technology: Extending the unified theory of acceptance and use of technology. *Management Information Systems Quarterly*, 36(1), 157. <https://doi.org/10.2307/41410412>

Mesure de l'anxiété technologique : questionnaire Computer Anxiety Trait Subscale (CATS), items portant sur l'anxiété technologique (Gaudron & Vignoli, 2002)

Vous vous trouvez dans des situations où vous utilisez ou vous êtes sur le point d'utiliser des technologies pour la santé :

- Vous vous sentez contrarié.e
- Vous vous sentez tendu.e
- Vous vous sentez nerveux.se
- Vous vous sentez anxieux.se

Référence : Gaudron, J., & Vignoli, E. (2002). Assessing computer anxiety with the Interaction Model of Anxiety : Development and validation of the Computer Anxiety Trait subscale. *Computers in Human Behavior*, 18(3), 315-325. [https://doi.org/10.1016/s0747-5632\(01\)00039-5](https://doi.org/10.1016/s0747-5632(01)00039-5)

Annexe 6 : Questionnaires utilisés lors de l'étude 5

Mesure du niveau en activité physique : questionnaires sur l'activité physique de l'Étude de Santé sur l'Environnement, la Biosurveillance, l'Activité Physique et la Nutrition (ESTEBAN, Balicco et al., 2017)

Sédentarité

- Au cours des 7 derniers jours jusqu'à hier, combien de temps au total par jour as-tu regardé la télévision (DVD et cassettes vidéo compris) ?
- Au cours des 7 derniers jours jusqu'à hier, combien de temps au total par jour as-tu joué sur une console de jeux vidéo (Playstation, Xbox, Nintendo DS, PSP, PS Vita ... en excluant les jeux sur Wii ou Kinect) ?
- Au cours des 7 derniers jours jusqu'à hier, combien de temps au total par jour as-tu utilisé l'ordinateur ou le smartphone pour tes loisirs (Internet, Facebook, mails, MSN, jeux, vidéos, émissions...) ?

Activité physique

- La question qui suit porte sur l'activité physique que tu as eue pendant au moins 60 minutes consécutives de façon peu intense, et qui t'a fait ni transpirer ni respirer plus difficilement que normalement. Au cours des 7 derniers jours jusqu'à hier, combien y a-t-il eu de jours au cours desquels tu as eu une activité physique de ce type ?
- La question qui suit porte maintenant sur l'activité physique que tu as eue pendant au moins 40 minutes consécutives et qui t'a fait transpirer et respirer plus difficilement que normalement. Au cours des 7 derniers jours jusqu'à hier, combien y a-t-il eu de jours au cours desquels tu as eu une activité physique de ce type ?
- Au cours des 7 derniers jours jusqu'à hier, combien y a-t-il eu de jours au cours desquels tu as fait des exercices de musculation (pompes, abdominaux, altères, banc de musculation...) ?
- Au cours des 12 derniers mois, dans combien de clubs as-tu fait du sport ?
- Au cours des 7 derniers jours jusqu'à hier, combien y a-t-il eu de jours au cours desquels tu as eu cours d'éducation physique et sportive (EPS) au collège ou au lycée ?
- Pendant un cours d'éducation physique et sportive, combien de minutes as-tu été effectivement actif(ve), c'est-à-dire au cours desquelles tu as transpiré et respiré plus difficilement que normalement ?

Référence : Balicco, A., Oleko, A., Szego, E., Boschat, L., Deschamps, V., Saoudi, A., Zeghnoun, A., & Fillol, C. (2017). Protocole Esteban : une étude transversale de santé sur l'environnement, la biosurveillance, l'activité physique et la nutrition (2014–2016). *Toxicologie Analytique et Clinique*, 29(4), 517-537. <https://doi.org/10.1016/j.toxac.2017.06.003>

Mesure de la qualité de vie : questionnaire CFQ-R enfant, questionnaire CFQ-R 14 ans et plus (Henry et al., 2003)

CFQ-R enfant (Henry et al., 2003)

AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :

- Tu as pu marcher aussi vite que les autres.
- Tu as pu monter les escaliers aussi vite que les autres.
- Tu as pu courir, sauter, et grimper comme tu en avais envie.
- Tu as pu courir aussi vite et aussi longtemps que les autres.
- Tu as pu faire tous les sports que tu avais envie de faire (nager, le foot, la danse, ou autres).
- Tu as eu du mal à transporter ou à soulever des choses lourdes, comme des livres, ton cartable, ou un sac à dos.

