



HAL
open science

Les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale, prévention et repérage en médecine générale : une recherche action

Sébastien Leruste

► To cite this version:

Sébastien Leruste. Les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale, prévention et repérage en médecine générale : une recherche action. Médecine humaine et pathologie. Université de la Réunion, 2024. Français. NNT : 2024LARE0012 . tel-04808154

HAL Id: tel-04808154

<https://theses.hal.science/tel-04808154v1>

Submitted on 28 Nov 2024

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

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

THESE DE DOCTORAT

de l'UNIVERSITE de LA REUNION

Ecole doctorale Sciences Technologies Santé
Spécialité médecine générale

Présentée par M. Sébastien Leruste
Le jeudi 24 octobre 2024

Pour l'obtention du grade de Docteur de l'Université

Les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale, prévention et repérage en médecine générale : une recherche action

Unité de recherche : INSERM CIC-EC 1410, CHU de La Réunion
BP350, 97448, Saint-Pierre Cedex, La Réunion, France.

Composition du jury

Frédérique SAUVAT	Professeure, Université La Réunion	Examinatrice
Silvia IACOBELLI	Professeure, Université La Réunion	Examinatrice
Alain MERCIER	Professeur, Université Paris Sorbonne	Examineur
Nassir MESSAADI	Professeur, Université Lille	Rapporteur
Xavier GOCKO	Professeur, Université Saint Etienne	Rapporteur
Catherine MARIMOUTOU	Professeure, Université de La Réunion	Directrice

Invité

Michel SPODENSKIEWICZ	Maître de Conférences, Université La Réunion	Co-directeur
-----------------------	--	--------------

Résumé et mots clefs

CONTEXTE

Les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale (TSAF) sont la première cause évitable de déficience intellectuelle d'origine non génétique. Le médecin généraliste (MG) est en première ligne de la prévention et du repérage des TSAF. Alors que la prévalence des TSAF y serait la plus élevée en France, des insuffisances dans le repérage des consommations d'alcool notamment chez les femmes enceintes, une faible adhésion des MG aux formations proposées sur les TSAF ont été soulevés par l'Agence régionale de santé.

OBJECTIF

L'objectif était de comprendre les leviers et les barrières des MG à la prévention et au repérage des TSAF et de mettre en place des actions pour renforcer ces pratiques.

METHODE

Une recherche action a été construite. Pour sa 1^{ère} étape d'état des lieux, une revue narrative de la littérature a été réalisée, complétée par deux études qualitatives adoptant une approche par théorisation ancrée auprès des MG de La Réunion. La modélisation issue de ces études a permis de passer à la 2^{ème} étape, l'élaboration des actions par une méthode de consensus par ronde Delphi. La mise en place des actions est en cours et leurs évaluations seront la prochaine étape.

RESULTATS

L'état des lieux a permis d'identifier 23 actions ayant bénéficié d'une évaluation fondée sur les preuves portant sur la prévention, le repérage, le dépistage, le diagnostic d'un TSAF. Le malaise des MG face à l'abondance de l'alcool, en particulier chez la femme, était un frein à prévenir et à repérer les TSAF. Ils se sentaient par contre aptes à repérer les troubles du neurodéveloppement. Ces éléments ont permis l'élaboration des actions de prévention et de repérage par consensus à partir de 24 actions potentielles aboutissant à 11 actions consensuelles. Quatre actions ont pu être mises en place.

Le retour vers les participants, dernière étape de la recherche action a commencé par une communication auprès des experts du panel de la ronde Delphi.

DISCUSSION

Cette recherche action a un rôle de modèle de recherche ancrée dans le terrain visant à répondre à une problématique locale prioritaire de santé publique. Cette méthode est transférable aux problématiques de repérage et de prévention d'autres problématiques de santé publique à la médecine générale. D'autres recherches actions similaires devraient être menées en soins primaires en lien avec les problématiques locales de santé. Elles seraient complémentaires à un essai randomisé en grappe autour de la formation des médecins généralistes à la prévention et le repérage.

Médecine générale, Troubles causés par l'alcoolisation fœtale, Prévention, repérage, Île de la Réunion, Recherche Action

Abstract and key words

BACKGROUND

Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD) is the leading preventable cause of non-genetic mental retardation. General practitioners (GPs) are at the forefront of prevention and detection of FASD. While the prevalence of FASD in the region is said to be the highest in France, the regional health agency has pointed to shortcomings in the detection of alcohol consumption, particularly among pregnant women, and low participation of general practitioners in training courses on FASD.

OBJECTIVE

The aim was to understand the levers and barriers GPs face in preventing and identifying FASD, and to take action to strengthen these practices.

METHOD

An action research project was carried out. For its 1st stage, a narrative review of the literature was carried out, supplemented by two qualitative studies adopting a grounded theorizing approach with GPs. The modeling resulting from these studies enabled us to move on to the 2nd stage, the development of actions using a Delphi round consensus method. The actions are currently being implemented.

RESULTS

The review identified 23 scientifically evaluated actions in the fields of prevention, detection, screening and diagnosis of FASD. GPs' discomfort in dealing with alcohol, particularly in women, was an obstacle to preventing and identifying FASD. They felt able to identify neurodevelopmental disorders. These factors led to the development of prevention and detection actions by consensus on 24 actions, resulting in 11 consensual actions.

Four actions have been implemented.

Feedback to the participants, the final stage of the action research, began with a communication to the experts on the Delphi round panel.

DISCUSSION

This action research project serves as a model for field-based research aimed at responding to a priority local public health issue. This method is transferable to the identification and prevention of other public health issues to general practice. Similar action research should be carried out in

other local public health issues in primary care. They would be complementary to a cluster randomized trial focusing on training GPs in prevention and detection.

General medicine, Fetal Alcohol Spectrum Disorder, Prevention, Screening, Reunion Island.
Research action.

Remerciements

Madame Frédérique SAUVAT, tu es experte dans la prise en soin des enfants sur le versant chirurgical. Je suis très honoré que tu juges ce travail. Sois assurée de ma profonde reconnaissance de ton implication au service des patients et de leur famille.

Madame Silvia IACOBELLI, ta connaissance de la prise en soin des nouveaux nés et des enfants te place *de facto* comme experte pour juger de mon travail. Je t'en suis très reconnaissant. Sois assurée de mon profond respect pour ton expertise.

Monsieur Alain MERCIER, cher Alain par ton expertise développée depuis plusieurs années en recherche qualitative et ton accompagnement dans le développement de mon expertise, tu es un exemple pour moi. Sois assuré de ma gratitude pour ta participation à ce jury.

Monsieur Nassir MESSAADI, cher Nassir en tant qu'enseignant chercheur dans l'unité INSERM de neurosciences et cognition de Lille, tu as toute ta place pour rapporter et juger ce travail. Ton parcours universitaire m'a stimulé tout au long de mon parcours. Sois assuré de ma reconnaissance sincère.

Monsieur Xavier GOCKO, je te remercie d'avoir accepté de participer à mon jury. Tu m'accompagnes depuis le Master 2 à Saint-Étienne, et je profite de ton expertise dans la prévention et le repérage. Je te suis très reconnaissant d'avoir accepté d'être rapporteur de mon travail, soit assuré de mon profond respect de ton expertise

Madame Catherine MARIMOUTOU, chère Catherine, sois assurée de ma profonde gratitude pour ta guidance, tes retours constructifs, tes conseils précieux et ta relecture attentive. Je te suis très reconnaissant de ton aide dans la construction, la réalisation et la finalisation de ce travail de recherche.

Monsieur Michel SPODENKIEWICZ, cher Michel, tu m'as fait confiance en acceptant d'être mon encadrant de thèse, ton expertise en tant que pédopsychiatre, ton expertise sur les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale et en recherche qualitative ont permis de me guider dans cette recherche action. Notre rencontre professionnelle a été un tournant majeur dans ma carrière d'enseignant chercheur au sein de la Faculté de Santé de La Réunion.

Madame Isabelle AUBIN AUGER, monsieur Loïc RAFFRAY, monsieur Médéric DESCOINS, je vous remercie sincèrement pour vos participations à mes comités de suivi de thèse durant ces quatre années. Votre guidance, vos conseils pertinents et appropriés, vos encouragements m'ont accompagné pour réaliser cette recherche action selon les critères scientifiques requis.

Madame la Doyenne, Bérénice DORAY-ROY, je tiens à exprimer ma profonde reconnaissance pour ton soutien et tes encouragements durant ce parcours de recherche. Nos discussions et nos échanges m'ont permis d'appréhender au mieux mon sujet de recherche. Ton expertise des troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale a été une source constante d'inspiration. J'éprouve une grande fierté de te compter parmi les auteurs de mes quatre publications issues de cette recherche.

Monsieur Jean-Marc FRANCO, cher Jean-Marc, je tiens à exprimer toute ma reconnaissance de m'avoir permis d'intégrer le Département universitaire de médecine générale de la Faculté de La Réunion il y a tout juste 10 ans. Merci pour ta confiance et ton accompagnement constant.

À tous les participants de cette recherche action, sans vous cette étude n'aurait pu être réalisée dans d'aussi bonnes conditions et d'avoir un tel résultat.

A Corinne, mon tout, mon astre, ton soutien a été indéfectible durant toute cette recherche. Tu m'as soutenu, supporté, et même porté parfois. Je te dédie ainsi qu'à nos trois enfants merveilleux, Philomène, Apolline et Balthazar, cette recherche qui par son effet Hawthorne modifiera la consommation d'alcool des personnes.

A ma famille et ma belle-famille toujours présentes. Vous êtes des soutiens inébranlables.

A tous mes amis d'ici et d'ailleurs. Merci d'être vous-même.

A tous mes collègues, locaux, nationaux et internationaux, nos collaborations, nos échanges, nos rencontres, vos encouragements, votre aide précieuse durant toutes ces années me sont précieux.

Aux gestionnaires de la Faculté, qui, par votre aide sur différents aspects de cette recherche m'ont aidé dans sa réalisation. Soyez-en remerciés.

Table des matières

Résumé et mots clefs	1
Abstract and key words	3
Table des matières	8
Table des figures	11
Abréviations	12
1. Préambule	14
2. Contexte.....	14
2.1. Historique	14
2.2. Définition.....	20
2.3. Épidémiologie	24
2.3.1. La consommation de l'alcool et ses conséquences	24
2.3.2. Prévalence TSAF.....	28
2.4. Physiopathologie	30
2.5. Le diagnostic	33
2.6. Les préventions.....	37
2.6.1. La prévention primaire	37
2.6.2. La prévention secondaire.....	37
2.6.3. La prévention tertiaire	38
2.7. L'organisation de la prise en soin des TSAF en médecine générale à La Réunion	39
2.7.1. Repérage en médecine générale : repérage précoce et intervention brève (RPIB)	39
2.7.2. Les ressources locales à disposition du médecin généraliste	40
3. Introduction	42
3.1. Les soins primaires	42
3.1.1. A l'international	42
3.1.2. En Europe	42
3.1.3. En France.....	42
3.1.4. A La Réunion	43
3.2. La médecine générale et le médecin généraliste	44
3.3. La prévention et le repérage	44

3.4.	La recherche en soins primaires	45
3.4.1.	Définition.....	45
3.4.2.	Le développement de la recherche en soins primaires	45
3.4.3.	Les Communautés professionnelles territoriales de santé.....	47
3.4.4.	Les Maisons de santé pluriprofessionnelles universitaires.....	48
3.5.	La recherche action	49
3.5.1.	Définition.....	49
3.5.2.	Spécificités	50
3.6.	Choix méthodologique	51
3.7.	La Réunion région pilote.....	51
3.8.	Objectif de la recherche action.....	52
4.	Résultats	53
4.1.	État des lieux	53
4.1.1.	La revue de la littérature.....	53
4.1.1.1.	Objectif et méthode	53
4.1.1.2.	Article 1	54
4.1.2.	Comprendre la prévention en médecine générale	72
4.1.2.1.	Introduction	72
4.1.2.2.	Objectif et méthode	72
4.1.2.3.	Article 2.....	73
4.1.3.	Comprendre le repérage en médecine générale.....	81
4.1.3.1.	Introduction	81
4.1.3.2.	Objectif et méthode	81
4.1.3.3.	Article 3.....	82
4.1.4.	État des lieux : Discussion.....	93
4.2.	Définir les actions de prévention et de repérage de TSAF à La Réunion	94
4.2.1.	Introduction	94
4.2.2.	Objectif et méthode	94
4.2.3.	Article 4.....	95
4.2.4.	Résultat principal.....	106
4.3.	Mise en place des actions	107

4.3.1.	Action N° 1 : La consultation pré-conceptionnelle	107
4.3.2.	Action N° 3 : Concevoir des formations TSAF à destination des médecins généralistes dans le cadre des formations sur les Troubles du neurodéveloppement (TND). 108	
4.3.3.	Action N° 6 : Au cours de la prescription d'acide folique en pré-conceptionnel ou en début de grossesse, donner un document d'information sur l'alcoolisation fœtale.....	108
4.3.4.	Action N° 7 : distribuer aux médecins généralistes un document sur le repérage des enfants atteints de SAF ou de TSAF avec les coordonnées des associations.	109
4.4.	Évaluation des actions	109
4.5.	Retour vers les participants et vers la communauté des soignants	111
5.	Discussion	111
5.1.	Discussion générale.....	111
5.1.1.	Résultats principaux et comparaison avec la littérature	111
5.1.2.	La recherche action : rôle de modèle et modèle de rôle ?	119
5.1.3.	Difficultés diagnostiques et nosologiques	124
5.1.4.	La prévention.....	124
5.1.5.	Le repérage	125
5.2.	Forces	126
5.3.	Limites.....	128
5.4.	Perspectives et conclusion.....	130
6.	Références bibliographiques	133
7.	Travaux ancillaires	146
7.1.	Le tabou de l'alcool au féminin.....	146
7.2.	Les représentations des couples en âge de procréer et des professionnels de santé à propos de la responsabilité masculine par rapport au TSAF.....	147
7.3.	Caractéristiques des pères d'enfants atteints de TSAF	147
7.4.	Comment les médecins généralistes prennent-ils en soin les patients adultes atteints d'un trouble de l'alcoolisation fœtale ?.....	148
7.5.	Neurofeedback et TSAF.....	148
8.	Valorisation des travaux TSAF.....	148
8.1.	Communications orales congrès internationaux.....	148
8.2.	Communications orales congrès nationaux.....	148

Table des figures

Figure 1 : Publicité pour la Root beer à 2,5 degrés d'alcool (1900)

Figure 2 : Publicité de la bière Blatz (1900)

Figure 3 : Pictogramme zéro alcool

Figure 4 : Syndrome d'alcoolisation fœtale : caractéristiques de la dysmorphie

Figure 5 : Institute of Medicine (1996) : critères de diagnostic des TNDLA

Figure 6 : Prévalence de l'usage de l'alcool durant la grossesse en population générale d'après Popova et al 2023.

Figure 7 : Prévalence mondiale des TSAF d'après Popova et al 2023

Figure 8 : Effets d'une exposition à l'alcool en fonction de la période de développement des différents organes et de leur sensibilité (INSERM)

Figure 9 : Structures, professionnels de santé et médico-sociaux autour de la prise en soin des TSAF

Figure 10 : Carte de l'exercice coordonné des CPTS à La Réunion

Figure 11 : Modélisation des rôles et fonctions du médecin généraliste et TSAF

Figure 12 : Modélisation de la recherche action TSAF

Abréviations

ALCA : Anomalies congénitales liées à l'alcool

ARS-OI : Agence régionale de santé de l'océan Indien

AUDIT : Alcohol Use Disorders Test

CAGE : Cut-down, Annoyed, Guilty, Eye-opener

CAMSP : Centres d'action médico-sociale précoce

CHU : Centres hospitaliers universitaires

CIC : Centres d'investigation clinique

CMPEA : Centre Médico-Psychologique Enfant et Adolescent

CMPP : Centre Médico-Psycho-Pédagogique

CNGE : Collège des généralistes enseignants

CPTS : Communautés professionnelles territoriales de santé

CSAPA : Centres de soins, d'accompagnement et de prévention en addictologie

DRCI : Direction de la recherche clinique et de l'innovation

DSM-5 : Diagnostic and Statistical Manual 5th edition

DUMG : Département universitaire de médecine générale

DES : Diplôme d'étude spécialisée

DRASS : Direction régionale des affaires sanitaires et sociales

ECN : Épreuves classantes nationales

EEG : Électro-encéphalogramme

ETCAF : Ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foétale

FASD : Fetal Alcohol Spectrum Disorder

HAS : Haute Autorité de santé

HPST : Hôpital patient santé territoire

IMP : Institut Médico-Pédagogique

INSERM : Institut national pour la santé et la recherche médicale

MG : Médecin généraliste

MILDECA : Mission interministérielle de lutte contre les drogues et les conduites addictives

MSP : Maison de santé pluriprofessionnelle

MSPU : Maison de santé pluriprofessionnelle universitaire

ND-PAE : Neurobehavioral Disorder associated with Prenatal Alcohol Exposure traduit par trouble neurocomportemental associé à l'exposition prénatale à l'alcool

OMS : Organisation mondiale de la santé

ORS : Observatoire régional de la santé

PCO : Plateforme de Coordination et d'Orientation

PJJ : Protection judiciaire de la jeunesse

PMI : Protection maternelle et infantile

QI : Quotient intellectuel

RéCAP : Réseau de recherche en épidémiologie clinique et en santé publique

Réseau RePère : Réseau périnatal Réunion

REUNISAF : Réseau de prévention du syndrome d'alcoolisation fœtale

RPIB : Repérage précoce et intervention brève

SAF : Syndrome d'alcoolisation fœtale

SAFp : Syndrome d'alcoolisation fœtale partiel

SAOME : Réseau Santé addiction Outre-mer

SESSAD : Service d'éducation spéciale et de soins à domicile

T-ACE : Tolerance, Annoy, Cut Down, Eye opener (Tolérance, agacer, réduire, ouvrir les yeux)

TND : Trouble du neurodéveloppement

TNLA : Trouble neurodéveloppemental lié à l'alcool

TSAF : Troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale

TWEAK : Tolerance, Worry, Eye-opener, Amnesia and Cut down on drinking (Tolérance, inquiétude, ouverture des yeux, amnésie et réduction de la consommation d'alcool)

WONCA : World Organization of Family Doctor (Organisation mondiale des médecins de famille)

1. Préambule

Acteur de terrain, le médecin généraliste de par ses fonctions, sa formation et ses compétences, est amené à mettre en place des actions de prévention et de repérage.

Ces actions de prévention et de repérage prennent un temps supplémentaire par rapport aux temps dédiés aux soins curatifs. Or, la structuration actuelle du système de soins privilégie les soins curatifs au détriment de la prévention (1, 2). Les actions de prévention et de repérage permettent cependant d'apporter des bénéfices aux personnes en termes de santé et pour la population en termes médico-sociaux économiques.

Les troubles du neurodéveloppement sont pluriels, et parmi eux les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale touchent de façon fréquente la population réunionnaise exposée à la consommation d'alcool. Les troubles du neurodéveloppement doivent faire l'objet d'actions de prévention et repérage.

Pour aborder cet objet des TSAF en médecine générale, une approche type recherche action a été choisie, permettant ainsi d'être ancré dans la réalité de terrain. Ce modèle méthodologique en cinq étapes permet d'établir un état des lieux, d'élaborer des actions, de les mettre en place, de les évaluer et de revenir vers les acteurs de terrain afin de vérifier la pertinence de ces actions et d'enclencher une nouvelle recherche action.