AU COURS DE CES DEUX DERNIÈRES SEMAINES, PRÉCISE COMBIEN DE FOIS :

- Tu t'es senti(e) fatigué(e).
- Tu t'es mis(e) en colère.
- Tu as été grognon.
- Tu t'es senti(e) inquiet/inquiète.
- Tu t'es senti(e) triste.
- Tu as eu des difficultés à t'endormir.
- Tu as fait des mauvais rêves ou des cauchemars.
- Tu t'es senti(e) en pleine forme.
- Tu as eu du mal à manger.
- Tu as dû t'arrêter de jouer pour suivre ton traitement.
- On t'a forcé à manger.

AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :

- Tu as pu effectuer tous tes traitements.
- Tu as mangé avec plaisir.
- Tu as passé beaucoup de temps avec tes ami(e)s.
- Tu es resté(e) à la maison plus que tu ne l'aurais voulu.
- Tu te sens à l'aise pour dormir loin de chez toi (chez un(e) ami(e) ou un membre de ta famille ou ailleurs).
- Tu t'es senti(e) exclu(e).
- Tu as souvent invité des amis chez toi.
- D'autres enfants t'ont taquiné(e).
- Tu t'es senti(e) suffisamment à l'aise pour parler de ta maladie avec d'autres personnes (amis, enseignants).
- Tu pensais être trop petit(e).

- Tu pensais être trop maigre.
- Tu t'es senti(e) physiquement différent(e) d'autres personnes de ton âge.
- Le fait de suivre ton traitement t'embête.

DIS-MOI COMBIEN DE FOIS AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :

- Tu as toussé pendant la journée.
- Tu t'es réveillé(e) pendant la nuit parce que tu toussais.
- Tu as dû tousser pour faire sortir des crachats.
- Tu as eu du mal à respirer.
- Tu as eu mal au ventre.

CFQ-R 14 ans et plus (Henry et al., 2003)

Qualité de vie

AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES, DANS QUELLE MESURE AVEZ-VOUS EU DES DIFFICULTÉS :

- A vous livrer à des exercices énergiques (courir, pratiquer un sport, etc.).
- Pour marcher aussi vite que les autres.
- Pour porter ou à soulever des choses lourdes (cartable, un sac de courses).
- Pour monter un étage.
- Pour monter les escaliers aussi vite que les autres.

AU COURS DE CES DEUX DERNIÈRES SEMAINES, PRÉCISEZ COMBIEN DE FOIS :

- Vous vous êtes senti(e) en forme.
- Vous vous êtes senti(e) inquiet/inquiète.
- Vous vous êtes senti(e) inutile.
- Vous vous êtes senti(e) fatigué(e).
- Vous vous êtes senti(e) plein(e) d'énergie.
- Vous vous êtes senti(e) épuisé(e).
- Vous vous êtes senti(e) triste.

EN PENSANT À VOTRE ÉTAT DE SANTÉ AU COURS DE CES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :

- Dans quelle mesure vous avez du mal à marcher ?
- Comment vous sentez-vous vis-à-vis de la nourriture ?
- Dans quelle mesure vos traitements rendent-ils votre vie quotidienne plus difficile ?
- Combien de temps consacrez-vous chaque jour à vos traitements ?
- Dans quelle mesure vous est-il difficile de suivre vos traitements (y compris vos médicaments) chaque jour ?
- Quel est, à votre avis, votre état de santé actuel ?

AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :

- J'ai du mal à récupérer après un effort physique.
- Je dois limiter mes activités énergiques telles que la course ou les sports.
- Je dois me forcer pour manger.
- Je dois rester chez moi plus que je ne le voudrais.
- Je me sens suffisamment à l'aise pour parler de ma maladie avec d'autres.
- Je me sens trop maigre.
- J'ai l'impression de paraître différent(e) des autres personnes de mon âge.
- Je ne me sens pas sûr / sûre de moi à cause de mon apparence physique.
- Les gens ont peur que je sois contagieux/contagieuse.
- Je rencontre beaucoup mes amis.
- J'ai l'impression que ma toux gêne les autres.
- Je n'hésite pas à sortir le soir.
- Je me sens souvent seul(e).
- Je me sens en bonne santé.
- Il m'est difficile de faire des projets d'avenir (aller à l'université, me marier, progresser dans ma carrière, etc.).
- Je mène une vie normale.

École, travail ou activités quotidiennes

- Dans quelle mesure avez-vous eu du mal à vous tenir à jour dans votre travail scolaire, professionnels, ou d'autres activités quotidiennes au cours des deux dernières semaines ?
- Combien de fois avez-vous manqué l'école, vous êtes-vous absenté(e) du travail, ou n'avez-vous pas été en mesure de mener à bien vos activités quotidiennes au cours des deux dernières semaines à cause de votre maladie ou des traitements ?
- Avec quelle fréquence la mucoviscidose vous empêche-t-elle d'atteindre vos objectifs scolaires, professionnels ou occasionnels ?
- Avec quelle fréquence la mucoviscidose vous empêche-t-elle de faire vos courses habituelles ?

Difficultés symptomatiques

INDIQUEZ DANS QUELLE MESURE VOUS AVEZ RESENTI DES DIFFICULTÉS AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :











- Avez-vous eu du mal à prendre du poids ?
- Avez-vous été congestionné(e) ?
- Avez-vous toussé pendant la journée ?
- Avez-vous toussé pour faire sortir les crachats ?
- Vos crachats ont été surtout : clairs, clairs à jaunâtres, verdâtres, verdâtres avec du sang.

COMBIEN DE FOIS AU COURS DES DEUX DERNIÈRES SEMAINES :











- Avez-vous eu des sifflements ?
- Avez-vous eu du mal à respirer ?
- Vous êtes-vous réveillé(e) pendant la nuit parce que vous toussiez ?
- Avez-vous souffert de gaz ?
- Avez-vous eu de la diarrhée ?
- Avez-vous eu mal au ventre ?
- Avez-vous eu des problèmes pour manger ?

Référence : Henry B, Aussage P, Grosskopf C, Goehrs JM. Development of the Cystic Fibrosis Questionnaire (CFQ) for assessing quality of life in pediatric and adult patients. Qual Life Res. 2003;12(1):63–76.

I. Les raisons qui m'empêchent de faire régulièrement du sport sont que...

					
P H Y 1	<p>... j'ai du mal à respirer quand je fais du sport</p> 				
E N V 1	<p>... je préfère aller regarder la télévision ou jouer à des jeux vidéo plutôt que de faire du sport</p> 				
P S Y 1	<p>... je n'aime pas faire du sport</p> 				
P S Y 2	<p>... je n'aime pas le professeur de sport</p> 				
E N V 2	<p>... je n'ai pas le temps de faire du sport à cause de mes traitements</p> 				
P H Y 2	<p>... je suis trop fatigué(e) pour faire du sport</p> 				

II. Les raisons qui m'encouragent à faire régulièrement du sport sont que...

					
P S Y 1	... j'arrive à faire la même activité que les autres 				
P H Y 1	... le sport est bon pour ma santé et me fait me sentir bien 				
E N V 1	... je me fais des copains/copines quand je fais du sport 				
P H Y 2	... j'ai plus d'énergie quand je fais du sport 				
P S Y 2	... j'aime faire du sport 				
E N V 2	... ma famille me parle de faire du sport 				

L'équipe du LAMHESS te remercie de ta participation !