2. Contexte

2.1. Historique

Depuis des siècles, le lien entre l'exposition à l'alcool de la mère et les conséquences défavorables pour la grossesse et l'enfant est suspecté. Plusieurs textes anciens mettent en garde contre la consommation d'alcool, comme celui d'Aristote : « *Les femmes stupides, saoules et écervelées donnent naissance à des enfants leur ressemblant, renfrognés et paresseux* », ou la Bible, Samson fut mis en garde par sa mère « *ne bois ni vin, ni boisson fermentée, car tu vas concevoir un fils* » (3).

En France au 17^{ème} siècle, Molière écrivait dans la pièce Amphitryon scène 3 : « *les médecins disent quand on est ivre que de sa femme on doit s'abstenir et que dans cet état il ne peut provenir que des enfants pesants et qui ne sauraient vivre* » mettant en cause l'alcoolisation paternelle (4).

En Angleterre en 1725, le Collège royal des médecins précisait que « *les enfants nés de mères consommant du Gin sont difformes, faibles et débiles* ». Dans un rapport publié en 1834, la Chambre des communes indiquait que « *les mères alcooliques tendent à mettre au monde des bébés qui semblent mal nourris, malingres et difformes* ».

En France, en 1865, le Docteur Lancer remarquait que « *les enfants de parents alcooliques, lorsqu'ils ne décèdent pas en bas-âge, présentent des caractéristiques crâniofaciales et comportementales particulières* ». Même si le lien physique entre la mère et le fœtus était ignoré, la culpabilité incombait non pas au produit mais au comportement déviant de la femme.

La mise en évidence de ce lien a mis du temps à se révéler. Une étude menée en 1899 par Sullivan en Grande Bretagne sur 600 enfants de mères ayant un trouble des usages de l'alcool, a établi une plus forte morbi mortalité en lien avec les effets potentiellement tératogènes de l'alcool (5). Le biochimiste français Maurice Nicloux a montré en 1900 que la concentration d'alcool dans le sang maternel était identique dans le sang fœtal (6).

Aux États-Unis d'Amérique, la fin de la prohibition entraînait la diminution de ce champ de recherche auprès des scientifiques. A travers le monde, de nombreux médecins faisaient la promotion de l'alcool car sans danger et même favorable pour la relaxation, le sommeil, la tocolyse et pour son apport calorique durant la grossesse. Ce dernier était considéré par certains médecins comme problématique (7). Les boissons fermentées étaient conseillées dans les campagnes publicitaires pour leur qualité nourrissante pour les jeunes enfants (figure 1 et 2).



Figure 1 : Publicité pour la Root beer à 2,5 degrés d'alcool (1900)



Figure 2 : Publicité de la bière Blatz (1900)

La psychiatre française Jacqueline Rouquette a été en 1957, la première à décrire dans sa thèse que les enfants nés de mères alcooliques présentaient des traits morphologiques similaires. En 1968, le pédiatre Paul Lemoine a décrit un groupe de caractères physiques et comportementaux communs chez 127 enfants. Il faisait le lien très clairement avec la consommation d'alcool maternelle et les conséquences que sont les caractéristiques morphologiques faciales avec des dysmorphies, un retard de croissance sévère et un retard psychomoteur (8). Ces caractéristiques définissaient ce qui deviendra le syndrome d'alcoolisme puis alcoolisation fœtale. Même si ces conclusions ont été publiées en 1968, ce ne sera qu'en 1984 qu'elles seront reconnues et récompensées par le prix Jellinek. Les malformations causées par la consommation d'alcool au cours de la grossesse ont été collectées par le pédiatre Philippe Dehaene en 1970 (7).

Plus tard, aux États-Unis, Jones et Smith publiaient en 1973 un article sur l'expression des conséquences de l'alcool à propos de huit cas (9). L'expression « syndrome d'alcoolisme fœtal » apparaît dans la littérature médicale pour devenir ensuite le syndrome d'alcoolisation fœtale.

La tératogénicité de l'alcool a été démontrée par de nombreuses études notamment menées sur des animaux. En 1977, Gerald Chernoff analysait les effets sur des souris gestantes de l'alcoolisation fœtale (10). Une augmentation de la mortalité prénatale était retrouvée. Le lien entre l'importance de la dose et le risque de malformations à la naissance a été démontré (10). La définition du syndrome d'alcoolisation fœtale par le Dr Ann Streissguth, directrice du *Fetal Alcohol and Drug Unit* à l'Université de Seattle et son équipe a été définitivement reconnue suite à la collaboration avec le Dr Philippe Dehaene (11).

En France, pendant plus de 20 ans, après la publication de Lemoine, un immobilisme des autorités sanitaires à propos du syndrome d'alcoolisation fœtale était observé. Seuls quelques spécialistes, principalement des pédiatres, pédopsychiatres et de rares obstétriciens restaient convaincus du lien entre l'alcool maternel et les conséquences sur l'enfant. Ce n'est qu'en 2004 que l'Académie de Médecine par la voie du Professeur Roger Nordmann, déclarait la consommation d'alcool quelle que soit la quantité ingérée pendant la grossesse représentait « *la cause majeure de retard mental d'origine non génétique ainsi que d'inadaptation sociale de l'enfant* ». « *L'exposition prénatale de*

l'alcool représente un facteur de risque à tous les stades de la grossesse (...) ; risque commun à toutes les boissons alcoolisées et qui existe même lors des consommations ponctuelles » (12).

Plusieurs campagnes de prévention grand public ont été menées depuis 2006, pour informer des conséquences de l'exposition de l'alcool pendant la grossesse : campagne « *zéro alcool pendant la grossesse* ». Un pictogramme a été créé sous l'impulsion de la sénatrice réunionnaise Anne-Marie Payet et apposé sur tous les produits contenant de l'alcool (figure 3) (13).



Figure 3 : Pictogramme zéro alcool pendant la grossesse

Une commission d'experts publiait en 2020 un rapport introduisant le concept des 1 000 jours. Cette période s'étalant de la conception à la fin de la 2^{ème} année de vie correspond à la période la plus sensible pour le développement d'un enfant. Pendant ces 1 000 jours, toutes altérations physiques ou psychiques engendreront des effets sur le développement et le bien-être de la personne durant toute sa vie. Prévenir l'exposition à l'alcool pendant la grossesse est un axe du plan des 1 000 premiers jours (14).

A La Réunion

« *Les mêmes têtes en matière d'alcoolisme materno-foetal que dans le Nord de la France* » étaient notifiées par le pédiatre Jean-François Lesure en 1976 à La Réunion, à l'Hôpital d'enfants de Saint-Denis.

En 1983, l'observation du syndrome d'alcoolisation fœtal à La Réunion a été étudié au travers de deux thèses. (16, 17).

Dans les années 1990, la Direction régionale des affaires sanitaires et sociales (DRASS) a conduit plusieurs actions d'évaluation et de prévention.

Le médecin généraliste Thierry Maillard a mesuré la prévalence du SAF à la maternité de Saint-Pierre en 1996 (18).

Dans ce cadre, l'association REUNISAF a été fondée en 2001. L'objet de l'association était d'accompagner les femmes en difficulté avec l'alcool ainsi que leurs enfants. Le Ministère de la Santé a reconnu l'association (Prix Bien Traitance) et récompensée par l'Académie de Médecine. La création du réseau Santé addiction Outre-mer (SAOME), la mise en place des Centres de soins, d'accompagnement et de prévention en addictologie (CSAPA), et du Réseau périnatal Réunion (RePère) ont permis de structurer cette politique d'accompagnement.

En 2004, un amendement proposé par Mme Anne-Marie Payet, sénatrice réunionnaise, a été déposé et voté. Le caractère obligatoire du pictogramme de prévention de la consommation d'alcool durant la grossesse sur l'ensemble des boissons alcoolisées commercialisées en France a été obtenu grâce à cet amendement.

L'Agence régionale de santé de l'océan Indien (ARS-OI) proposait fin 2014, de réaliser un état des lieux avec les acteurs concernés. A la suite de cet état des lieux, l'ARS-OI a élaboré une stratégie

régionale concernant la prise en soin des femmes ayant un trouble de l'usage de l'alcool et la prise en soin des enfants et adultes atteints d'un TSAF.

Un programme de prévention et de prise en soin des personnes atteints d'un TSAF a été proposé en 2015. L'information du grand public, la formation des professionnels de santé et la coordination des structures parties prenantes dans le repérage, le diagnostic et la prise en soin des TSAF étaient les trois axes prioritaires. Le plan gouvernemental 2013-2017 de la Mission interministérielle de lutte contre les drogues et les conduites addictives (MILDECA) dans sa mesure 55 intégrait ce programme. Grâce à l'expérience vis-à-vis de cette thématique des TSAF et de l'implication des acteurs, La Réunion a été retenue comme première région expérimentale. Le bilan réalisé par l'ARS de La Réunion a été mitigé à l'issue des formations mettant en avant le manque d'implication et de participation des médecins généralistes (19).

2.2. Définition

Il existe un ensemble de troubles causés par l'alcoolisation fœtale regroupés actuellement sous l'appellation trouble du spectre de l'alcoolisation fœtale qui vont de la mort fœtale in utero, au syndrome d'alcoolisation fœtale, total ou partiel ou aux désordres neurodéveloppementaux liés à l'alcool jusqu'à l'absence de conséquences.

Depuis 1996, les recommandations à propos du diagnostic et de la classification du SAF évoluent. La dernière recommandation a été actualisée en 2016 (20).

Les manifestations de l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation fœtale (ETCAF) se mesurent sur un continuum qui varie selon les couleurs d'un spectre. C'est pourquoi la terminologie Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD) a été adoptée en Amérique du Nord et dans d'autres pays anglophones (21)

Le syndrome d'alcoolisation fœtale (SAF) est le premier décrit et le mieux connu des TSAF. Il est parfois considéré comme la forme la plus grave (22). Le SAF est la principale cause de déficience mentale congénitale non génétique et d'inadaptation sociale chez les enfants. Il est entièrement

évitable en supprimant l'exposition prénatale à l'alcool (23, 24). Il s'agit de la seule forme de TSAF ayant un code dans la classification internationale des maladies (CIM) : Q86.0 dans la CIM-10 et LD2F.00 dans la CIM-11 (25). Le diagnostic est essentiellement clinique (tableau 1 et figure 4).

Tableau 1. Critères de diagnostic du syndrome d'alcoolisation fœtale.

- 1) Confirmation de l'exposition prénatale à l'alcool.
 - 2) Dysmorphie craniofaciale caractéristique du SAF, y compris :
 - Fentes palpébrales étroites,
 - Un philtrum allongé, bombé et sans relief,
 - Un nez court avec des narines antéversées,
 - Une lèvre supérieure fine et étroite,
 - Un petit menton en retrait.
 - 3) Retard de croissance soit prénatal (retard de croissance intra-utérin (RCIU)), soit postnatal. Ce retard affecte le périmètre crânien, le poids et la taille.
 - 4) Preuve d'une atteinte du système nerveux central (SNC), qui peut être :
 - structurelle : déficit de croissance cérébrale (par exemple, microcéphalie, hypoplasie cérébelleuse, agénésie du corps calleux)
 - fonctionnelle : se manifestant par des troubles neurologiques légers ou profonds (selon l'âge) tels que des troubles de la motricité fine, une surdité neurosensorielle, une mauvaise démarche, une mauvaise coordination main-œil.
- Ces trois derniers critères (2, 3 et 4) constituent la triade symptomatique du syndrome.
- Ainsi, lorsque la consommation d'alcool n'est pas documentée mais que ces trois critères sont évidents, le diagnostic de « SAF sans confirmation d'exposition prénatale à l'alcool » peut être posé.
- 5) La présence d'anomalies comportementales et cognitives qui ne correspondent pas au niveau de développement et qui ne peuvent être expliquées par les antécédents familiaux ou l'environnement, telles que des difficultés d'apprentissage, des déficits dans les résultats scolaires, un mauvais contrôle de l'impulsivité, des difficultés dans la perception sociale, des déficits dans le langage réceptif et expressif, une capacité réduite d'abstraction ou de métacognition, des déficits spécifiques en mathématiques, des problèmes de mémoire, d'attention ou de jugement.

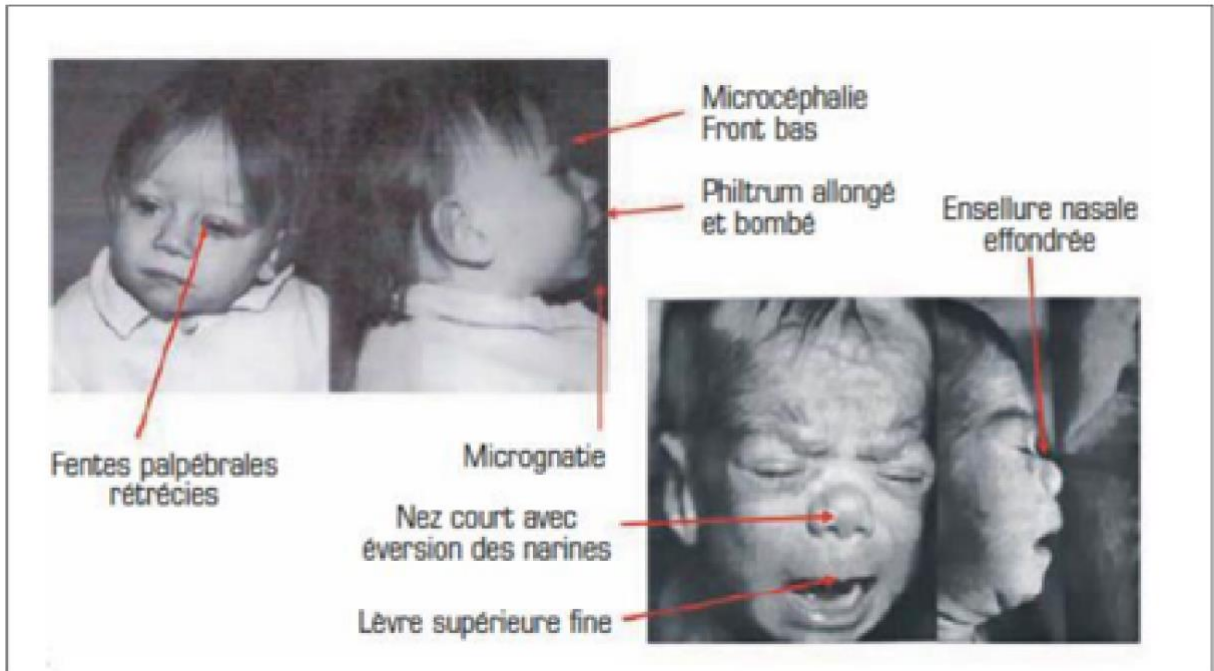


Figure 4 : Syndrome d'alcoolisation fœtale : caractéristiques de la dysmorphie (26)

Les patients atteints de SAF présentent une dysmorphie caractéristique car la consommation d'alcool par la mère au cours du premier trimestre de la grossesse perturbe le développement normal du cerveau et du visage du fœtus.

Il existe également des formes partielles de SAF, qui entraînent des difficultés d'apprentissage et/ou d'adaptation sociale (échec scolaire, troubles du comportement, délinquance, incarcération, marginalité et toxicomanie à l'adolescence) sans dysmorphie de la face (27).

Le terme générique d'ETCAF est utilisé pour regrouper toutes ces formes symptomatiques dans lesquelles l'exposition prénatale à l'alcool est l'étiologie principale. La confirmation de l'exposition prénatale à l'alcool est nécessaire au diagnostic de l'ETCAF.

« *Le diagnostic d'ETCAF sans SAF reste donc un diagnostic syndromique qui associe des déficits neurocognitifs avérés et symptomatiques à l'exposition prénatale à l'alcool (EAP) en l'absence d'autres maladies neurodéveloppementales détectables* » (28). La gravité de l'ETCAF est liée au niveau des lésions cérébrales.

Les termes de l'*Institute of Medicine* (IOM) et du Manuel diagnostique et statistique des troubles mentaux 5^{ème} édition (DSM-5) ne figurent pas sur la liste des conditions diagnostiques dans les critères définis, bien qu'ils soient considérés comme utiles pour la classification (29) (Tableau 2).

Tableau 2. Sous-types de TCAF établis par l'Institute of Medicine en 1996

Syndrome d'alcoolisation fœtale (SAF) Syndrome d'alcoolisation fœtale partielle (SAFp) Trouble neurodéveloppemental lié à l'alcool (TNLA) Anomalies congénitales liées à l'alcool (ALCA)

Le DSM-5 inclut dans la section relative aux diagnostics en cours d'étude le trouble neurocomportemental associé à l'exposition prénatale à l'alcool (ND-PAE), indépendamment de la présence ou de l'absence des effets physiques de l'exposition prénatale à l'alcool. Les personnes qui répondent aux critères de diagnostic de l'ETCAF selon l'IOM peuvent également répondre aux critères de ND-PAE. Ainsi, les déficits neurodéveloppementaux rencontrés dans l'ETCAF ne sont pas pathognomoniques (30).

Présence de A ou B ou les deux :

A. Anomalies neurologiques du développement du SNC prenant n'importe lequel des aspects suivants :

- périmètre crânien à la naissance diminué pour l'âge gestationnel ;
- anomalies cérébrales morphologiques (par exemple, microcéphalie, agénésie partielle ou complète du corps calleux, hypoplasie cérébelleuse ;
- troubles neurologiques légers ou sévères (en fonction de l'âge), tel qu'un déficit de la motricité fine, une surdité neurosensorielle, une mauvaise démarche en tandem, une mauvaise coordination œil-main.

B. Présence d'une série complexe d'anomalies comportementales ou cognitives incompatibles avec le niveau de développement et ne pouvant être expliquées uniquement par les antécédents familiaux ou le milieu, telles que des difficultés d'apprentissage ; un rendement scolaire insuffisant ; un

mauvais contrôle des impulsions ; des problèmes de perception sociale ; des déficits dans le langage réceptif et expressif ; une capacité réduite d'abstraction ou de métacognition ; des difficultés particulières en mathématiques ; ou des problèmes de mémoire, d'attention ou de jugement.

Figure 5 : Institute of Medicine (1996) : critères de diagnostic des TNDLA

Les anomalies congénitales liées à l'alcool

Les Anomalies congénitales liées à l'alcool (ACLA) englobent toutes les malformations et dysplasies en lien avec une exposition à l'alcool durant la grossesse. A la différence du SAF, elles sont peu caractéristiques de la tératogénèse liée à l'alcool. Voici quelques-unes des anomalies possibles liées avec la consommation d'alcool par la mère (27) :

- Malformations cardiaques : tétralogie de Fallot, communication interauriculaires, communication interventriculaires...
- Malformations rénales : hypoplasie rénales, hydronéphrose...
- Malformations squelettiques : hypoplasie des ongles, clinodactylies, scoliose...
- Surdit  de transmission et neurosensorielles.

2.3. Épidémiologie

2.3.1. La consommation de l'alcool et ses conséquences

2.3.1.1. Dans le monde

Dans le monde, la substance psychoactive la plus consommée est l'alcool. Au cours des 12 derniers mois, 43 % de la population mondiale de 15 ans et plus avaient consommé au moins un verre d'alcool (31). Les fréquences de consommation d'alcool les plus élevées étaient observées en Europe (59,9 %), dans les régions des deux Amériques (54,1 %) et dans les régions du Pacifique occidentale (53,3 %) (31).

La consommation mondiale totale d'alcool pur par habitant était de 6,4 litres par an soit 13,9 g d'alcool pur par jour et par habitant. En Europe, elle était estimée à 10 litres (31).

Parmi les déterminants, les hommes restent plus consommateurs que les femmes, 53,6 % versus 32,3 % (31). Cette différence tend à se réduire dans certains pays et même s'inverser chez les jeunes

de 15 à 16 ans, comme en Belgique (32). Un autre déterminant est le niveau socio-économique et le pouvoir d'achat. Plus ils sont élevés, plus les consommations augmentent (33).

Chez les jeunes de 15 ans à 19 ans, le nombre de consommateurs est estimé à un peu plus du quart de ce groupe d'âge au niveau mondial. En Europe, la situation est pire, avec une prévalence de consommateurs déjà supérieure à celle de l'adulte. (31).

Malgré l'absence de données fiables, il semble que 10 % des femmes enceintes dans le monde consomment de l'alcool (34). C'est en Europe que la consommation d'alcool pendant la grossesse est la plus élevée (figure 6), ce qui correspond également à la région du monde où la consommation excessive d'alcool est la plus forte.

Parmi les 162 pays évalués en termes de consommation d'alcool, dans 40 % d'entre eux, il est constaté que plus de 25 % des femmes, ayant consommé de l'alcool durant leur grossesse avaient eu une consommation excessive d'alcool.

La consommation excessive d'alcool est plus répandue chez les jeunes femmes. Ces même jeunes femmes déclaraient avoir des rapports sexuels non protégés. Plus la moitié des grossesses chez ces jeunes femmes n'étaient pas planifiées (35).

Dans certains pays, certaines populations sont plus touchées comme en Australie, en Afrique du Sud, et au Canada, répondant à un passé historique de violence et de traumatisme persistant lié à la colonisation.

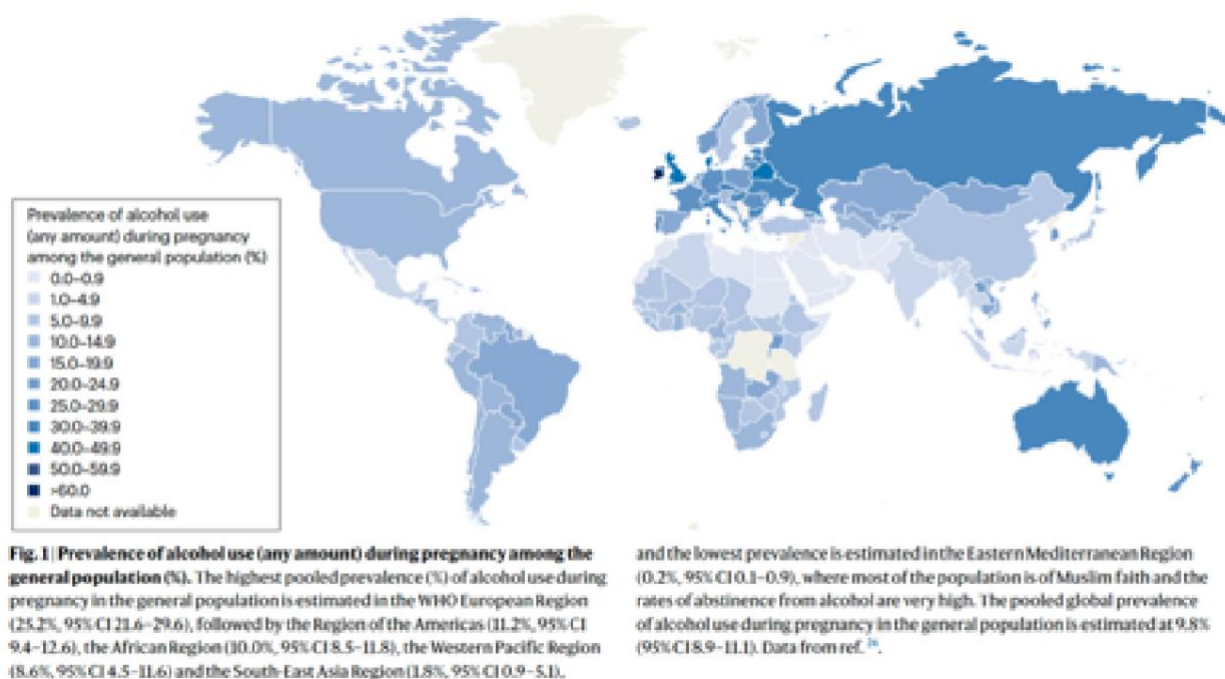


Figure 6 : Prévalence de l’usage de l’alcool durant la grossesse en population générale d’après Popova et al. 2023 (35).

2.3.1.2. En France

La France demeure l’un des pays avec la consommation d’alcool la plus élevée dans le monde bien que celle-ci tend à diminuer depuis plusieurs années. En 2017, la consommation moyenne était de 11,5 litres d’alcool pur par an et par habitant de quinze ans, ce qui équivaut à 2,5 verres standards par jour et par personne. Parmi les personnes âgées de 18 à 75 ans, 14 % d’entre eux ne consomment pas du tout d’alcool.

Plusieurs disparités selon l’âge et le sexe étaient observées :

- La consommation d’alcool entre 1 et 3 fois par semaine était de 30% chez les hommes et 20% chez les femmes.
- En moyenne, la consommation quotidienne était de 2,8 verres standard pour les hommes et 1,8 pour les femmes (36).

2.3.1.3. A La Réunion

La consommation journalière d'alcool concerne 10 % des réunionnais âgés de 15 à 75 ans. Paradoxalement, la proportion de personnes atteintes d'un trouble de l'usage de l'alcool chronique à La Réunion serait moindre qu'en métropole, alors que le taux de mortalité lié à l'alcool est deux fois plus élevé à La Réunion. Les réunionnais auraient une consommation plus importante en termes de quantité et de degré d'alcool lorsqu'ils consomment (37).

Cinquante-deux pourcents des consommateurs d'alcool boivent 98 % du volume d'alcool total. Dix pour cent des plus consommateurs d'alcool boivent 69 % du volume d'alcool total alors qu'il n'est que de 54 % en métropole (38).

Depuis 2014, la consommation hebdomadaire moyenne d'alcool s'élève à 8 verres standard. La différence de consommation en fonction du genre diminue régulièrement depuis 2014 passant d'un écart de 4 verres standard en 2014 à 2,5 verres standard en 2021. Cette différence n'est plus significative (32, 33).

Concernant l'alcool à La Réunion en 2017, 4,6 % des passages annuels aux urgences de La Réunion, toutes causes confondues étaient en lien direct avec l'alcool versus 1,4 % France entière (39).

A La Réunion, environ 450 décès par an sont imputés à l'alcool soit plus de 10 % de la mortalité annuelle, soit trois fois plus que la moyenne nationale. La consommation d'alcool est une des principales causes de mortalité évitable (39).

Concernant les femmes réunionnaises en âge de procréer, une femme sur 10 entre 15 et 49 ans a une consommation régulière d'alcool. Les résultats publiés en 2023 de l'étude de l'Observatoire régional de la santé (ORS) montraient que 10,5% des femmes ont déclaré avoir consommé au moins une fois une boisson alcoolisée pendant leur grossesse actuelle ou la dernière même après avoir appris qu'elles étaient enceintes contre 23 % en 2010 (38). Cette différence est probablement en lien avec les campagnes de prévention ou liée à une sous-déclaration.

Selon ces femmes, enceintes actuellement ou ayant un enfant de 5 ans ou moins, 20 % déclarent ne pas avoir été informées, par le médecin ou la sage-femme qui ont suivi la grossesse, de l'impact éventuel de la consommation d'alcool sur leur enfant (38).

2.3.2. Prévalence TSAF

2.3.2.1. Dans le monde

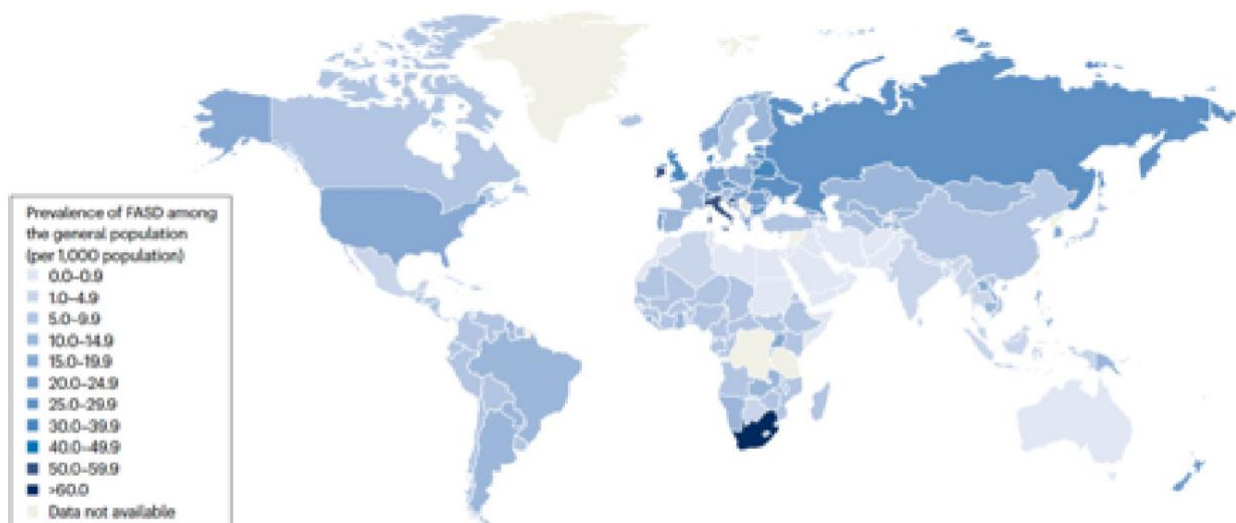


Fig. 2 | Prevalence of FASD among the general population (per 1,000 population). In line with the prevalence of alcohol use during pregnancy, the highest pooled prevalence (per 1,000) of fetal alcohol spectrum disorders (FASD) was in the WHO European Region (19.8 per 1,000 population, 95% CI 14.1–28.0), followed by the Region of the Americas (8.8 per 1,000 population, 95% CI 6.4–13.2), the African Region (7.8 per 1,000 population, 95% CI 5.4–10.7), the Western

Pacific Region (6.7 per 1,000 population, 95% CI 4.5–11.7) and the South-East Asia Region (1.4 per 1,000 population, 95% CI 0.6–3.3), and the lowest prevalence was estimated in the Eastern Mediterranean Region (0.1 per 1,000 population, 95% CI 0.1–0.5). The pooled global prevalence of FASD was estimated to be 7.7 (95% CI 4.9–11.7) per 1,000 in the general population. Data from refs. ^{25,45}.

Figure 7 : prévalence mondiale des TSAF d'après Popova 2023 (35)

Selon l'analyse de Popova et al, la prévalence mondiale des TSAF en population générale est estimée à 7,7 cas pour 1 000 personnes (34).

Cette prévalence est plus élevée dans les régions où la consommation d'alcool est la plus élevée comme dans les régions européennes, 19,8 pour 1 000 et inversement plus faible dans les régions méditerranéennes orientales 0,1 pour 1 000 (34). Dans certains pays comme l'Australie, l'Afrique du Sud et le Canada, la prévalence serait plus importante (figure 7).

Soixante-seize pays ont une prévalence des TSAF supérieure à 1 %, ce qui est supérieur à la prévalence des maladies génétiques comme la trisomie 21 ou la trisomie 18 (34).

Elle est similaire à la prévalence des troubles du spectre de l'autisme estimée à 1,1 à 2,5 % (34). Certaines sous populations sont plus touchées que la population générale, notamment les enfants placés en famille d'accueil ou placés dans les établissements d'enseignement spécialisé, (34). La prévalence des TSAF chez l'adulte dans le système pénitentiaire serait plus élevée que dans la population générale (34).

2.3.2.2. En France

L'académie nationale de médecine a formulé ses recommandations concernant les TSAF, le 22 mars 2016. Elle a déclaré l'alcoolisation foetale comme « grande cause nationale » avec pour mot d'ordre : « *Chaque consommation d'alcool pendant la grossesse est une prise de risque* » (40).

La stratégie nationale de santé 2018-2022 a renforcé ce message en déclarant la protection des enfants à naître de l'exposition aux substances psycho actives pour la grossesse comme une priorité (41).

Dans les recommandations de bonnes pratiques mises en ligne le 11 sept 2013, la Haute Autorité de santé indique que l'incidence du syndrome de l'alcoolisation foetale serait de l'ordre de 1,3 pour 1 000 naissances vivantes par an, celle des TSAF serait de 9 pour 1 000 naissances vivantes par an (27).

Néanmoins, la variabilité des critères diagnostiques et la faible sensibilisation des professionnels de santé à diagnostiquer les personnes atteintes d'un TSAF ne permettent pas d'avoir des statistiques nationales françaises précises sur la prévalence des TSAF.

Cette sous-estimation serait en rapport avec la difficulté d'identifier la consommation prénatale d'alcool chez la mère pendant la grossesse. La crainte de la stigmatisation, l'invisibilité des troubles et leurs non spécificités, rendent le diagnostic difficile d'autant qu'aucun instrument diagnostique n'est validé internationalement.

2.3.2.3. A La Réunion

À La Réunion, de 10 à 15 enfants par an sont diagnostiqués porteurs d'un syndrome d'alcoolisation fœtale, et 100 à 150 enfants par an sont atteints d'un trouble du spectre de l'alcoolisation fœtale (42).

Dans le cadre du Plan MILDECA 2013-2017, de la lutte contre les drogues et des conduites addictives, un programme de prévention et de prise en soin des TSAF a été mis en place à titre expérimental dans deux régions françaises dont La Réunion. Depuis 2016, la mise en place du centre ressources ETCAF est effective. Il a pour mission l'expertise, la formation, la coordination et la centralisation des informations relatives au repérage et au suivi régional des TSAF (43). Le Centre de diagnostic de l'ETCAF a été créé en 2017. Sa mission est triple : d'une part grâce à la pluridisciplinarité des professionnels de santé exerçant dans ce centre, une proposition diagnostique est établie. Ensuite, une évaluation fonctionnelle est proposée pour les enfants âgés de 5 à 18 ans. Enfin un plan de soins médicaux et socio-éducatifs est recommandé de façon individuelle. Plus de 300 enfants ont été diagnostiqués depuis la création du centre ressource.

2.4. Physiopathologie

L'éthanol est une molécule de petite taille hydrophile et lipophile qui diffuse rapidement dans les différents compartiments hydriques du corps. Pour un sujet à jeun, l'alcool diffuse rapidement dans les compartiments du corps. Le pic d'alcoolémie est atteint dès 45 minutes. Le premier passage hépatique est variable d'une personne à une autre (5 à 20 minutes) (44).

La voie d'élimination principale de l'éthanol est la voie hépatique. Les différents enzymes et mécanismes (alcool déshydrogénase, système microsomal, catalase et radicaux libres) permettent l'oxydation de l'éthanol par le foie en acétaldéhyde puis en acétate. L'acétate est libéré secondairement dans la circulation générale. Il est ensuite oxydé par les tissus extra-hépatiques en CO₂ et H₂O. Des voies d'élimination accessoires permettent l'excrétion directe de l'éthanol. Cette excrétion a lieu au niveau respiratoire, au niveau rénal et sudoral. Elle existe également par le lait maternel. Il existe des variations de la vitesse d'élimination d'une personne à une autre.

La diffusion passive de l'alcool à travers les différentes membranes cellulaires explique sa diffusion à travers le placenta via la barrière fœto-placentaire.

En raison de son immaturité et de ses moindres capacités enzymatiques réduites en Alcool déshydrogénase (ADH), le fœtus métabolise mal l'alcool. Par conséquent le taux d'alcoolémie chez le fœtus est égal ou supérieur à celui de la mère. « *Quand la mère est gaie, son enfant est ivre* » concluait le Dr Philippe Dehaene.

Le retentissement fœtal est variable en fonction de la quantité d'alcool absorbée par la maman, la période d'absorption et la durée de l'alcoolisation maternelle. Ces trois éléments peuvent être maîtrisables (45). Par contre ce qui l'est moins, c'est la capacité de la mère et celle du fœtus à métaboliser l'alcool, avec une variabilité génétique et épigénétique.

Le tropisme de l'alcool est avant tout neurologique. Ce qui en fait est un tératogène largement connu. La programmation épigénétique du fœtus serait également perturbée par l'exposition à l'alcool durant la grossesse, comme le suggère des travaux plus récents en plus de son effet directement tératogène. Les processus de méthylation des gènes, permettant de réguler leur expression à un instant donné, seraient perturbés par l'exposition à l'alcool durant la grossesse (46).

Les liens entre la consommation et le développement du fœtus

Le risque d'avortement spontané augmente de 25 % pour chaque consommation quotidienne de deux à trois verres standard pendant les deux premiers trimestres de grossesse (47). Les conséquences pour le fœtus sont un retard de croissance, des troubles cognitifs et comportementaux, associé dans les formes les plus sévères (SAF) à un syndrome dysmorphique et malformatif. Le retard de croissance intra utérin est présent dès le premier trimestre de la grossesse et s'aggrave au cours du troisième trimestre et ce à partir d'un à deux verres standard quotidien. Il est encore plus net à partir de trois verres standard quotidiens. Le risque de dysmorphie crânio-faciale et de syndrome malformatif est considérablement accru pour une consommation supérieure à six verres standard par jour, en particulier durant le premier trimestre. En effet, durant le premier trimestre, la régulation, la prolifération et la migration neuronale sont perturbées par l'exposition à

l'alcool avec un risque augmenté de cellules ectopiques dans les différentes zones corticales (48, 49).

Le développement cérébral se réalise tout au long de la grossesse avec une croissance cérébrale importante au cours du troisième trimestre de grossesse. A ce stade, la consommation d'alcool augmente le risque d'anomalie de formation des synapses, de retard à la myélinisation, de perte neuronale qui sont responsables de troubles neurodéveloppementaux et notamment de troubles du comportement.

Il n'est pas possible à ce jour de définir individuellement un seuil de consommation d'alcool qui n'aurait pas de conséquences négatives chez le fœtus. Toute consommation d'alcool constitue un risque potentiel de développement de troubles neurodéveloppementaux (48). La figure 8 résume les impacts potentiels de la consommation d'alcool sur le développement des organes en fonction de leur période de développement.

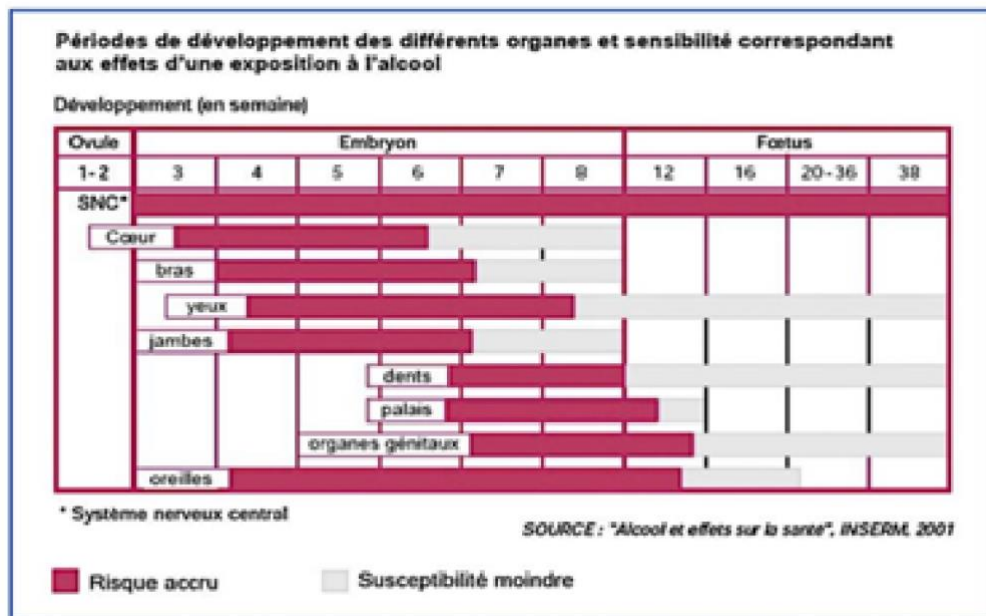


Figure 8 : Effets d'une exposition à l'alcool en fonction de la période de développement des différents organes et de leur sensibilité (INSERM)

2.5. Le diagnostic

Le diagnostic du syndrome d'alcoolisation fœtale comme celui des autres troubles neurodéveloppementaux liés à l'alcoolisation fœtale, reste avant tout clinique. Sa première caractéristique étant le retard de croissance intra utérin, une microcéphalie et un fémur court détectés au deuxième trimestre de grossesse nécessitent d'évoquer rapidement la possible alcoolisation maternelle. Pour rappel, l'alcoolisation fœtale est la cause la plus fréquente de nanisme essentiel.