Annexe 8 : Livret de promotion de l'activité physique adaptée



ACTIVITÉ PHYSIQUE & MUCOVISCIDOSE

Les bénéfices de l'activité physique

Les freins et leviers liés à la pratique physique

Les actions inspirantes



OBJECTIFS

- > Sensibiliser aux bénéfices de l'activité physique
- > Présenter les freins et les facilitateurs à la pratique physique
- > Proposer des outils de mesure des freins et des facilitateurs à la pratique physique

SYMPTÔMES DE LA MUCOVISCIDOSE

- > Problèmes respiratoires
Toux, essoufflement, infections pulmonaires
- > Problèmes digestifs
Maldigestion, malabsorption, déshydratation
- > Taux élevé de sel dans les sueurs

COMORBIDITÉS

- > Diabète
- > Ostéopénie
- > Ostéoporose
- > Troubles métaboliques
- > Troubles système reproducteur

La mucoviscidose en quelques chiffres

1/3000
PERSONNES
DANS LE MONDE

7000
PERSONNES
EN FRANCE

1/4500
NAISSANCES
EN FRANCE

2000+
MUTATIONS
DIFFÉRENTES
IDENTIFIÉES





Les bénéfices liés à l'activité physique pour les patients atteints de mucoviscidose sont de trois types : physiologiques, psychosociaux et médicaux.

BÉNÉFICES

BÉNÉFICES PHYSIOLOGIQUES

- Développement des fonctions pulmonaires ¹, dès 30 minutes par jour d'activité physique d'intensité modérée à élevée ², avec sur le long terme un ralentissement du déclin du Volume Expiratoire Maximal par Seconde ³.
- Amélioration des capacités aérobiques et anaérobiques ⁴, de la capacité d'exercice, de l'endurance et de la masse musculaire ^{5,6}.
- Amélioration de la densité minérale osseuse ⁷.
- Amélioration des aspects nutritionnels, de la prise de poids ⁸, et stabilisation de l'IMC ⁹.
- Amélioration de l'état de santé physique général, avec une diminution de la fatigue ¹⁰, une augmentation de la vitalité ¹¹ et un allongement de l'espérance de vie ^{9,12}.

BÉNÉFICES PSYCHOSOCIAUX

- Renforcement des sentiments de bien-être général et d'estime de soi ¹³.
- Développement du sentiment de prise en charge de la maladie et de la perception du contrôle sur la mucoviscidose ¹⁴.
- Développement et renforcement des liens sociaux ¹¹.
- Effet bénéfique sur la qualité de vie ¹⁵.

BÉNÉFICES MÉDICAUX

- Diminution du nombre d'hospitalisations et de leur durée ².
- Diminution du nombre de médicaments ¹⁶.
- Diminution de l'apparition des comorbidités liées à l'avancée en âge ².



À RETENIR

L'activité physique permet de développer les capacités cardiopulmonaires et peut contribuer à réduire certains symptômes de la mucoviscidose, améliorant ainsi la qualité de vie des personnes touchées par la mucoviscidose.

FREINS & LEVIERS

Identifier les barrières et les facilitateurs liés à la pratique physique régulière chez les personnes atteintes de mucoviscidose

CHEZ LES ENFANTS DE 4 À 17 ANS

9 catégories de barrières et de facilitateurs à la pratique régulière de l'activité physique chez les enfants atteints de mucoviscidose ont été identifiées¹⁹, présentées dans le tableau suivant en fonction de leur nature :

	PHYSIQUES	PSYCHOLOGIQUES	ENVIRONNEMENTALES
BARRIÈRES & FACILITATEURS	<ul style="list-style-type: none"> > Fluctuations de santé 	<ul style="list-style-type: none"> > Perceptions de l'activité physique <i>Positives et négatives</i> > Valeur attribuée à l'activité physique <i>Forte ou faible</i> > Sentiment de normalité > Croyances en matière de contrôle de la maladie > Stratégies d'adaptation 	<ul style="list-style-type: none"> > Influences sociales <i>Rôle des parents, professionnels de santé et groupes d'amis</i> > Priorités concurrentes > Disponibilité des installations

CHEZ LES ADULTES

Les barrières et les facilitateurs à la pratique physique sont présentés dans le tableau suivant²⁰ en fonction de leur nature :