A la naissance, le diagnostic se base sur le syndrome dysmorphique dans le cas du SAF complet Les fentes palpébrales étroites, le philtrum long, bombé, sans relief, le nez court, des narines antéversées et la lèvre supérieure fine sont évocateurs d'un syndrome d'alcoolisation fœtale.

Le syndrome polymalformatif associe à un degré variable :

- Les malformations du système nerveux central avec les anomalies de fermeture du tube neural, les microcéphalies, atrophie cortico-sous-corticale, dilatation ventriculaire, agénésie hypoplasie des corps calleux, anomalie de développement du cervelet de l'hippocampe, les troubles de migration neuronale, hétérotopie, troubles de connexion synaptique
- Les malformations squelettiques avec des anomalies costo-vertébrales synostose radio ulnaire, luxation de hanche.
- Les malformations cardiaques, CIA CIV tétralogie de Fallot.
- Les malformations rénales
- Hypoplasie rénale, hydronéphrose.
- Les malformations cranio-faciales
- Fente oro-faciale, craniosténose,
- Les anomalies cutanées,
- Hirsutisme, implantation basse des cheveux, angiome,

- Des troubles sensoriels avec des anomalies ophtalmologiques, myopie, cataracte. Microphthalmie, hypoplasie du nerf optique.
- Les anomalies auditives, malformation de l'oreille externe moyenne et interne.

En dehors du syndrome dysmorphique typique du SAF, il n'y a pas de malformation pathognomonique de l'alcoolisation fœtale, les atteintes dépendant de la période, de l'intensité de l'exposition et de facteurs individuels de la mère (alimentation, capacités de métabolisation de l'alcool, tabagisme ou autres consommations de toxiques, vulnérabilité génétique et épigénétique) qui restent en grande partie méconnus.

Les troubles neurodéveloppementaux qui peuvent orienter le diagnostic sont variables en termes d'expression en fonction de l'âge.

Pour les nouveau-nés, si la consommation maternelle d'alcool est récente, il peut y avoir un syndrome d'imprégnation néonatale avec abattement, torpeur, détresse respiratoire, hypoglycémie. Le diagnostic passe par le dosage de l'alcoolémie de la mère.

Les troubles peuvent être différés sur deux ou trois jours avec un syndrome de sevrage, anomalie de succion, hyperexcitabilité, tremblements, convulsions et troubles du sommeil. L'électro-encéphalogramme (EEG) est perturbé.

Chez le nourrisson, les troubles neurodéveloppementaux sont à rechercher devant une hypotonie axiale, une hypertonie périphérique, des trémulations, une irritabilité, une épilepsie, des difficultés alimentaires, des troubles du sommeil et des retards d'acquisition psycho motrice.

Un lien est possible avec la mort subite du nourrisson.

Chez l'enfant atteint de TSAF, les troubles neurodéveloppementaux sont marqués par une déficience cognitive. Les enfants atteints d'un SAF ont un quotient intellectuel (QI) inférieur à 70 % dans 50 % des cas (49). Les enfants exposés peuvent avoir une difficulté à s'exprimer et un niveau de compréhension perturbé.

Les troubles de la motricité fine sont à rechercher, avec une difficulté de boutonner ses vêtements, de se chausser ou à manipuler son crayon, à faire des choses différentes avec chaque main, des troubles de l'équilibre, une mauvaise intégration de l'information visuelle.

Un syndrome dysexécutif peut être présent également avec des difficultés à mémoriser et notamment la mémoire à court terme altérée ou des difficultés :

- A généraliser, tirer des conclusions
- A manier les concepts abstraits
- A alterner, passer d'une situation à une autre, flexibilité mentale
- A planifier
- A mettre en place des stratégies
- A extrapoler
- A utiliser les mêmes connaissances pour gérer les situations nouvelles
- A récupérer les informations.
- A inhiber des réponses comportementales

Cela correspond aux compétences nécessaires pour un bon fonctionnement social et apprentissage scolaire. Les parents et les enseignants sont en première ligne pour repérer ces difficultés.

Des perturbations du comportement sont observées avec une immaturité par rapport à ce qui est habituellement attendu pour un enfant de même âge. Ils comprennent :

- De l'inattention,
- De l'hyperactivité,
- De la distractibilité,
- De l'immaturité et labilité émotionnelle,
- De l'impulsivité et de l'intolérance à la frustration,
- Des troubles perceptifs (hypersensibilité, résistance à la douleur, hyperacousie),
- De troubles du sommeil,
- Des perturbations de l'attachement

Pour les enfants et adolescents, le trouble du spectre de l'alcoolisation fœtale est une cause fréquente d'échec scolaire. Dans le cadre d'une étude de suivi en Allemagne sur 20 ans de 37 patients atteints de TSAF (50).

- 49 % des personnes étaient en éducation spécialisée
- 38 % des personnes étaient en éducation primaire
- Seuls 13 % des personnes avaient atteint une éducation secondaire.

Aux États-Unis, une étude de cohorte clinique de 500 enfants suivis depuis 1974, révélait que 90 % des personnes atteintes d'un TSAF avaient un QI inférieur à 70 (51) :

- 61 % d'interruption de l'école à 12 ans
- 70 % de jeunes exclus du système éducatif
- 70 % des adultes sans métier stable
- 60 % ont des problèmes judiciaires
- 50 % en internement ou en incarcération
- 65 % des adultes masculins ont des troubles du comportement sexuel
- 53 % des adultes masculins et 70 % des adultes féminins ont des problèmes d'alcool et de toxicomanie
- 80 % ont une dépendance sociale
- 80 % sont au chômage

Les axes de prévention doivent être développés chez tous les professionnels de santé et autres intervenant au contact des femmes enceintes pour prévenir l'exposition prénatale à l'alcool. Si la future mère enceinte continue à consommer de l'alcool, il est recommandé de réduire les effets en proposant une prise en soin précoce du nouveau-né, au même titre que les prématurés et d'éviter la récurrence lors des grossesses ultérieures.

2.6. Les préventions

2.6.1. La prévention primaire

Selon l'OMS, la prévention primaire s'attache à mettre en place les mesures qui empêchent l'apparition d'un éventuel problème de santé. Au niveau sociétal, elle correspond à l'ensemble des mesures mises en œuvre pour réduire ou éviter l'apparition ou l'incidence des maladies, des accidents et des handicaps. Les professionnels de santé (dont les médecins généralistes) y participent sans en avoir le monopole. Cette prévention primaire se confronte aux représentations sociétales, aux habitudes de vie et aux comportements où l'alcool est considéré comme un facteur de convivialité (52). Elle se confronte également au lobby de l'alcool en métropole mais encore plus à La Réunion où certains alcools comme le rhum ou le whisky ancrés dans les représentations culturelles des réunionnais font l'objet de nombreuses campagnes de promotion. De plus, les taxes sont moindres sur les alcools forts, les rendant facilement accessibles (53).

La prévention implique de promouvoir l'abstinence totale (48, 54) mais le choix de boire ou non reste une liberté individuelle.

Le « zéro alcool » devrait s'appliquer également pour le père dans les mois qui précèdent la fécondation puisque les progrès de l'épigénétique évoquent une relation possible entre l'exposition à l'alcool du père et les TSAF (55).

Ainsi en termes de prévention primaire, au niveau individuel et collectif, l'action consiste à informer sur l'importance du Zéro alcool pendant la grossesse et de recommander d'interrompre toute consommation d'alcool dès qu'une grossesse est envisagée, afin d'éviter tout risque d'exposition involontaire durant les premières semaines lorsque le diagnostic de grossesse n'a pas encore été fait.

2.6.2. La prévention secondaire

La prévention secondaire concerne les mesures visant à reconnaître et dépister les sujets à risque afin de limiter au plus tôt la consommation. Les programmes de repérage précoce, de dépistage, d'information et d'intervention brève sont importants à mener par l'ensemble des professionnels de santé concernés.

L'entretien avec la future mère avant ou en début de grossesse, l'entretien du quatrième mois sont des moments clefs pour repérer les comportements à risque. Pour faciliter cet abord de la consommation d'alcool, la distribution d'auto-questionnaires aux personnes en âge de procréer, dans les salles d'attente des professionnels de santé permet d'inviter ces personnes à se questionner sur leur consommation (56).

L'arrêt de l'alcool serait immédiatement bénéfique, quel que soit le terme de la grossesse (57). Dans une politique de réduction des risques et des dommages, un verre de moins peut être une anomalie, une malformation, un trouble du comportement ou une difficulté cognitive qui ne surviendra pas chez l'enfant. L'arrêt de l'alcool permettrait la reprise de la croissance fœtale in utero (57).

Il est important de pouvoir différencier deux types de consommation. La consommation occasionnelle sans rapport avec une dépendance ou le trouble de l'usage de l'alcool. Dans ce deuxième cas de figure, il faut pouvoir s'entourer des compétences nécessaires pour prendre en soin la patiente dans son environnement.

Le médecin généraliste crée un réseau de soins autour de la femme, de son partenaire et de son environnement, dans une relation de confiance. Il pourra être accompagné de l'intervention d'une sage-femme au domicile, de travailleurs sociaux, d'une équipe mobile, d'un accès à un centre de cure ambulatoire en alcoologie ou des unités hospitalières en alcoologie. Pour les femmes enceintes consommant de l'alcool, un suivi obstétrical sera à renforcer pour ce qui constitue une grossesse à risque. La rencontre avec l'équipe pédiatrique avant la naissance pourra aider à renforcer le lien mère-enfant et à prévenir le placement et la séparation éventuelle de la mère et de(s) enfant(s) (58).

2.6.3. La prévention tertiaire

La prévention tertiaire concerne les mesures destinées à prévenir la récurrence du phénomène par des traitements, par des mesures visant à atténuer les effets de l'exposition fœtale à l'alcool, par des interventions auprès de l'enfant, de sa mère et de sa famille. Cela suppose d'avoir été capable

de poser le diagnostic et de mettre en place les mesures d'accompagnement en coordination avec la Protection maternelle et infantile (PMI), le Centre d'accompagnement médico-social précoce CAMSP, le Service d'éducation spéciale et de soins à domicile SESSAD et le service d'éducation nationale de justice. (Protection judiciaire de la jeunesse (PJJ)).

Elle implique la mise en place de soins visant à limiter les incapacités secondaires et troubles co-occurrents qui impactent négativement les trajectoires de vie des patients. Les stratégies de préventions les plus récentes se focalisent sur la famille et non uniquement sur le patient (59).

2.7. L'organisation de la prise en soin des TSAF en médecine générale à La Réunion

2.7.1. Repérage en médecine générale : repérage précoce et intervention brève (RPIB)

Selon le Centre national de ressources textuelles et lexicales, le repérage est défini comme une action de reconnaître, de situer un phénomène, un fait dans un ensemble, un ordre, une chronologie (60). La définition du dépistage est un ensemble de mesures prophylactiques destinées à découvrir certaines maladies ou certains malades (61).

Le repérage (*pas forcément précoce*) d'un comportement (usage de substance psychoactive) n'est pas une démarche d'« étiquetage » ou de contrôle. Il est différent du dépistage qui vise à détecter une maladie. Il vise à détecter un comportement à risque de « maladies » avant qu'elles ne surviennent.

L'objectif du repérage est d'aider la personne à identifier les signaux d'alerte et à s'intéresser aux pratiques à risques dans un souci de réduction des risques.

Le repérage permet aux personnes qui en ont besoin l'accès à une évaluation plus approfondie.

Le repérage est une intervention qui peut être réalisée par l'ensemble des professionnels de santé et médico-sociaux.

L'intervention brève est l'approche la plus appropriée pour permettre, en un temps limité, d'aborder un comportement avec une personne dans le but de tenter de le faire changer.

Elle comporte plusieurs étapes, avec avant toute intervention, un préalable qui permet de recueillir l'accord de la personne, de respecter son autonomie et sa capacité de décision sans chercher à la faire changer d'avis. Et si la proposition est de reporter l'échange, il ne faut pas l'oublier ...

L'étape suivante est le repérage proprement dit qui permet par des tests adaptés d'évaluer le comportement de la personne. L'utilisation de questionnaires validés pour aider au diagnostic de la consommation problématique d'alcool est recommandée dans les consultations de médecine générale pour faciliter le processus d'évaluation, tels que le questionnaire AUDIT (Alcohol Use Disorders Test), T-ACE (Tolerance, Annoy, Cut Down, Eye opener), TWEAK (Tolerance, Worry, Eye-opener, Amnesia and Cut down on drinking), CAGE (Cut-down, Annoyed, Guilty, Eye-opener), etc (62, 63).

Vient ensuite l'intervention brève qui consiste à informer et conseiller la personne en fonction de ses besoins, se mettre d'accord sur un objectif réaliste *en l'aidant à s'appuyer sur les ressources nécessaires*, surmonter les obstacles, organiser le plan d'action et le suivi.

Le repérage des troubles du neurodéveloppement (TND) chez l'enfant s'effectue dans un cadre nosographique non stabilisé et sans outil de repérage. L'absence d'organisation structurée de prise en soin en MG sur la prévention et le repérage comme sur d'autres sujets comme le prédiabète est à déplorer.

2.7.2. Les ressources locales à disposition du médecin généraliste

En 2001, parmi les ressources disponibles, un réseau a été créé à La Réunion sur la prévention, le repérage et la prise en soin des TSAF. REUNISAF était une association qui avait pour objectif de diminuer l'incidence du TSAF et ses conséquences, en favorisant le repérage en accompagnant les femmes en difficulté avec l'alcool et leurs enfants au sein d'un parcours de santé. L'association sensibilisait les différents publics sur les méfaits de l'alcool, notamment durant la grossesse.

En conséquence de la réorganisation des Centres de soins et d'accompagnement et de prévention en addictologie (CSAPA) à La Réunion et de l'émergence du réseau de Santé, addiction Outre-Mer

(SAOME), un réseau régional ayant des missions plus globales autour des addictions, cette association REUNISAF a cessé ses activités en 2013.

Parallèlement l'association SAF Océan Indien a été créé en 2011, pour prendre le relais de l'association REUNISAF et poursuivre la prévention des conséquences de l'exposition à l'alcool durant la grossesse, à La Réunion et dans l'océan Indien.

En 2001, le réseau périnatal réunion (RePèRe) a été créé avec pour objectif d'améliorer l'offre de soins en périnatalité pour renforcer la qualité et la sécurité de la prise en soin des femmes enceintes et des nouveau-nés.

Au regard des éléments cliniques et comportementaux et de leurs retentissements (somatiques, cognitifs, psychomoteurs et/ou neurocomportementaux), les enfants atteints de TSAF sont accompagnés et pris en soin par des structures spécialisées adaptées aux particularités de leur handicap.

Plateforme de coordination et d'orientation (PCO) pour les TND
Centre ressources ETCAF du CHU de La Réunion
Centres de diagnostic ETCAF du CHU de La Réunion
Centre d'action médico-sociale précoce (CAMSP)
Centre médico-psychologique enfant et adolescent (CMPEA)
Rééducation paramédicale : orthophonie, kinésithérapie, ergothérapie, orthoptie, psychomotricité, éducateurs spécialisés...
Centre Médico-Psycho-Pédagogique (CMPP)
Institut Médico-Pédagogique (IMP)

Figure 9 : Structures, professionnels de santé et médico-sociaux autour de la prise en soin des TSAF

3. Introduction

3.1. Les soins primaires

3.1.1. A l'international

En septembre 1978, l'Organisation mondiale de la santé (OMS) a défini dans la déclaration d'Alma-Ata, les soins primaires. Ils sont « *le premier niveau de contact des individus, de la famille et de la communauté avec le système national de santé, rapprochant le plus possible les soins de santé des lieux où les gens vivent et travaillent, et ils constituent le premier élément d'un processus ininterrompu de protection sanitaire.* » (64).

3.1.2. En Europe

Même s'il y a quelques différences entre les pays européens, les notions clés portées par l'OMS Europe et la WONCA Europe sont partagées (65). Les soins primaires sont définis comme le premier contact au sein du système de santé, accessible à tous, s'attachant à la globalité de la personne dans l'ensemble de ses dimensions et dans une prise en soin coordonné. La promotion de la santé et du bien-être par la prévention et l'éducation thérapeutique complète la définition (66, 67).

3.1.3. En France

Il a fallu attendre la loi Hôpital patient santé territoire (HPST) de 2009 pour que soient définis les soins primaires avec l'introduction de la notion de « soins de premier recours » dans un périmètre territorial (68). Il est vrai que certains éléments de la définition de l'OMS avaient déjà été intégrés depuis 1928 avec la mise en place de l'assurance maladie et en 1945 avec l'apparition de la protection sociale. Ils sont définis dans le code de la santé publique dans l'article L1411-11 (69) et organisés par les agences régionales de santé.

Les soins primaires comportent

- La prévention, le dépistage, le diagnostic, le traitement et le suivi des patients ;

- La dispensation et l'administration des médicaments, produits et dispositifs médicaux, ainsi que le conseil pharmaceutique ;
- L'orientation dans le système de soins et le secteur médico-social ;
- L'éducation pour la santé.

En 2016, par son article 64 de relatif à la création des équipes de soins primaires, la loi de modernisation du système de santé (70) complète : « *une équipe de soins primaires est un ensemble de professionnels de santé constitué autour de médecins généralistes de premier recours, choisissant d'assurer leurs activités de soins de premier recours définis à l'article L. 1411-11 sur la base d'un projet de santé qu'ils élaborent (69). Elle peut prendre la forme d'un centre de santé ou d'une maison de santé. L'équipe de soins primaires contribue à la structuration des parcours de santé. Son projet de santé a pour objet, par une meilleure coordination des acteurs, la prévention, l'amélioration et la protection de l'état de santé de la population, ainsi que la réduction des inégalités sociales et territoriales de santé.* » (69).

3.1.4. A La Réunion

Les soins primaires à La Réunion sont organisés autour de plusieurs professions de santé réalisant un maillage du territoire permettant un accès aux parcours de santé à toutes personnes et quel que soit le motif de santé biopsychosociale.

Depuis plusieurs années, l'organisation des soins primaires s'articule sur la création et le développement des maisons de santé pluriprofessionnelles. Ces structures effectrices de soins regroupent des professionnels de santé dans un mode de structuration privilégiant l'exercice coordonné entre les différents professionnels de soins primaires en lien avec les soins secondaires et tertiaires.

Les communautés professionnelles territoriale de santé (CPTS) organisent et coordonnent les professionnels de santé pour favoriser l'exercice coordonné au sein d'un territoire de santé depuis le 26 janvier 2016 et la loi de modernisation du système de santé.

3.2. La médecine générale et le médecin généraliste

Selon le groupe Leeuwenhorst, 1974, « le généraliste est un diplômé médical qui donne des soins personnels, de premier recours et continus à des individus, des familles et un groupe de population, sans considérations d'âge, de sexe ni de pathologie. C'est la synthèse de ses fonctions qui est unique. » (71).

Le médecin généraliste est le premier recours habituel de la personne dans son milieu naturel. Il s'adresse à toutes les personnes sans restriction, ni distinction d'âge, de genre ou de maladie. Il s'adresse à la personne en prenant en compte l'ensemble des dimensions bio-psychosociales, la diversité des risques, les maladies qui peuvent l'affecter, en coordonnant les conséquences des décisions prises par d'éventuels autres intervenants. Le médecin généraliste assure la continuité et le suivi des soins et il contribue par sa prise en soin des individus et des familles à la réalisation des objectifs de santé publique.

Par ses fonctions, le médecin généraliste est en première ligne de la prévention. Il est amené à repérer les signes qui éviteraient ou supprimeraient la cause d'un problème de santé pour une personne, une population, en l'occurrence à repérer le comportement des femmes en âge de procréer vis-à-vis de l'alcool, mais aussi de repérer les signes précoces évocateurs d'un trouble du neurodéveloppement qui amèneraient à proposer un diagnostic et une prise en soin adaptée.

3.3. La prévention et le repérage

La prévention primaire est définie comme une action menée pour éviter ou supprimer la cause d'un problème de santé chez un individu ou dans une population avant qu'il ne survienne. Cela inclut la promotion de la santé et la protection spécifique (67).

La prévention primaire a pour objectif de prévenir la survenue d'une maladie. Pour les TSAF cela passe par le repérage d'un comportement inapproprié à risque chez les femmes et les hommes en âge de procréer avant et pendant la conception et durant la grossesse. Ensuite le repérage se poursuit chez les nourrissons, les enfants, les adolescents et les adultes par la recherche de troubles neurodéveloppementaux, des troubles des apprentissages et des troubles du comportement.

Ce repérage, qu'il soit individuel ou le fait de campagnes de repérage opportunistes, permet d'agir sur les facteurs de risque du TSAF grâce à des outils de repérage comme le RPIB ou l'entretien motivationnel.

3.4. La recherche en soins primaires

3.4.1. Définition

Depuis plusieurs années la recherche en soins primaires se développe et fait l'objet de mesures d'accompagnement. Le comité d'interface de l'Institut national pour la santé et la recherche médicale (INSERM) médecine générale a été créé en 2000.

Plusieurs rapports à destination du ministère de la santé ont préconisé de développer la recherche en soins primaires (72) dont le rapport de Pierre-Louis Druais en 2015 (73).

Le développement de la recherche en soins primaires vise à développer et améliorer les soins primaires, ce qui est une priorité nationale depuis 2013 (74). Depuis cette date, des priorités thématiques, des appels à projets de recherche sur l'offre de soins ont été mises en place par la Direction générale de l'offre de soins (DGOS) (75).

Depuis quelques années, au niveau national, soutenu par l'INSERM, le réseau de Recherche en épidémiologie clinique et en santé publique (RECAP) a été créé regroupant 13 centres d'investigation clinique (CIC). Un groupe thématique a été formé pour les soins primaires. Parmi ses objectifs, ce groupe regroupant des chercheurs de différentes disciplines en santé s'attache à travailler sur la recherche en soins primaires. La première étape a consisté à aboutir à un consensus sur la définition des soins primaires. La deuxième étape a été de faire collaborer les différents acteurs autour de la mise en place de projets de recherche en phase avec l'agenda de recherche en soins primaires du réseau européen de recherche en médecine générale (76).

3.4.2. Le développement de la recherche en soins primaires

La discipline médecine générale est une discipline universitaire jeune où la recherche n'était que très peu développée pendant quelques décennies. Cela explique l'absence de culture de recherche

chez les médecins généralistes, les insuffisances en termes de méthodologie et surtout les faibles financements de cette recherche aboutissant à un faible taux de publication.

Face à ce constat, plusieurs mesures ont été prises depuis le rapport de Gérard de Pourvouville en 2006 (72) et de Pierre-Louis Druais en 2015 (73) pour favoriser le développement de la recherche en médecine générale et plus largement en soins primaires.

Cette recherche passera par le développement des bases de données en soins primaires qui permettront des études cliniques. Ces dernières aboutiront à l'élaboration de recommandations de pratiques cliniques plus adaptées à la prise en soin des patients par les acteurs de soins primaires. Car pour le moment certaines recommandations émanant d'études réalisées en milieu hospitalier ne permettent pas une application pertinente en soins ambulatoires (77).

Le rapprochement des départements universitaires de médecine générale avec les équipes de recherche labellisées (unité INSERM, Centre d'investigation clinique et autres) a facilité le développement de cette recherche, en collaboration avec les autres spécialités et les autres disciplines comme les sciences humaines et sociales. Cette interdisciplinarité et cette interprofessionnalité des acteurs des soins primaires devraient être renforcées pour permettre le développement de protocoles de recherche adoptant une vision globale de la personne.

Pour permettre le développement de ces protocoles de recherche, la création d'un réseau d'investigateurs ambulatoires avec des outils de recueil des données en pratique courante est nécessaire. Ce réseau d'investigateurs permettra de développer la recherche observationnelle et interventionnelle en soins primaires.

Le Collège national des généralistes enseignants (CNGE), préconise que la recherche en soins primaires et son développement, s'appuient sur :

- Un recrutement d'universitaires chercheurs en soins primaires en nombre suffisant,
- Une affiliation à des équipes labellisées INSERM,
- Un développement des appels à projets dédiés aux soins primaires (AAP ReSP-IR, MESSIDORE...),
- Une mise à disposition de personnel (attaché de recherche clinique et technicien de recherche clinique).

Ces éléments permettent le développement des capacités de recherche des MSP-U et les Centres de santé universitaires.

Ce développement s'accompagne de la création dans chaque subdivision de pôles fédératifs regroupant les acteurs de la recherche (Université, Direction de la recherche clinique et de l'innovation (DRCI) des Centres hospitaliers universitaires (CHU), Centres d'investigation clinique (CIC), équipes INSERM, ...).

Ce dispositif sera complété par « *une entité nationale fédérative ayant mission de coordonner dans une perspective stratégique à l'échelle nationale* » organisée sous l'égide du Collège des généralistes enseignants (CNGE) (78).

3.4.3. Les Communautés professionnelles territoriales de santé

Les communautés professionnelles territoriales de santé (CPTS) sont des associations loi 1901 qui regroupent des professionnels de santé, médicaux et paramédicaux, libéraux et salariés, qui travaillent en collaboration et en exercice coordonné pour améliorer la qualité de la prise en soin médicale et paramédicale de la population sur un territoire donné. Leur objectif principal est de renforcer la coordination et la coopération entre les professionnels de santé de première et de deuxième ligne, ainsi qu'avec les structures hospitalières et médico-sociales (79), afin d'organiser des parcours de santé en rapport avec les besoins de la population du territoire en lien avec les actions de santé publique. Elles ne sont pas à proprement parler des structures de recherche mais elles sont des lieux d'élaboration de recherche et de mise en œuvre de protocoles de recherche clinique au sein de leur territoire, en lien avec les effecteurs de soins que sont les maisons de santé pluriprofessionnelles.

À La Réunion, six CPTS couvrent l'ensemble du territoire (figure 9). Chaque CPTS est composée de professionnels de santé exerçant sur le même territoire, et qui travaillent ensemble pour coordonner les soins, améliorer l'accès aux soins et la qualité des soins. Les CPTS ont en particulier pour mission de mettre en place des actions de prévention et de prise en soin des maladies chroniques. Elles peuvent chacune choisir de privilégier certaines pathologies. (80).

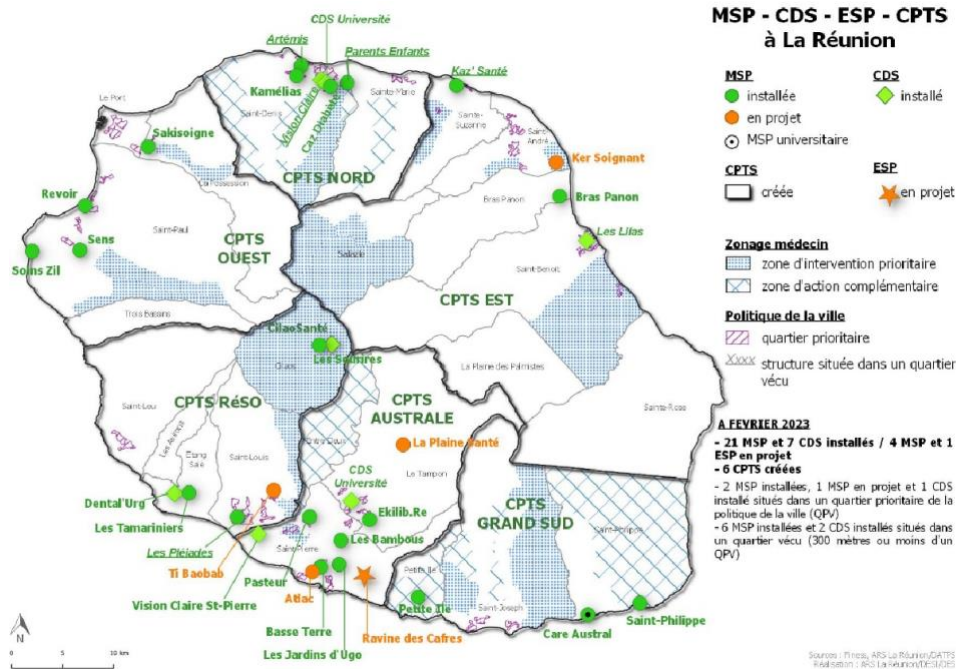


Figure 10 : Carte de l'exercice coordonné des CPTS à La Réunion

CPTS : Communautés Professionnelles Territoriales de Santé ; MSP : Maison de Santé Pluriprofessionnelle ; CDS : Centre De Santé ; ESP : Équipe de Soins Primaires (80).

3.4.4. Les Maisons de santé pluriprofessionnelles universitaires

Les Maisons de santé pluriprofessionnelles (MSP) sont des structures de soins regroupant des professionnels de santé prioritairement de soins primaires travaillant en exercice coordonné. Les Maisons de santé pluriprofessionnelles universitaires (MSPU) sont des MSP répondant à un certain nombre de critères fixés par l'arrêté du 18 octobre 2017 et notamment à propos de la recherche (81). Les critères d'éligibilité sont

- « – avoir un projet de santé et une labellisation MSP par l'ARS ;
- avoir signé l'accord conventionnel interprofessionnel ;
- obtenir les avis favorables du doyen de la faculté de Médecine et du directeur du département universitaire de médecine générale (DUMG) ;

- avoir une majorité de professionnels maîtres de stage des universités agréés et accueillir de façon régulière un étudiant du deuxième cycle, deux du troisième cycle et des étudiants d'autres professions de santé (ou envisager de le faire) ;
- réaliser des travaux en soins primaires, notamment avec la formalisation d'un programme de participation à des travaux de recherche liés aux activités de la structure, le cas échéant avec l'UFR* de médecine ; de plus, les professionnels de la MSP-U doivent participer à la rédaction de revues bibliographiques et d'analyses d'articles ;
- avoir un enseignant titulaire ou associé universitaire de médecine générale et un chef de clinique de médecine générale (ou ancien chef de clinique). Les deux doivent travailler au sein de la maison de santé pluriprofessionnelle. »

3.5. La recherche action

Face à la problématique de la prévention et du repérage des troubles de l'alcoolisation fœtale, une recherche action a été proposée.

3.5.1. Définition

La recherche action est une méthode de recherche permettant d'être centrée sur le terrain ((82)). Elle a pour objet de partir du terrain en proposant un diagnostic de territoire en rapport avec une problématique de santé : ici La Réunion et les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale.

La recherche action est considérée comme une recherche appliquée. Elle consiste à développer une ou des stratégies pour élaborer des solutions de terrain pour répondre dans le domaine de la santé à des problématiques de soins, de parcours ou d'organisation des structures de santé. Le fondement de la recherche action est l'apprentissage par la pratique.

Trois groupes différents peuvent être individualisés. La recherche action classique ou positiviste qui considère la recherche comme une expérience sociale. Elle permet de mettre à l'épreuve du monde réel, les théories élaborées.

Le deuxième groupe dit « recherche action contemporaine », considère que la réalité de terrain est ancrée dans la société. Cette recherche se focalise sur les facteurs locaux et organisationnels.

Le troisième groupe dit « critique » introduit une réflexion critique sur les systèmes mis en place et propose des modifications en vue de les améliorer.

Quoi qu'il en soit, il s'agit d'une approche systémique que le chercheur met en œuvre dans un contexte spécifique pour identifier et résoudre des problèmes.

3.5.2. Spécificités

La recherche action se définit par son processus de planification cyclique et itératif, sa mise en action, sa réflexion et ses ajustements des actions sur la base de l'état des lieux. Elle se déroule en cinq étapes, après avoir identifié et construit la question de recherche à partir de la problématique identifiée.

La première étape est un état des lieux de la problématique en collectant les connaissances actuelles sur la thématique, à comprendre les enjeux, à identifier ce qui fonctionne et ce qui ne fonctionne pas afin d'élaborer la planification de la recherche. Ce plan de recherche comprendra les objectifs, les méthodes, le recueil des données et la temporalité de l'étude. La collecte des données et leur analyse aboutiront à un état des lieux. Une réflexion sera produite pour passer à l'étape suivante.

La deuxième étape est l'élaboration d'un plan d'actions de terrain sur la base de la réflexion en décrivant les mesures pour amener à résoudre ces problématiques.

La troisième étape est la mise en place des actions qui est constituée de stratégies, d'observations, d'interventions identifiées préalablement, qu'il s'agisse de modifier les pratiques existantes ou d'introduire de nouvelles approches. Ce processus sera documenté tout au long de la mise en œuvre des actions.

En quatrième étape, une évaluation de ces actions est mise en œuvre pour identifier les améliorations, l'atteinte des objectifs et les ajustements nécessaires. Une réflexion sera apportée sur les modifications positives et les modifications négatives.

En cinquième et dernière étape, un retour vers les participants de terrain afin de leur exposer les résultats, et de choisir avec eux, les actions qui ont porté leurs fruits. Cela permettra d'ajuster le cycle suivant de recherche action si cela est nécessaire dans un processus itératif de plusieurs cycles qui repose à chaque fois sur les progrès établis au cycle précédent, pour favoriser l'apprentissage et les modifications continues.

3.6. Choix méthodologique

Les déterminants du choix de la recherche action étaient principalement liés à notre volonté d'une approche systémique de la prévention et du repérage des TSAF en population générale et d'un ancrage sur le terrain.

Le processus dynamique itératif à l'élaboration d'actions, à leur mise en place et leur évaluation pour un retour vers les acteurs de terrain participant à l'étude pour envisager ensemble une nouvelle recherche action.

Le choix de la méthode qualitative pour compléter l'état des lieux réalisé par une revue narrative répond au même déterminant. Le caractère exploratoire de la recherche qualitative est ancré sur le terrain. Le parallèle avec la recherche action peut être fait.

En effet, pour explorer la complexité des situations cliniques rencontrées en soins primaires, la recherche qualitative est complémentaire en tous points, des recherches médicales habituelles quantitatives que sont les études épidémiologiques, les essais randomisés, les études de cohorte.

Quand il est difficile de mesurer objectivement certains facteurs de situation de soins, alors la recherche qualitative est appropriée. Cette recherche regroupe diverses perspectives tant sur les bases théoriques, inductive générale, théorisation ancrée, phénoménologie que dans les techniques de recueil de données par entretien, par observation, par observations participantes par immersion. La démarche scientifique reste tout aussi rigoureuse, pas à pas avec des critères de scientificité, validité interne et externe qui garantissent la pertinence des résultats.

3.7. La Réunion région pilote

La Réunion a été région pilote pour le plan d'action de prévention du SAF, avec notamment un axe de formation des professionnels de santé et un sur l'amélioration du parcours de santé des femmes

exposées à l'alcool durant la grossesse et les enfants exposés (43). Malgré cette volonté, l'évaluation du programme en 2019 par l'ARS a montré un déficit d'investissement des MG sur les formations (83). Ceux-ci rapportaient par ailleurs, une difficulté à aborder l'alcool en consultation et en particulier pour les femmes. Le tabou de l'alcool reste important dans la société française (84) et à La Réunion.

Devant ce constat, la recherche action a toute sa place afin d'accompagner les professionnels dans cette thématique de prévention et repérage du TSAF.

Le choix de la recherche action était également sous tendu par le renforcement du lien entre les usagers, le clinicien et le chercheur immergé dans son terrain d'étude en lien avec l'université.

Cela questionne le lien entre les trois valences que sont le soin, l'enseignement et la recherche. Les soins primaires offrent la possibilité pour le chercheur de se positionner vis-à-vis de la recherche clinique et de son objectif au service des usagers et de la population générale. La recherche action permet cet ancrage terrain et la participation des acteurs de terrain à toutes les étapes de la recherche action depuis l'état des lieux jusqu'au retour vers les participants.

La recherche action concilie dans cette démarche de recherche les trois valences, tout en prenant en compte la perspective des médecins généralistes et des autres acteurs de santé.

3.8. Objectif de la recherche action

Dans ce contexte, les objectifs principaux de ce travail de recherche étaient en premier objectif, grâce à une synthèse de la littérature d'établir un constat des connaissances scientifiques du médecin généraliste dans la prise en soin des TSAF. Le deuxième objectif était de d'explorer et de comprendre les leviers et les obstacles des médecins généralistes sur la prévention des TSAF et le repérage des patients atteints d'un TSAF à La Réunion.

Ces deux premiers objectifs correspondaient à la première étape de la recherche action, l'état des lieux.

Le troisième objectif était de définir un consensus autour des actions de prévention et de repérage des TSAF en médecine générale à partir de l'état des lieux.

Le troisième objectif correspondait à la deuxième étape de la recherche action, l'élaboration des actions.

Ce travail de recherche a pour vocation à être poursuivi par les trois étapes suivantes de la recherche action, à savoir la mise en place des actions, l'évaluation des actions et le retour vers les participants. Cette partie du processus de recherche ne fait pas partie de ce mémoire de recherche de thèse de science.

A l'issue de ce processus de recherche, ce travail a pour vocation d'aider à la conceptualisation d'actions de prévention et de repérage des troubles du neurodéveloppement adaptées au contexte de la pratique du MG.

4. Résultats

4.1. État des lieux

Dans le cadre de la recherche action, la première étape était d'établir un état des lieux, indispensable pour réaliser l'inventaire de l'existant.

Celui-ci a débuté par une revue narrative de la littérature pour identifier les actions de prévention de repérage, de dépistage, de diagnostic des TSAF en soins primaires à travers le monde. Cette revue a été complétée par une enquête auprès des médecins généralistes réunionnais afin de comprendre comment ils appréhendent la prévention et le repérage des troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale dans leur pratique clinique. Cette exploration a permis de comprendre, selon le point de vue des médecins, les différents processus attachés à la réalisation des actions de prévention et de repérage des TSAF.

4.1.1. La revue de la littérature

4.1.1.1. Objectif et méthode

L'objectif de ce travail était de réaliser un état des lieux de la littérature scientifique sur les interventions possibles en soins primaires auprès des hommes et de femmes en âge de procréer

avec ou sans désir de grossesse, des femmes enceintes et des personnes atteintes de TSAF en termes de prévention, de repérage, de diagnostic et de prise en soin.

Une revue narrative de la littérature a été menée conformément aux lignes directrices PRISMA à partir des revues scientifiques. Cinq ressources numériques ont été mobilisées en déclinant une stratégie de recherche élaborée avec l'aide des directeurs de thèse. Différents mots clés correspondant aux différentes variantes de TSAF: " fetal alcohol syndrome ", " fetal alcohol spectrum disorder ", " general medicine ", " primary care ", " primary care " ont été utilisés pour la recherche avancée de ces publications. La recherche a été effectuée en français et en anglais.