	PHYSIQUES	PSYCHOLOGIQUES	ENVIRONNEMENTAUX
FACILITATEURS	<ul style="list-style-type: none"> > Bénéfices respiratoires > Amélioration de la santé générale > Préparation à la greffe 	<ul style="list-style-type: none"> > Perceptions positive sde l'activité physique > Amélioration de l'estime de soi et du sentiment d'accomplissement 	<ul style="list-style-type: none"> > Soutien social > Disponibilité des infrastructures sportives
	BARRIÈRES	<ul style="list-style-type: none"> > Fatigue > Difficultés respiratoires 	<ul style="list-style-type: none"> > Perceptions négatives de l'activité physique > Manque de motivation et/ou d'intérêt envers l'activité physique > Manque de capacités physiques perçues

RECOMMANDATIONS EN ACTIVITÉ PHYSIQUE

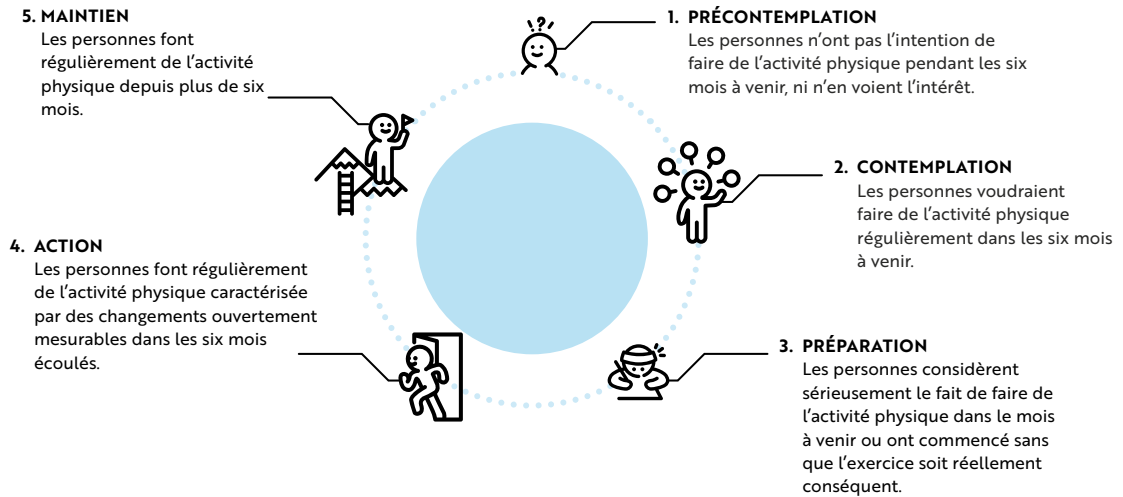
Pratiquer des activités aérobiques d'intensité modérée pendant au moins 20 minutes
*Course à pied, natation, cyclisme, fractionné en haute intensité*¹⁷.

L'activité physique doit être inscrite dès l'enfance, en considérant aussi bien les facteurs individuels (objectifs, préférences) que ceux interpersonnels (la famille, les amis) et environnementaux (disponibilité des installations)¹⁸.



**LE MODÈLE TRANSTHÉORIQUE
DU CHANGEMENT
DE COMPORTEMENT**


Le modèle transthéorique du changement de comportement²¹ est utilisé dans la promotion de la santé, y compris dans le domaine de l'activité physique. Il décrit cinq stades qui mettent en évidence le processus progressif et dynamique du changement de comportement, influencé par des stratégies mentales et comportementales, et par l'ambivalence entre les avantages perçus du comportement actuel et souhaité²². Ce modèle reconnaît également la possibilité de rechutes, considérée comme normales et comme des opportunités d'apprentissage.



LA BALANCE DÉCISIONNELLE

La balance décisionnelle est un modèle qui décrit le processus de prise de décision lorsque les individus sont confrontés à des choix difficiles, en évaluant les avantages et les inconvénients de chaque option, influençant ainsi leur décision finale.