Une première étape ciblant la prévention et le repérage des TSAF avait été réalisée par le Dr Michel Spodenkiewicz. Dans le cadre de ce travail de thèse cette première revue a été réorientée vers la médecine générale. Le choix des mots clefs a été vérifié et modifié par rapport à la recherche initiale. De nouvelles constructions d'équations de recherche ont été effectuées. Le choix des moteurs de recherche a été discuté. La recherche a été effectuée à plusieurs reprises au regard du temps long de cette thèse d'université menée en temps partagé avec l'activité de soins, d'enseignement et de recherche.

4.1.1.2. Article 1

Un premier article publié le 22 février 2024 dans la revue *BMC Primary Care* restitue ce travail de revue de la littérature (Leruste S, Doray B, Maillard T, Lebon C, Marimoutou C, Spodenkiewicz M. Scoping review on the role of the family doctor in the prevention and care of patients with foetal alcohol spectrum disorder. *BMC Prim. Care* **25**, 66 (2024). <https://doi.org/10.1186/s12875-024-02291-x>). Le résumé est présenté dans l'encadré ci-dessous. Une copie de la version publiée est présentée pages 58 à 73.

Contexte : Les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale (TSAF) sont la principale cause évitable de retard mental non génétique. Compte tenu du parcours de soins du patient, le médecin généraliste est en première ligne pour la prévention et l'identification de l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation fœtale. Reconnaisant l'importance de la prévalence des TSAF, les

médecins généralistes sont en première ligne à la fois pour la détection et le diagnostic des TSAF et pour le message de prévention aux femmes en âge de procréer ainsi que pour le suivi.

Objectifs de l'étude : L'objectif principal de l'étude exploratoire était de proposer une référence pour les interventions qui peuvent être mises en œuvre par un médecin généraliste auprès des femmes en âge de procréer, de leurs partenaires et des patients atteints de TSAF. Le but final de cette revue est de contribuer à l'amélioration des connaissances et de la qualité des soins pour les patients atteints des TSAF.

Méthodes utilisées : Une étude exploratoire a été réalisée à partir de bases de données d'articles évalués par des pairs, conformément aux lignes directrices PRISMA. La stratégie de recherche a été basée sur la sélection et la consultation d'articles sur cinq ressources numériques. La recherche avancée de ces publications a été effectuée à l'aide des mots-clés correspondant aux différentes variantes des TSAF et à la pratique de médecine générale : " fetal alcohol syndrome ", " fetal alcohol spectrum disorder ", " general medicine ", " primary care ", " primary care " ; recherche en français et en anglais.

Résultats : Vingt-trois articles répondant aux critères de recherche ont été sélectionnés. Les interventions des médecins généralistes dans la prise en soin des patients atteints des TSAF sont multiples : prévention, identification, diagnostic, suivi, éducation, rôle de coordinateur pour les patients, leurs familles, les femmes enceintes et leurs partenaires. Les TSAF semblent encore sous-diagnostiqués.

Conclusion : Le médecin généraliste, tout en restant l'interlocuteur principal, devrait être mieux informé et formé, à la fois sur les TSAF et sur les réseaux de soins pour optimiser ces prises en soins complexes.

Il est crucial d'encourager les médecins généralistes à initier un dialogue sans tabou sur la consommation d'alcool par un repérage précoce et des interventions brèves systématiques. Les agences de santé nationales et locales devraient mieux contrôler la publicité pour l'alcool. Une étude complémentaire avec un essai randomisé en grappes auprès d'un groupe de praticiens de soins primaires formés au dépistage de la consommation d'alcool pendant la grossesse serait utile pour mesurer l'impact de l'information des femmes en âge de procréer sur la consommation d'alcool et sur l'état clinique de leurs enfants.

RESEARCH

Open Access



Scoping review on the role of the family doctor in the prevention and care of patients with foetal alcohol spectrum disorder

Sébastien Leruste^{1,2*}, Bérénice Doray^{1,2,3,4,5}, Thierry Maillard⁶, Christophe Lebon¹, Catherine Marimoutou^{1,2} and Michel Spodenkiewicz^{1,2,7,8}

Abstract

Background Foetal alcohol spectrum disorder (FASD) is the leading preventable cause of nongenetic mental disability. Given the patient care pathway, the General Practitioner (GP) is in the front line of prevention and identification of FASD. Acknowledging the importance of the prevalence of FASD, general practitioners are in the front line both for the detection and diagnosis of FASD and for the message of prevention to women of childbearing age as well as for the follow-up.

Objectives The main objective of the scoping review was to propose a reference for interventions that can be implemented by a GP with women of childbearing age, their partners and patients with FASD. The final aim of this review is to contribute to the improvement of knowledge and quality of care of patients with FASD.

Methods A scoping review was performed using databases of peer-reviewed articles following PRISMA guidelines. The search strategy was based on the selection and consultation of articles on five digital resources. The advanced search of these publications was established using the keywords for different variations of FASD: "fetal alcohol syndrome," "fetal alcohol spectrum disorder," "general medicine," "primary care," "primary care"; searched in French and English.

Results Twenty-three articles meeting the search criteria were selected. The interventions of GPs in the management of patients with FASD are multiple: prevention, identification, diagnosis, follow-up, education, and the role of coordinator for patients, their families, and pregnant women and their partners. FASD seems still underdiagnosed.

Conclusion The interventions of GPs in the management of patients with FASD are comprehensive: prevention, identification, diagnosis, follow-up, education, and the role of coordinator for patients, their families, and pregnant women and their partners.

Prevention interventions would decrease the incidence of FASD, thereby reducing the incidence of mental retardation, developmental delays, and social, educational and legal issues.

A further study with a cluster randomized trial with a group of primary care practitioners trained in screening for alcohol use during pregnancy would be useful to measure the impact of training on the alcohol use of women of childbearing age and on the clinical status of their children.

Keywords Family doctor, Foetal alcohol spectrum disorder, Prevention, Care, Scoping review

*Correspondence:

Sébastien Leruste

sebastien.leruste@univ-reunion.fr

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



© The Author(s) 2024. **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.

Background

The harmful effects of alcohol consumption in the prenatal period have been recognized and studied for half a century [1, 2]. Prenatal alcohol exposure causes a range of disorders of varying severity, including prematurity, intrauterine growth retardation, fetal loss and stillbirth [3].

The most comprehensive category is Fetal Alcohol Syndrome, which includes growth retardation, craniofacial dysmorphism and neurodevelopmental disorders.

Another category is Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorder (ARND), which manifests itself in psycho-affective and socialization disorders, with difficulties in social interaction, and adjustment disorders linked to problems of memory, attention or hyperactive behavior.

Finally, the last category includes alcohol-related birth defects (ARBD), such as cardiac and musculoskeletal malformations, complete [4].

Of all the categories that make up FASD, ARND is the most common, and FAS probably represents only 5–7% of FASD.

Fetal alcohol syndrome (FAS) is the first described and best known FASD. It is sometimes considered the most severe form [5]. FAS is the leading cause of congenital nongenetic mental disability and social maladjustment in children. It is entirely preventable [6, 7]. It is the only form of FASD with an International Classification of Diseases (ICD) code: Q86.0 in the ICD-10 and LD2F.00 in the ICD-11 [8]. The diagnosis is primarily clinical (Table 1).

Patients with FAS present a characteristic dysmorphic feature because maternal alcohol use during the first trimester of pregnancy disrupts normal brain and facial development of the fetus.

There are also partial forms of FAS, resulting in learning difficulties and/or impaired social adaptation (school failure, conduct disorders, delinquency, incarceration, marginality and substance abuse in adolescence) [9].

The generic term FASD is used to group all these symptomatic forms in which prenatal alcohol exposure is the primary aetiology.

Confirmation of prenatal alcohol exposure is necessary for the diagnosis of FASD.

"The diagnosis of FASD without FAS thus remains a syndromic diagnosis that associates proven and symptomatic neurocognitive deficits with prenatal alcohol exposure (PAE) in the absence of other detectable neurodevelopmental diseases" [10].

The severity of FASD is linked to the level of brain damage.

The Institute of Medicine (IOM) and Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders V (DSM-5) terms are not listed as diagnostic conditions in the defined criteria, although they are useful for classification [11] (Table 2).

The DSM-5 includes the Neurobehavioral Disorder Associated with Prenatal Alcohol Exposure (ND-PAE) regardless of the presence or absence of the physical effects of prenatal alcohol exposure. People who meet the criteria for an FASD diagnosis according to the IOM may also meet the criteria for ND-PAE. Thus, the

Table 1 Diagnostic criteria for Fetal Alcohol Syndrome

1) Confirmation of Prenatal Alcohol Exposure (PAE)
2) The characteristic craniofacial dysmorphism of FAS including:
- Narrow palpebral clefts,
- An elongated, bulging philtrum with no relief,
- A short nose with anteverted nostrils,
- A thin and narrow upper lip,
- A small recessed chin
3) Growth retardation either prenatal (intrauterine growth retardation (IUGR)) or postnatal. This delay affects head circumference, weight and height
4) Evidence of central nervous system (CNS) damage, which may be:
- structural: cerebral growth deficiency (e.g. microcephaly, agenesis of the corpus callosum, cerebellar hypoplasia)
- functional: manifested by mild or profound neurological disorders (depending on age) such as fine motor disorders, sensorineural deafness, poor gait, poor hand-eye coordination
These last three criteria (2, 3 and 4) constitute the symptomatic triad of the syndrome
Thus, when alcohol consumption is not documented but these three criteria are evident, the diagnosis of "FAS without confirmation of Prenatal Alcohol Exposure" can be made
5) The presence of behavioral and cognitive abnormalities that are inconsistent with developmental level and cannot be explained by family history or environment alone, such as learning disabilities, deficits in academic performance, poor control of impulsivity, difficulties in social perception, deficits in receptive and expressive language, reduced capacity for abstraction or metacognition, specific deficits in mathematics, problems with memory, attention, or judgment

Table 2 FASD subtypes established by the Institute of Medicine in 1996)

Fetal Alcohol Syndrome (FAS)
Partial Fetal Alcohol Syndrome (pFAS)
Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorder (ARND)
Alcohol-Related Birth Defects (ARBD)

neurodevelopmental deficits encountered in FASD are not pathognomonic [12]. However, diagnostic guidelines and a 4-digit code have been established that emphasize neurodevelopmental assessment [13–15]. The prevalence of FASD is 7.7‰ of births worldwide, with an extrapolation for France of 7,700 cases of births per year. ARND is ten times more common than FAS [16].

FASD is a common medical situation, included in primary care. However FASD remained largely underdiagnosed. Inadequate diagnostic practices might also play a role in prevalence and incidence rates, including miscarriages or stillbirths due to prenatal alcohol consumption [17].

Acknowledging the importance of the prevalence of FASD, general practitioners are in the front line both for the detection and diagnosis of FASD and for the message of prevention to women of childbearing age [18, 19] as well as for the follow-up [20–24]. In contrast to another form of neurodevelopmental disorder, such as autism spectrum disorder, articles published in peer-reviewed journals related to the prevention actions of FASD by the general practitioner have not yet been included in a scoping review [25].

The main objective of the literature review was to identify interventions that can be implemented by a general

practitioner with women of childbearing age, their partners and patients with FASD.

Methods

A scoping review was performed using databases of peer-reviewed articles following PRISMA guidelines for writing and reading systematic reviews and meta-analyses [26]

The search strategy was based on the selection and consultation of articles on the digital resources PsycINFO, Medline, PubMed and Cairn, complemented by a search in Google Scholar. The advanced search of these publications was established using the keywords for different variations of FASD: "fetal alcohol syndrome", "fetal alcohol spectrum disorder", "family medicine", "general medicine", "primary care" or "primary care" searched in French and English.

Inclusion criteria:

- Articles concerning family medicine, general medicine or primary care published in peer-reviewed journals
- Articles concerning FAS or FASD
- Articles in French or English
- No publication deadline

Noninclusion criteria:

- Gray literature (i.e.: books, websites)

The selection process is summarized in Fig. 1. The last search date was March 9, 2022.

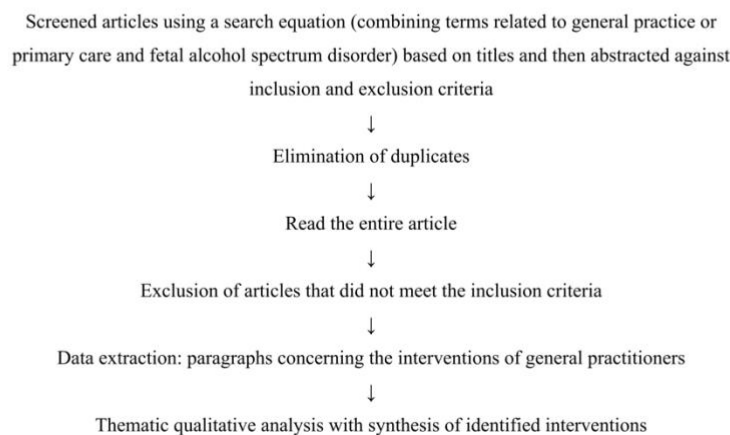


Fig. 1 Flow chart of the article selection strategy

SL reviewed all article titles and abstracts and selected those eligible for full-text review. MS checked the eligibility of full-text articles. SL and MS discussed the discrepancies to arrive at the final list. Articles were categorized according to the chosen plan for this work: prevention, identification/screening, diagnosis, and management of patients with fetal alcohol spectrum disorder. SL created a data collection form and tested it on three articles.

Their analysis was conducted using unstructured thematic qualitative analysis.

Results

Twenty-three articles meeting the search criteria were selected.

The result of the scoping review process are summarized in Fig. 2.

The results of this scoping review are presented in a tabular form, summarizing the main findings (Table 3). They were further classified into subgroups according to their main theme: prevention, detection-screening, diagnosis, intervention, and therapeutics.

Discussion

The articles agreed that alcohol exposure during pregnancy and its consequences were a major clinical public health problem. Given the front-line role of the general practitioner, they had a primary role in the management of FASD, from prevention to follow-up of affected individuals.

The interventions of the general practitioner were multiple, ranging from prevention (with pregnant women and women of childbearing age), identification, diagnosis, follow-up, education (patient/family/relatives), to coordination of multidisciplinary care (specialized medical, paramedical, social, educational).

The current studies and recommendations were exclusively from English-speaking countries. With regard to this organization, the general practitioner is theoretically the first line of care for people with FASD.

However, several propositions of intervention that can be implemented in general practice have emerged on the basis of the experience of North American and Australian practitioners.

The most relevant screening and diagnostic tools for the prevention and care of patients with fetal alcohol

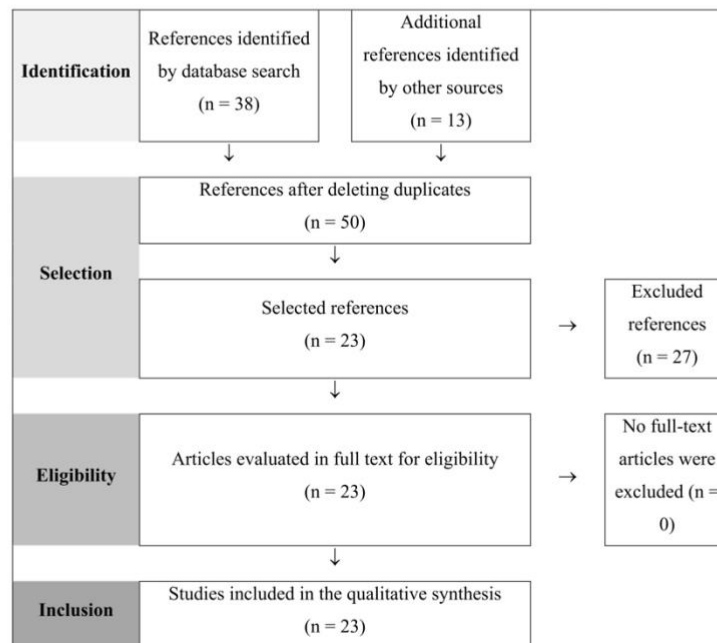


Fig. 2 Flow diagram for the scoping review process adapted from PRISMA recommendations

Table 3 Description of included articles

	#	AUTHOR	COUNTRY	TYPE OF ARTICLE	MAIN RESULTS
PREVENTION	[20]	Masotti et Al. 2003	Canada	Letter to the editor	Influential role of family in alcohol use among American adolescents Importance of considering multi-factorial elements (holistic, socio-economic, communication, family, notion of non-guilt) Approach must be culturally appropriate and accessible for Aboriginal women Primary role of the doctor/patient relationship (communication) Acceptable to clinicians and easily implemented
	[18]	Loock et al. 2005	Canada	Expert recommendations	Primary care physicians have a key role in preventing FASD in heavy drinkers (any woman with > 7 drinks/week or 3 drinks/day)
	[27]	Ramussen et al. 2010	Canada	Retrospective study	Evaluation of a prevention program for women at risk of having a child with FASD and significant pre/post program improvement in at risk birth control
	[21]	Zoorob et al. 2014	USA	Review of the literature	The Centers for Disease Control and Prevention's (CDC), the American Academy of Family Physicians (AAFP), and the American Congress of Obstetrics and Gynecology (ACOG) recommend that all women of childbearing age be targeted regarding alcohol consumption to prevent the effects of alcohol on the newborn
	[6]	M. Anne George et Al. 2014	Canada	Observational study	A study of the needs of practitioners involved in the management of FASD in British Columbia FASD was a preventable health problem affecting approximately 10% of the population Canadian Guidelines for Diagnosis and Assessment Provincial Outreach Program for Fetal Alcohol Spectrum Disorder (POPFASD)
	[28]	Floyd et al. 2007	USA	Non-randomised retrospective comparative study	Study of 830 women at risk. Half received simple information on the risks of drinking during pregnancy, the other half received motivational talks (4 counseling sessions), a contraceptive consultation, a visit to hospital services (CHOICES project). Intervention goal: to encourage women to change either of the target behaviors (risky alcohol use and ineffective contraception) Significant difference in reduction of FASD for the group receiving counseling

Table 3 (continued)

#	AUTHOR	COUNTRY	TYPE OF ARTICLE	MAIN RESULTS
[29]	George MA et al. 2007	Canada	Action research	The goal was to assist in the prevention of FASD through a participatory research approach involving local women and health workers in developing culturally appropriate methods to help women reduce their alcohol use during pregnancy Designed four different models of culturally appropriate community-based interventions based on five key features: identification of at-risk women; assessment of the woman's substance use; provision of information to women; a delivery method that facilitates the decision to adopt healthier behaviors; and ways to monitor change
[30]	Peardon et al. 2007	Australie	Recommendation	Identify the role of the general practitioner in the prevention and management of FASD Most health professionals have limited knowledge of FASD and lack confidence in diagnosing and managing children with FASD. General practitioners have an important role to play in identifying women and children at risk of alcohol-related harm and in arranging for referral for assessment and management when necessary
[31]	Mendoza R et al. 2020	Espagne	Retrospective cross-sectional descriptive study	To analyze the extent to which pregnant women recalled receiving health advice about drinking during pregnancy, what the perceived message was, and whether there was a social inequity 43% of women surveyed reported that they had not received any health advice on this topic. Only 43.5% of the sample recalled receiving the correct message (not to drink alcohol at all during pregnancy) from their midwife, 25% from their obstetrician, and 20.3% from their general practitioner. Women with low levels of education reported the least amount of health advice on this topic The recommended health advice to avoid alcohol consumption during pregnancy did not effectively reach a large proportion of pregnant women
[32]	Crawford-Williams F et al. 2015	Australie	Qualitative study	Health professionals demonstrated adequate knowledge that alcohol can cause lifelong physical and mental difficulties. However, knowledge of the term FASD was limited. Many did not incorporate the prevention message into their practice, and several questionable judgments were noted It is important to ensure that national guidelines are supported by health professionals
SCREENING	[18] Looek et al. 2005	Canada	Expert recommendations	Recommended screening tools: CRAFFT (for adolescents) (sensitivity 70%, specificity 94%) and CAGE (T-ACE (sensitivity 70%, specificity 85%) and TWEAK for all women (sensitivity 79%, specificity 83%)) Criteria for referral to expert centers

Table 3 (continued)

#	AUTHOR	COUNTRY	TYPE OF ARTICLE	MAIN RESULTS
[21]	Zoorob et al. 2014	USA	Review of the literature	Primary care practitioners are ideally positioned to screen patients with alcohol use disorders. SBI can improve patient health, reduce alcohol dependence, and prevent future alcohol-exposed pregnancies
[19]	R.L Floyd et Al. 1999	USA	Expert opinion	The Changing High risk alcohol use and Increasing Contraception Effectiveness Study (CHOICES). Goal: to identify women at high risk of having an alcohol-exposed pregnancy before they become pregnant, to provide an alcohol risk reduction intervention and to delay pregnancy until alcohol withdrawal Need for multidisciplinary support including primary care
[33]	SK Clarren et Al. 1998	USA	Retrospective study	Primary prevention essential in FASD Women with FAS children = prime targets (FASD often under-diagnosed) University of Washington: implementation of a screening tool: Fetal Alcohol Syndrome Diagnostic and Prevention Network
[22]	P M Davis et Al. 2008	Canada	Retrospective study	Primary care practitioners play a key role in screening women at risk for FASD Primary care practitioners may find screening difficult, time-consuming and even uncomfortable Online questionnaire to assess the needs of primary care practitioners in screening
[34]	Tan CH et al. 2016	USA	Cross-sectional study	The U.S. Preventive Services Task Force (USPSTF) recommended that primary care professionals screen all adults and conduct brief counseling interventions with those who misuse alcohol. The USPSTF preferred the use of three screening tools that measure alcohol use (Alcohol Use Disorders Identification Test, Alcohol Use Disorders Identification Test-Consumption, and National Institute on Alcohol Abuse and Alcoholism Single Question) because these tools detect the full spectrum of alcohol abuse in adults The objective was to estimate the prevalence of alcohol misuse screening practices by primary care professionals and examined factors associated with the use of a USPSTF preferred screening tool A cross-sectional study was conducted on self-reported 2016 DocStyles data from 1,506 primary care providers 96% of providers had reported screening their patients for alcohol abuse. Of those who screened, 38% used a USPSTF recommended screening tool. Provider specialty, knowledge of USPSTF guidelines, and mode of administration of the screening tool were associated with use of a preferred screening tool. About two-thirds did not use a tool capable of detecting FASD

Table 3 (continued)

#	AUTHOR	COUNTRY	TYPE OF ARTICLE	MAIN RESULTS
[35]	O'Connor MJ et al. 2014	Afrique du sud	Intervention	<p>Training community workers to screen for FASD</p> <p>Community workers in Cape Town, South Africa, were trained to screen for FASD in 139 children aged 18 months with prenatal alcohol exposure (PAE). Children were assessed for salient characteristics of PAE subjects using height, weight, head circumference (OFC), philtrum, and lip measurements according to criteria established by the Institute of Medicine. Children who screened positive were referred for diagnostic evaluation to a pediatrician trained in the diagnosis of FASD</p> <p>Of the screen-positive children, 93% were diagnosed with FASD, suggesting that the screening procedure was highly sensitive. Diagnoses included 15% FAS, 23% partial FAS, and 62% ARND</p> <p>The use of community workers to screen for FASD is a promising approach for effective diagnosis of children affected by PAE in areas lacking adequate medical resources</p>
[36]	Shanley DC et al. 2019	Australie	Mixed intervention	<p>The Yapatjarrathati (named by the local First Nations community and meaning "to be well") project is a mixed-methods implementation trial of a multi-level assessment process to identify FASD in a remote Australian community</p> <p>A culturally sensitive, multi-level neurodevelopmental assessment process to identify FASD and training materials to enhance the skills of remote practitioners with varying levels of expertise were implemented</p>
[37]	Farlane et al. 2007	Canada	historical article	<p>The article describes the history of the Lakeland Centre for FASD in developing the model and the diagnostic process used to diagnose children and adults. Rural adaptations of similar urban models are discussed. Essential elements of rural in-kind services are also discussed, as well as current challenges. Given the evolution of terminology over the years covered by this article, the term FASD (Fetal Alcohol Spectrum Disorder) is used throughout</p>

Table 3 (continued)

#	AUTHOR	COUNTRY	TYPE OF ARTICLE	MAIN RESULTS
[38]	Washio Y 2017	USA	Intervention	Community-based pilot program to reduce alcohol use among pregnant mothers Participants were required to provide daily breath samples with monetary incentives for negative samples for alcohol. The program has treated four pregnant mothers to date, with an average compliance rate of 94% and no positive alcohol breath samples. Planned future adjustments include the use of a remote reloadable debit card to reinforce daily sample submission, a shift to fully randomized testing programs to avoid false negative results, and expansion of the program's service to additional counties. The community-based program using mobile technology promises to increase opportunities to reinforce a healthy lifestyle during pregnancy
[22]	Davis PM et al. 2008	Australie	Cross-sectional study	A mail and online survey was distributed in the spring of 2006 to family physicians/general practitioners and nurse practitioners to assess current alcohol risk assessment practices and learning and resource needs among primary health care professionals in Saskatchewan. A total of 876 surveys were distributed and 386 were returned, for an overall response rate of 44.1%. The majority of survey respondents reported rarely or never using a standardized screening tool to assess women's risk for alcoholism or using a less sensitive standardized screening tool. Current practices varied by gender, length of practice, and practice location, while learning and resource needs were more likely to be identified by nurse practitioners, female physicians, and physicians in rural areas. Physicians who had been in practice less than 5 years were more likely to want an online course
[24]	SC Tough et Al. 2008	Canada	Descriptive article	Important role of primary care practitioners in the prevention and diagnosis of FASD
[39]	A Hanlon Dearman 2015	Canada	Expert recommendations	Role of the primary care practitioner: screening for child maltreatment, aiming for stability or even placement, educational role to minimize and prevent further maltreatment Role of Primary Health Care Provider (PHCP) in screening children for communication problems in children exposed to alcohol prenatally and referring them early to speech-language pathologists
DIAGNOSIS	[18] Loock et al. 2005	Canada	Recommandations d'expert	Guide of recommendations for primary care practitioners to enable early diagnosis (and a more favorable evolutionary trajectory) Complex diagnosis facilitated by tools such as the 4-Digit Code

Table 3 (continued)

#	AUTHOR	COUNTRY	TYPE OF ARTICLE	MAIN RESULTS
[39]	A Hanlon Dearman 2015	Canada	Expert recommendations	<p>Important role of primary care practitioners in raising alcohol-related issues Primary care professionals do not routinely bring up alcohol issues (discomfort, lack of time, insufficient remuneration, fear of stigma, and/or lack of information about how to handle a discussion about alcohol use/intervention strategies) Need to have respectful, compassionate conversations; be informative Specific tools: CRAFFT for adolescents (sensitivity 70%, specificity 94%), modified CAGE (T-ACE (sensitivity 70%, specificity 85%) and TWEAK for pregnant and non-pregnant women (sensitivity 79%, specificity 83%)), AUDIT (Alcohol Use Disorder Identification Test) (sensitivity 81%, specificity 95%). Motivational interviewing has its place and is effective in reducing alcohol use during pregnancy Role of primary care professionals in the assessment of children with FASD (referral to care including mental health, information to families) Early diagnosis and treatment of co-morbidities will reduce the burden of care for individuals with FASD and their families. Important role of primary care professionals in early identification of individuals who may have been exposed to alcohol prenatally with a complete medical and prenatal history</p>
[40]	Wagner B et al. 2018	Australie	Randomised trial	<p>This self-controlled cluster randomized trial evaluated the effectiveness of an 8-week school-based program of the Alert program in improving self-regulation and executive function in children living in remote Australian Aboriginal communities from grades 1 to 6. Trained teachers delivered the Alert program to students in weekly one-hour lessons. Student outcomes were assessed at three different time points. For the intervention condition, data collection took place 2 weeks immediately before and after the intervention, with a subsequent 8-week follow-up. For the control conditions in groups two through four, the control data collection corresponded to the data collection for the intervention condition in the previous group. The primary outcome is change in self-regulation. FASD diagnoses will be determined by review of medical records after data collection is complete</p>
[41]	V K Temple et Al. 2015	Canada	Descriptive article	<p>An interdisciplinary clinic that diagnoses Fetal Alcohol Spectrum Disorder with a focus on adults. The clinic is part of an interdisciplinary community health agency specializing in intellectual and developmental disabilities</p>

Table 3 (continued)

	#	AUTHOR	COUNTRY	TYPE OF ARTICLE	MAIN RESULTS
CARE	[39]	Hanlon Dearman 2015	Canada	Expert recommendations	Importance of a multidisciplinary team with the PHCP (Primary Health Care Provider) as the coordinator, focused on the young patient and family Key role of the PHCP and support team in ensuring a successful transition from childhood to adulthood, planning for the resources the child will need in adulthood The PHCP should be aware of support services for individuals with FASD and make early referrals to school and family support services Urgent need for PHCP involvement in the active care of individuals with FASD and their families across the lifespan. PHCPs are trained in screening, prevention and management of health needs PHCP must ensure the transmission of academic knowledge about FASD and its management to families, the educational system (schools...) Role as coordinator of the multidisciplinary care team. The management of FASD involves education, social and justice systems Because specialized care is not always accessible to patients and families in remote areas, the PHCP has an important role as an expert and coordinator of care. The purpose of these guidelines is to provide the PHCP with the latest mental and physical health recommendations for the care of patients with FASD. The PHCP's commitment will provide an integrated system of care for individuals affected by prenatal alcohol exposure and their families
	[20]	Masotti 2003	Canada	Letter to the editor	Major role of primary care in the management of FASD
	[6]	George et Al. 2014	Canada	Analysis	Professional skills program for youth, education program for police officers, social workers and others on how to deal effectively with people with FASD
	[23]	Masotti et Al. 2015	Canada	Expert recommendation	Management of people with FAS: multifactorial (medical and social) with difficulty in the coordination and continuity of care Primary care has a privileged place in the integration of multidisciplinary care This concerns prevention, diagnosis, treatment with an impact on quality of life

spectrum disorder are grouped together within Additional file 1.

Prevention and detection

As a front-line actor, the general practitioner has a major role in the primary prevention of fetal alcohol syndrome

for pregnant women but also for women of childbearing age and their partners. Exposure to alcohol during the early first trimester is the most harmful period for the baby. Prevention before pregnancy is essential, especially since most pregnancies are discovered after 6 weeks of amenorrhea [19]. Women who had already had a child

with FASD were a particularly high-risk population and required special support [20, 21, 33]. Prevention programs have shown their effectiveness [27]. This could involve identifying women at risk of drinking alcohol during pregnancy at an early stage and offering them motivational talks about alcohol consumption and appropriate and effective contraception [19].

Early detection and brief intervention around alcohol consumption is to be favored in the general population, but more particularly among women who want to become pregnant and pregnant women. The same applies to the adult population and the elderly, among whom the prevalence of FASD remains high.

To help with this task, the Fetal Alcohol Spectrum Disorder Resource Center at the University Hospital of La Réunion, in collaboration with the Père Favron Foundation, is raising awareness among general practitioners and other healthcare professionals of the warning signs that may indicate a disorder. Figure 3.

Diagnosis

Early diagnosis is important to minimize the consequences for the child [39]. To this end, 4 tools are available to assist in the assessment of alcohol consumption: CRAFFT (for adolescents) [18, 39], the "modified CAGE" (T-ACE) [28], the TWEAK [42] for pregnant or nonpregnant women, the AUDIT (Alcohol Use Disorder Identification Test) [39].

The T-ACE is a 4-item questionnaire (Tolerance, Annoyance, Cessation, Awakening) developed specifically for obstetric practice [42]. It deals indirectly with alcohol consumption since it asks about tolerance to the effects of alcohol, the psychological consequences of

consumption and the opinion of the entourage on this consumption.

For GP's daily practice, we would recommend the use of a clinical assessment as promoted within the Canadian Guidelines for diagnosis of FASD across lifespan published in 2016 (update of the 2005 guidelines) incorporating new evidence and improved understanding of FASD diagnosis.

Although from a pathophysiological point of view there are differences between the subtypes of Fetal Alcohol Spectrum Disorder, it turns out that in clinical practice it is difficult for general practitioners to identify these differences.

These tools could be made more accessible for general practitioners using an app or online website.

Even if, as in France, there are recommendations on strategies for identifying FASD, these do not take into account the particularities of the practice of the general practitioner [9]. In the long term, it would be useful to propose a guide of international recommendations for general practitioners to make an early diagnosis possible and thus allow a more favorable evolutionary trajectory [18].

Follow-up

A good physician–patient relationship is the key to the effectiveness of care for this population, with a global vision of the issues of these patients (socio-economic, communication, family, notion of non-guilt) [20]. The general practitioner must therefore take into account these different determinants to optimize his relationship with the patient (better adherence to follow-up and better therapeutic alliance).

How to Diagnose FASD

- Intellectual Problems
- Sensory integration problems
- Behavior and mood problems
- Physical Problems
- Birth Defects

The severity and number of symptoms of Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD) vary from person to person. Any one, or few, symptoms should not be enough to diagnose FASD. Specialists must conduct several tests and observe the patient over a certain period of time to establish whether the symptoms are FASD red flags or just independent conditions. The [Center for Disease Control \(CDC\)](#) advises parents to seek help as soon as they notice any of the red flags above.

Fig. 3 Five Red Flags for FASD

Education

Therapeutic education is aimed at pregnant women and women of childbearing age [21], at patients with FASD, and at families and close relatives (education concerning alcohol consumption and its impact during pregnancy). Binge drinking is the most common pattern of drinking among pregnant women (more than 4–5 drinks per day) [19]. It results in a spike in blood alcohol levels that have more consequences than the same amount of alcohol consumed over a longer period of time [20]. The general practitioner can assess the risk of binge drinking in pregnant women and women of childbearing age to avoid or reduce its deleterious consequences on the child.

The family has an influential role in modeling adolescent drinking [20]. Special consideration should be given to mothers of children with FASD, as they are at risk of continuing to drink during a new pregnancy [21].

In this same population, the general practitioner must make the family and close relatives aware of the effects of alcohol on pregnancy so that they do not falsely trivialize the consumption of even small amounts of alcohol. This would help to avoid alcohol consumption during pregnancy.

In the case of FASD, the general practitioner should try with the patient's consent to involve the family circle as much as possible: discuss the patient's current situation and involve them in the process of supporting their relative. The family could thus accompany the patient in the care process and support the follow-up.

Education (teaching and awareness) involves all the actors who intervene in the care of the patient with FASD (medical specialists, paramedics including speech therapists [39], police services, social workers) [6], and schools [39]; hence, the coordinating role of general medicine is as follows:

Role of coordinator

The general practitioner, by virtue of his or her skills and functions in the health care system [43], is the most appropriate person in a patient-centred approach to have a global vision to best coordinate the care pathway of patients and their child with FASD (multi-professional and multi-disciplinary medical/paramedical/social/justice care). It would have the role of expert and informant on the appropriate care system for the patient and family [39].

Extending the reflections of the article [39], screening for FASD risk is not yet systematic in general practice. Physicians cite discomfort in discussing the topic, lack of time, inadequate remuneration, fear of stigma, lack of information on how to conduct a discussion about alcohol use, and lack of knowledge about intervention strategies.

Given these remarks, several ideas could address these limitations:

There is a specific quotation (with a specific remuneration) that could be extended to the management of patients with FASD given the complexity and the need for time to carry out this screening/prevention/diagnosis/coordination/follow-up work. Indeed, the feasibility of such complex quality management over a standard consultation time is not feasible. For example, in France, general personnel consults last 16 min on average according to the *Direction de la recherche des études de l'évaluation et des statistiques* (DREES) of the Ministry of Health [44]. Remuneration in line with the time invested could thus enable doctors to provide quality care to patients with FASD, particularly in regions lacking specialized networks.

In another declarative survey by the DREES [45], 61% of general practitioners indicated that they systematically asked pregnant women about their alcohol consumption, and 77% of general practitioners recommended that their pregnant patients stop drinking altogether during their pregnancy. However, this study showed that 43% considered an occasional drink of alcohol to be an acceptable risk and that for 18%, this level of consumption was safe for pregnancy [45]. In 2017, 65.9% of mothers reported that the physician or midwife who attended them during their last pregnancy informed them of the potential impact of alcohol use on the pregnancy and their child [7]. Only 29.3% of women reported that they had been advised not to drink alcohol during pregnancy [46], yet the American Academy of Family Physicians (AAFP) and the American Congress of Obstetrics and Gynecology (ACOG) recommend that all women of childbearing age be educated about alcohol use to prevent its effects on the newborn [21].

The results of this review raise the question of training physicians during their university and postgraduate courses on the complex management of patients exposed to or suffering from FASD. A better knowledge of the subject would improve their ability to deal with it, promote awareness, and allow for better management (screening / prevention / diagnosis / follow-up / coordination / knowledge of the network). University training is probably currently minimized given the prevalence of this clinical situation.

The Canadian experience of an interdisciplinary clinic for diagnosing FASD is an interesting approach [41]. The establishment of a resource center with a team in charge of referral (university hospitals, medical-psychological centers, medical-psychological-pedagogical centers, medical-social institutions, so-called "ordinary" or specialised schools), coordination and follow-up of the care pathway is probably an appropriate

response to the issues of prevention and care of people exposed to or affected by FASD.

The general practitioner ideally has a coordinating role in the management of patients with FASD, but given the current context (lack of time in consultation, lack of visibility of available local actors, lack of specific knowledge on the subject) [39], a single platform would make it possible to assist him/her in the orientation and coordination of the management of these patients.

As was done in Canada in 2008, a qualitative study of the feasibility and acceptability of these interventions could explore the point of view of general practitioners in other countries. Knowing the needs and practices of primary care practitioners would allow for more tailored training for the prevention and identification/screening of alcohol risk in pregnant or childbearing women and their partners.

A cluster randomized trial with a group of primary care practitioners trained in screening for alcohol use during pregnancy versus usual care by untrained primary care practitioners would measure the impact of training on the alcohol use of women of childbearing age and the clinical status of their children born in each group.

The limitations of this literature review are the small number of articles selected, the heterogeneity, and the insufficient level of proof of the studies selected. There are certainly prevention and detection actions that have been evaluated but not published in a scientific journal. Access to grey literature is difficult, which limits the completeness necessary for this literature review.

Conclusions

The interventions of GPs in the management of patients with FASD are global: prevention, identification, diagnosis, follow-up, education, and the role of coordinator for patients, their families, and pregnant women and their partners.

Prevention interventions would decrease the incidence of FASD, thereby reducing the incidence of mental retardation, developmental delays, and social, educational and legal issues.

GPs would be better equipped and better informed both on the subject and on the networks to optimize the coordination of these complex pathways, while remaining the main interlocutor.

A further study with a cluster randomized trial with a group of primary care practitioners trained in screening for alcohol use during pregnancy would be useful to measure the impact of training on the alcohol use of women of childbearing age and on the clinical status of their children.