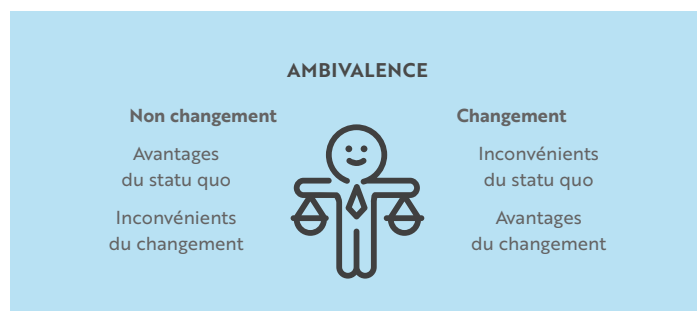
Ce concept a été appliqué au domaine des activités physiques et sportives pour comprendre comment les individus évaluent les bénéfices et les coûts de l'engagement dans l'activité physique, ce qui peut influencer leur motivation et leur décision de s'engager ou non dans cette pratique²³.



À RETENIR

Le changements du comportement est influencé par des stratégies mentales et comportementale sur lesquelles il est possible d'intervenir.

La promotion des bénéfices de l'activité physique et l'identification des barrières à l'échelle individuelle peut aider à adopter une pratique régulière d'activité physique sur le long terme.



Dans le contexte de la mucoviscidose, connaître le stade de changement comportemental d'un patient vis-à-vis de ses comportements sédentaires et de l'activité physique permet de déterminer si le moment est propice pour encourager des changements vers des habitudes plus actives et d'identifier les freins et les facilitateurs à adopter des habitudes en activité physique. Cela peut également aider à prévenir les rechutes vers des comportements sédentaires chez les personnes en phase de maintien²³.

**ACTIONS
INSPIRANTES**



**La promotion de l'activité physique au sein
des Centres de Ressources et de Compétences
de la Mucoviscidose de Roscoff et de Giens**

LES PRINCIPAUX ACTEURS

Parmi les professionnels de santé qui ont développé une coordination autour des patients en activité physique et de leur suivi, on retrouve notamment :

- > **Les Enseignants en Activités Physiques Adaptées (EAPA)**
Conception du programme et des séances, accompagnement et gestion de la pratique, et suivi et adaptation du programme.
- > **Les kinésithérapeutes**
Kinésithérapie respiratoire classique combinée à des exercices physiques pour mobiliser le système respiratoire dans le but de le désencombrer, encouragement de la pratique d'activité physique pour renforcer les capacités aérobiques (danse, marche, etc.).
- > **Les médecins**
Le dialogue lors des consultations est primordial : apporter des connaissances sur les capacités aérobiques et les bienfaits généraux et spécifiques de l'activité physique, rassurer les patients sur leurs capacités physiologiques, (valeurs de fréquence cardiaque, saturation en oxygène, etc.), et les diriger vers les EAPA de la structure.
- > **Les infirmières et infirmières coordinatrices**
Rôle dans le conseil et l'écoute, coordination des soins avec les différents acteurs de santé, gestion du planning des patients afin qu'ils puissent rencontrer l'ensemble des professionnels de santé.

LES PARTENAIRES

Les partenaires sont de taille et d'influence différentes :

- > **L'association Vaincre la mucoviscidose**
Aides financières pour la participation sportive des patients (matériel à domicile des patients ou au sein des CRCM), financement partiel ou total du salaire d'un EAPA dédié au CRCM.
- > **L'association Grégory Lemarchal**
Financement de recherches, matériels et équipements améliorant le confort des patients.
- > **L'association Étoiles des Neiges**
Financement de postes d'EAPA, de matériel sportif ou d'inscriptions au sein de clubs sportifs, mise en place d'un réseau d'EAPA spécialisés dans la mucoviscidose, cours d'activité physique adaptée en visio-conférence.
- > **Les kinésithérapeutes de ville**
Kinésithérapeutes « relais » assurant le suivi quotidien des soins auprès des patients.
- > **Les clubs et associations de patients au niveau local**
Organisation d'évènements dans le but de lever des fonds pour mener des actions de promotion de l'activité physique.

COMPÉTENCES NÉCESSAIRES À LA PROMOTION DE L'ACTIVITÉ PHYSIQUE

Des compétences pour les professionnels de santé sont requises pour assurer une bonne promotion de l'activité physique :

- > **Être à l'écoute des patients**
Amener chaque patient à pratiquer tout au long de l'année une activité régulière qui correspond à leurs capacités et à leurs goûts.
- > **Rendre acteur de leur prise en charge les patients**
Les faire participer à différents ateliers, les amener à tester leurs capacités.
- > **Favoriser les rencontres et les échanges**
Amener les patients à communiquer entre eux et avec l'équipe médicale sur leur maladie et leur pratique physique.
- > **Une prise en charge en activité physique optimale**
Amener les patients à rencontrer, si besoin, des EAPA leur permettant de créer un programme sur-mesure et assurant un suivi régulier.
- > **L'accès à des aides leur permettant de pratiquer une activité physique régulière**
Mise en relation avec des partenaires pouvant, si besoin, financer partiellement ou en totalité le matériel nécessaire à la pratique physique régulière.



À RETENIR

Tous les professionnels de santé ont un rôle à jouer dans la promotion de l'activité physique : écoute, échanges, orientation.

La pluridisciplinarité des équipes médicale est une force, et les partenaires en dehors du cadre médical le sont tout autant.

MOMENTS FAVORABLES À LA PROMOTION DE L'ACTIVITÉ PHYSIQUE DANS LES CRCM

Bilan trimestriel
Échanges verbaux autour de l'activité physique, d'autant plus importants lors des périodes de transition (entrée à l'école, au collège, au lycée, dans la vie professionnelle, etc.).

Séance collective avec l'EAPA
Échanges verbaux entre les patients, effet de groupe qui stimule le collectif.



OUTILS

Outils de mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique

MUCO_BDEX

Le MUCO_BDEX24 est un outil psychométrique de mesure de la balance décisionnelle en activité physique spécifique aux personnes atteintes de mucoviscidose, dès 18 ans.

Il est composé de 23 items : 10 items pour mesurer les leviers à la pratique, et 13 pour mesurer les barrières à la pratique.

Pour consulter et télécharger la version PDF du MUCO_BDEX, vous pouvez vous rendre sur le site du LAMHES dans la rubrique « instruments de mesure » puis « outils psychométriques » en cliquant sur le lien suivant : <https://lamhess.univ-cotedazur.fr/a-propos-du-lamhess/instruments-de-mesure/echelles-psychometriques-1>

Vous pouvez également y accéder en scannant le QR code ci-contre.



MUCO_BALAD

L'application numérique MUCO_BALAD est une version informatisée du questionnaire MUCO_BDEX. Elle est accessible pour les personnes atteintes de mucoviscidose, les professionnels de santé spécialisés dans la mucoviscidose ainsi que les chercheurs des domaines des sciences du mouvement humains spécialisés dans la mucoviscidose.

Une vidéo de présentation de l'application numérique MUCO_BALAD est disponible sur le lien suivant : <https://youtu.be/RK3O5hfSMdQ>

La vidéo est également disponible en scannant le QR code ci-contre.

Pour vous créer un compte, vous devez contactez les administrateurs de l'application numérique MUCO_BALAD via l'adresse électronique suivante : raphaelle.ladune@univ-cotedazur.fr



BIBLIOGRAPHIE

¹Bradley & Moran, 2008 – ²Cox et al., 2016 – ³Schneiderman et al., 2014 – ⁴Klijnn et al., 2004 – ⁵Gruet et al., 2013 – ⁶Gruet et al., 2015 – ⁷Gennari & Fuchs, 2016 – ⁸Collaco et al., 2014 – ⁹Hebestreit et al., 2014 – ¹⁰Orava et al., 2018 – ¹¹Swisher & Erickson, 2008 – ¹²Fogarty et al., 2012 – ¹³De Jong et al., 1997 – ¹⁴Prasad & Cerry, 2002 – ¹⁵Radtke et al., 2017 – ¹⁶Urquhart et al., 2012 – ¹⁷Saynor et al., 2022 – ¹⁸Gruet et al., 2022 – ¹⁹Denford et al., 2019 – ²⁰Ladune et al., 2021 – ²¹Prochaska et Di Clemente en 1983 – ²²Burkholder & Nigg, 2002 – ²³Eeckout et al., 2013 – ²⁴Filieuil et al., 2021

CONCLUSION

L'activité physique apporte de nombreux bénéfices chez les personnes atteintes de mucoviscidose, comme d'améliorer la fonction pulmonaire et l'estime de soi, ou encore de favoriser les interactions sociales positives et une meilleure qualité de vie globale.

Afin de mieux promouvoir l'activité physique chez ce public, le modèle socio-écologique de la santé invite à agir aussi bien sur les individus eux-mêmes que sur leurs environnements.

Au niveau individuel, les outils de mesure de la balance décisionnelle permettent de cibler les barrières et les facilitateurs à la pratique physique d'une manière individualisée en vue de développer un programme personnalisé d'activité physique adaptée.

Au niveau interpersonnel, les moments d'échange et de pratique collective sont les éléments clés pour susciter la motivation à pratiquer.

Au niveau institutionnel, une communication active entre les différents membres de l'équipe pluridisciplinaire et les patients est inéluctable à la promotion de l'activité physique.

Au niveau politique de l'établissement, la création d'un environnement promouvant la pratique physique est cruciale pour en assurer sa promotion.

La réalisation de ce livret est l'aboutissement du travail doctoral en sciences du mouvement humain de Raphaëlle Ladune, codirigée par les Professeurs F d'Arripe-Longueville et A Vuillemin à l'Université Côte d'Azur.

Ce travail a été principalement financé par l'Association Gregory Lemarchal.

La réalisation de l'application MUCO_BALAD a été rendue possible grâce à un financement complémentaire de Vaincre la Mucoviscidose.



CONTACT

Raphaëlle LADUNE - Doctorante
raphaëlle.ladune@univ-cotedazur.fr

ÉCOLE UNIVERSITAIRE DE
RECHERCHE HEALTHY
Écosystèmes des Sciences de la Santé

Promotion de l'Activité Physique Adaptée chez les patients atteints de Mucoviscidose

Approche socio-écologique et mesure de la balance décisionnelle pour
l'activité physique

Raphaëlle LADUNE

Laboratoire Motricité Humaine Expertise Sport Santé (LAMHESS – UPR 6312)

Résumé. L'activité physique adaptée est une thérapie recommandée chez les personnes atteintes de mucoviscidose. Si de nombreux bénéfices à la pratique ont été relevés, la pratique physique reste en-dessous des recommandations en vigueur, et les mécanismes de l'engagement dans la pratique physique ont été peu explorés. L'objectif de cette thèse est de contribuer à la définition de stratégies de promotion de l'activité physique et de l'activité physique adaptée, et à la conception d'outils pratiques visant à améliorer l'évaluation de la motivation des patients envers la pratique physique.

Ce travail doctoral a apporté de nouvelles connaissances sur les facteurs de l'engagement dans l'activité physique et à la définition de modalités de promotion de l'activité physique chez les personnes atteintes de mucoviscidose. Il a également permis l'élaboration d'outils de mesure de la balance décisionnelle pour l'activité physique, adaptés aux spécificités des personnes atteintes de mucoviscidose.

Abstract. Adapted physical activity is a therapy recommended for people with cystic fibrosis (pwCF). Although a number of benefits have been identified, adapted physical activity levels remain below current recommendations, and the mechanisms of engagement in PA have been little explored. The aim of this thesis is to contribute to the definition of strategies for promoting physical activity and adapted physical activity and to the design of practical tools aimed at improving the assessment of pwCF' motivation towards adapted physical activity.

This doctoral work contributed to the production of new scientific knowledge on the factors influencing commitment to physical activity and to the definition of ways of promoting adapted physical activity in pwCF. It has also led to the development of tools for measuring the decision balance for adapted physical activity, adapted to the specific needs of pwCF.