Practical implications

This scoping review highlights the available options for interventions of general practitioners from a global perspective, indicating the importance of clinical tools for everyday practice.

Abbreviations

AAFP	American Academy of Family Physicians
ACOG	American Congress of Obstetrics and Gynecology
DREES	Direction de la recherche des études de l'évaluation et des statistiques
DSM-5	Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders V
FAS	Fetal Alcohol Syndrome
FASD	Fetal Alcohol Spectrum Disorder
GP	General practitioner
IOM	Institute of Medicine
ICD	International Classification of Diseases code
ND-PAE	Neurobehavioral disorder associated with prenatal alcohol exposure
PAE	Prenatal alcohol exposure

Supplementary Information

The online version contains supplementary material available at <https://doi.org/10.1186/s12875-024-02291-x>.

Supplementary material.

Acknowledgements

The corresponding author would like to thank Dr Denis Pouchain for his review of the article.

Authors' contributions

Sebastien Leruste (SL) conducted the literature review. Michel Spodenkiewicz (MS) led the research and helped write the article. All authors (Bérence Doray (BD), Thierry Maillard (TM), Christophe Lebon (CL), Catherine Marimoutou (CM)) read and approved the final manuscript.

Funding

Not applicable.

Availability of data and materials

As this is a scoping review, we do not have a personal database. The datasets used and/or analysed during the current study available from the corresponding author on reasonable request.

Declarations

Ethics approval and consent to participate

Not applicable.

Consent for publication

Not applicable.

Competing interests

The authors declare no competing interests.

Author details

¹INSERM CIC-EC 1410, CHU de La Réunion, BP350 - 97 448, Saint-Pierre Cedex, La Réunion, France. ²UFR Santé, University of La Réunion, 97410 Saint-Pierre, France. ³Service de Génétique - CHU de La Réunion, Saint-Denis, France. ⁴Laboratoire EPI, Université & CHU de La Réunion, Saint-Denis, France. ⁵Centre Ressources, TSAF - Fondation Père Favron - CHU de La Réunion, Saint-Pierre, France. ⁶SAF-Ocean India, Saint-Louis, France. ⁷Moods Team, INSERM UMR-1178, CESP, Le Kremlin-Bicêtre, France. ⁸McGill Group for Suicide Studies, Department of Psychiatry, Douglas Mental Health University Institute, McGill University, Montréal, Canada.

Received: 8 October 2022 Accepted: 2 February 2024
Published online: 22 February 2024

References

- Jones KL, Smith DW. Recognition of the fetal alcohol syndrome in early infancy. *Lancet*. 1973;302(7836):999–1001.
- Lemoine P et al. Les Enfants des parents alcooliques: anomalies observées a propos de 127 cas [The children of alcoholic parents: anomalies observed in 127 cases]. *Quert Med*. 1968;8:476–82.
- Patra J, Bakker R, Irving H, Jaddoe VWW, Malini S, Rehm J. Dose-response relationship between alcohol consumption before and during pregnancy and the risks of low birth weight, preterm birth and small-size-for-gestational age (SGA) – A systematic review and meta-analysis. *BJOG*. 2011;118(12):1411–21.
- Brown JM, Bland R, Jonsson E, Greenshaw AJ. The standardization of diagnostic criteria for fetal alcohol spectrum disorder (FASD): implications for research, clinical practice and population health. *Can J Psychiatry*. 2019;64(3):169–76.
- INSERM Collective Expertise Centre. Alcohol: Health effects. In: INSERM Collective Expert Reports [Internet]. Paris: Institut national de la santé et de la recherche médicale; 2000. <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK7116/>. Accessed 21 Aug 2021.
- George MA, Hardy C. Addressing FASD in British Columbia, Canada: analysis of funding proposals. *J Popul Ther Clin Pharmacol*. 2014;21(3):e338–345.
- Consommation d'alcool, de tabac ou de cannabis au cours de la grossesse – Académie nationale de médecine | Une institution dans son temps. <https://www.academie-medicine.fr/consommation-dalcool-de-tabac-ou-de-cannabis-au-cours-de-la-grossesse/>. Accessed 21 Aug 2021.
- World Health Organization. ICD-10: international statistical classification of diseases and related health problems: tenth revision. World Health Organization. <http://id.who.int/icd/entity/362980699> (2004). Accessed 13 May 2021.
- Haute Autorité de Santé. Troubles causés par l'alcoolisation foetale : repérage https://www.has-sante.fr/jcms/c_1636956/fr/troubles-causes-par-lalcoolisation-foetale-reperage (2013). Accessed 21 Aug 2021.
- Germanaud D, Toutain S. Exposition prénatale à l'alcool et troubles causés par l'alcoolisation foetale. *Contraste*. 2017;46:39.
- Stratton K, Howe C, Battaglia F. Fetal Alcohol Syndrome: Diagnosis, Epidemiology, Prevention, and Treatment. The Institute of Medicine Report. Washington, DC: National Academy Press; 1996.
- Société canadienne de pédiatrie comité de la santé des P nations des Inuits et des Métis. L'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foetale : Mise à jour diagnostique. *Paediatr Child Health*. 2010;15(7):457–8.
- Astley SJ. Diagnosing the full spectrum of fetal alcohol-exposed individuals: introducing the 4-digit diagnostic code. *Alcohol Alcohol*. 2000;35(4):400–10.
- Chudley AE. Fetal alcohol spectrum disorder: Canadian guidelines for diagnosis. *Can Med Assoc J*. 2005;172(5_suppl):S1–21.
- Cook JL, Green CR, Lilley CM, Anderson SM, Baldwin ME, Chudley AE, et al. Fetal alcohol spectrum disorder: a guideline for diagnosis across the lifespan. *Can Med Assoc J*. 2016;188(3):191–7.
- Popova S, Charness ME, Burd L, Crawford A, Hoyme HE, Mukherjee RAS, Riley EP, Elliott EJ. Fetal alcohol spectrum disorders. *Nat Rev Dis Primers*. 2023;9(1):11. <https://doi.org/10.1038/s41572-023-00420-x>. (PMID: 36823161).
- Jacobsen B, Lindemann C, Petzina R, Verthein U. The universal and primary prevention of foetal alcohol spectrum disorders (FASD): a systematic review. *Journal of Prevention*. 2022;43(3):297–316.
- Loock C. Identifying fetal alcohol spectrum disorder in primary care. *Can Med Assoc J*. 2005;172(5):628–30.
- Floyd RL, Ebrahim SH, Boyle CA. Observations from the CDC: Preventing Alcohol-Exposed Pregnancies among Women of Childbearing Age: The Necessity of a Preconceptional Approach. *J Womens Health Gend Based Med*. 1999;8(6):733–6.
- Masotti P, Szala-Meneok K, Selby P, Ranford J, Van Koughnett A. Urban FASD interventions: bridging the cultural gap between Aboriginal women and primary care physicians. *J FAS Int*. 2003;1(17):1–8.
- Zoorob R, Snell H, Kihlberg C, Senturias Y. Screening and Brief Intervention for Risky Alcohol Use. *Curr Probl Pediatr Adolesc Health Care*. 2014;44(4):82–7.
- Davis PM, Carr TL, La CB. Needs assessment and current practice of alcohol risk assessment of pregnant women and women of childbearing age by primary health care professionals. *Can J Clin Pharmacol J Can Pharmacol Clin*. 2008;15(2):e214–222.
- Masotti P, Longstaffe S, Gammon H, Isbister J, Maxwell B, Hanlon-Dearman A. Integrating care for individuals with FASD: results from a multi-stakeholder symposium. *BMC Health Serv Res*. 2015;15(1):457.
- Tough SC, Ediger K, Hicks M, Clarke M. Rural-urban differences in provider practice related to preconception counselling and fetal alcohol spectrum disorders. *Can J Rural Med*. 2008;13(4):180–8.
- Sobieski M, Sobieska A, Sekulowicz M, et al. Tools for early screening of autism spectrum disorders in primary health care – a scoping review. *BMC Prim Care*. 2022;23:46. <https://doi.org/10.1186/s12875-022-01645-7>.
- Page MJ, Moher D, Bossuyt PM, Boutron I, Hoffmann TC, Mulrow CD, Shamseer L, Tetzlaff JM, Akl EA, Brennan SE, Chou R, Glanville J, Grimshaw JM, Hróbjartsson A, Lalu MM, Li T, Loder EW, Mayo-Wilson E, McDonald S, McGuinness LA, Stewart LA, Thomas J, Tricco AC, Welch VA, Whiting P, McKenzie JE. PRISMA 2020 explanation and elaboration: updated guidance and exemplars for reporting systematic reviews. *BMJ*. 2021;372:n160.
- Rasmussen C, Kully-Martens K, Denys K, Badry D, Henneveld D, Wyper K, et al. The Effectiveness of a Community-Based Intervention Program for Women At-Risk for Giving Birth to a Child with Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD). *Community Ment Health J*. 2012;48(1):12–21.
- Floyd RL, Sobell M, Velasquez MM, Ingersoll K, Nettleman M, Sobell L, et al. Preventing Alcohol-Exposed Pregnancies. *Am J Prev Med*. 2007;32(1):1–10.
- George MA, Masotti P, MacLeod S, Van Bibber M, Loock C, Fleming M, et al. Bridging the research gap: aboriginal and academic collaboration in FASD prevention. *The Healthy Communities Mothers and Children Project*. *Alaska Med*. 2007;49(2_Suppl):139–41.
- Peardon E, O'Leary C, Bowser C, Elliott E. Impacts of alcohol use in pregnancy—the role of the GP. *Aust Fam Physician*. 2007;36(11):935–9.
- Mendoza R, Morales-Marente E, Palacios MS, Rodríguez-Reinado C, Corrales-Gutiérrez I, García-Algar Ó. Health advice on alcohol consumption in pregnant women in Seville (Spain). *Gac Sanit*. 2020;34(5):449–58.
- Crawford-Williams F, Steen M, Esterman A, Fielder A, Mikocka-Walus A. "If you can have one glass of wine now and then, why are you denying that to a woman with no evidence": Knowledge and practices of health professionals concerning alcohol consumption during pregnancy. *Women Birth*. 2015;28(4):329–35.
- Clarren SK, Astley SJ. Identification of children with Fetal Alcohol Syndrome and opportunity for referral of their mothers for primary prevention—Washington, 1993–1997. *MMWR: Morbidity & Mortality Weekly Report*. 1998;47(40):861–64.
- Tan CH, Hungerford DW, Denny CH, McKnight-Eily LR. Screening for Alcohol Misuse: Practices Among U.S. Primary Care Providers. *DocStyles* 2016. *Am J Prev Med*. 2018;54(2):173–80.
- O'Connor MJ, Rotheram-Borus MJ, Tomlinson M, Bill C, LeRoux IM, Stewart J. Screening for fetal alcohol spectrum disorders by nonmedical community workers. *J Popul Ther Clin Pharmacol*. 2014;21(3):e442–452.
- Shanley DC, Hawkins E, Page M, Shelton D, Liu W, Webster H, et al. Protocol for the Yapatjarrathati project: a mixed-method implementation trial of a tiered assessment process for identifying fetal alcohol spectrum disorders in a remote Australian community. *BMC Health Serv Res*. 2019;19(1):649.
- McFarlane A, Rajani H. Rural FASD diagnostic services model: Lake-land Centre for fetal alcohol spectrum disorder. *Can J Clin Pharmacol*. 2007;14(3):e301–306.
- Washio Y, Frederick J, Archibald A, Bertram N, Crowe JA. Community-Initiated Pilot Program « My Baby's Breath » to Reduce Prenatal Alcohol Use. *Del Med J*. 2017;89(2):46–51.
- Hanlon-Dearman A, Green CR, Andrew G, LeBlanc N, Cook JL. Anticipatory Guidance For Children And Adolescents With Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FasD): Practice Points For Primary Health Care Providers. *J Popul Ther Clin Pharmacol*. 2015;22(1):e22–56.
- Wagner B, Fitzpatrick JP, Mazzucchelli TG, Symons M, Carmichael Olson H, Jirikovic T, et al. Study protocol for a self-controlled cluster randomised

- trial of the Alert Program to improve self-regulation and executive function in Australian Aboriginal children with fetal alcohol spectrum disorder. *BMJ Open*. 2018;8(3):e021462.
41. Temple VK, Ives J, Lindsay A. Diagnosing FASD in adults: the development and operation of an adult FASD clinic in Ontario, Canada. *J Popul Ther Clin Pharmacol*. 2015;22(1):e96-105.
 42. Russell M. New Assessment Tools for Risk Drinking During Pregnancy: T-ACE, TWEAK, and Others. *Alcohol Health Res World*. 1994;18(1):55-61.
 43. Allen J, Gay B, Crebolder H, Heyrman J, Svab I, Ram P. The European Definition of General Practice/Family Medicine - Short Version Wonca Europe 2005. <https://www.woncaeurope.org/page/definition-of-general-practice-family-medicine>. Accessed 20 Aug 2022.
 44. La durée des séances des médecins généralistes. DREES, N°481. Avril 2006. <https://www.epsilon.insee.fr/jsui/bitstream/1/12653/1/er481.pdf>. Accessed 21 Aug 2021.
 45. Andler R, Cogordan C, Pasquereau A, Buyck J-F, Nguyen-Thanh V. The practices of French general practitioners regarding screening and counselling pregnant women for tobacco smoking and alcohol drinking. *Int J Public Health*. 2018;63(5):631-40.
 46. Blondel B, Coulm B, Bonnet C, Goffinet F, Le Ray C. Trends in perinatal health in metropolitan France from 1995 to 2016: Results from the French National Perinatal Surveys. *J Gynecol Obstet Hum Reprod*. 2017;46(10):701-13.

Publisher's Note

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

4.1.2. Comprendre la prévention en médecine générale

Pour compléter cette revue de littérature, une étude exploratoire qualitative a été menée auprès des médecins généralistes réunionnais en adoptant une approche par théorisation ancrée. L'intérêt du choix de la recherche qualitative était sa pertinence pour l'exploration de la compréhension du phénomène auprès des médecins généralistes. L'exploration des processus mis en œuvre par les médecins généralistes permettait de comprendre leur appréhension de la prévention des TSAF dans leurs pratiques. La démarche qualitative a permis de faire émerger les catégories conceptuelles qui entraient dans la constitution de la théorie interprétative.

4.1.2.1. Introduction

La deuxième phase de cet état des lieux a été poursuivie par deux études exploratoires réalisées avec l'aide de deux étudiants en 3^{ème} cycle d'études médicales en DES de médecine générale, Louise Delfarguiel (LD) et François Baelen (FB). L'exploration portait conjointement sur la prévention et le repérage tels que identifiés préalablement dans la revue de la littérature.

La première de ces études exploratoires a été menée avec François Baelen sur la prévention.

4.1.2.2. Objectif et méthode

L'objectif était de comprendre comment étaient construits les freins et les motivations des MG dans leur approche de la prévention des TSAF. Un échantillonnage raisonné théorique a été construit au fur et à mesure de la recherche auprès de médecins généralistes installés à La Réunion. Le recueil de données a été réalisé par des entretiens semi-structurés en face à face après avoir obtenu leur consentement préalable par oral et par écrit. Les entretiens ont été réalisés jusqu'à la suffisance théorique. La triangulation des données a été faite par les deux étudiants (LD et FB) sous ma supervision en tant qu'investigateur principal de l'étude et celle du Dr Spodenliewicz en tant que co-investigateur.

La supervision a consisté à accompagner François Baelen dans la construction de son travail aussi bien dans son élaboration générale que dans la construction de la question de recherche. Elle s'est

poursuivie par la supervision de l'analyse des données et de la modélisation des résultats, ainsi que la relecture du manuscrit.

À partir d'un premier draft de l'article écrit par François Baelen, ma contribution à cet article a consisté à reprendre l'ensemble du manuscrit de l'article pour en proposer une version répondant aux recommandations des auteurs de la revue visée, à soumettre l'article et en assurer les réponses point par point aux relecteurs.

4.1.2.3. Article 2

Après un refus de la revue Family Practice, une soumission a été faite à la revue Frontiers in Medicine Family and Primary Care. Suite à une première relecture, une version révisée a été soumise au comité de lecture qui, en deuxième relecture, a proposé des modifications mineures pour deux des trois relecteurs. Cet article a été publié le 29 février 2024 dans la revue *Frontiers in Medicine Family and Primary Care*. (**Leruste S**, Baelen F, Doray B, Maillard T, Marimoutou C and Spodenkiewicz M (2024) Obstacles and facilitators to preventing fetal alcohol spectrum disorder: a qualitative study with general practitioners. *Front. Med.* 11:1280349. doi: 10.3389/fmed.2024.1280349)

Le résumé de l'article est présenté dans l'encadré ci-dessous. Une copie de la version publiée est présentée pages 77 à 82.

Contexte : Les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale (TSAF) sont la principale cause de déficience intellectuelle non génétique. Les dommages causés, bien que totalement évitables, sont irréversibles et nécessitent un soutien tout au long de la vie. Les médecins généralistes ont un rôle important à jouer dans la prévention des TSAF. Cependant, l'Agence Régionale de Santé de La Réunion signale des lacunes de la part des médecins généralistes dans le suivi de la consommation d'alcool, en particulier chez les femmes enceintes.

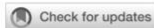
Objectifs de l'étude : Le but de cette étude était de comprendre les barrières et les motivations des médecins généralistes de La Réunion dans la prévention des TSAF.

Méthodes : Une étude qualitative a été menée par le biais d'entretiens individuels semi-structurés avec des médecins généralistes. Les participants ont été sélectionnés par échantillonnage aléatoire

ou en boule de neige. Les médecins généralistes qui travaillaient uniquement dans des services de soins non programmés ont été exclus de cette étude. Une analyse selon les principes de la théorie ancrée, a été réalisée après transcription des entretiens.

Résultats : Vingt entretiens ont été menés par deux chercheurs entre novembre et décembre 2020. Les médecins généralistes ont exprimé leur malaise face à l'alcool et à sa consommation excessive. Ils avaient des connaissances théoriques imprécises et un manque d'expérience pratique sur les TSAF. Ils ont également montré une faible connaissance du parcours de soins des TSAF disponible à La Réunion. Les patients et les médecins généralistes se sont montrés mal à l'aise lorsqu'il s'agissait d'aborder la question de la consommation d'alcool des femmes. Des politiques gouvernementales contradictoires ont été mises en évidence, les campagnes de promotion de l'alcool ayant éclipsé les initiatives de prévention des TSAF.

Conclusion : Les médecins généralistes devraient être ouverts et ne pas porter de jugement dans leurs interactions avec les femmes et les couples, en mettant l'accent sur la détection précoce et l'intervention à court terme. Les médecins généralistes devraient être mieux informés sur les TSAF et avoir une meilleure compréhension du parcours de soins des TSAF.



OPEN ACCESS

EDITED BY
Julia M. Stephen,
Mind Research Network (MRN), United States

REVIEWED BY
Kwok Yin Leung,
The University of Hong Kong,
Hong Kong SAR, China
Peter Choate,
Mount Royal University, Canada

*CORRESPONDENCE
Sébastien Leruste
✉ sebastien.leruste@univ-reunion.fr

[†]These authors have contributed equally to this work and share first authorship

RECEIVED 20 August 2023
ACCEPTED 20 February 2024
PUBLISHED 29 February 2024

CITATION
Leruste S, Baelen F, Doray B, Maillard T, Marimoutou C and Spodenkiewicz M (2024) Obstacles and facilitators to preventing fetal alcohol spectrum disorder: a qualitative study with general practitioners. *Front. Med.* 11:1280349. doi: 10.3389/fmed.2024.1280349

COPYRIGHT
© 2024 Leruste, Baelen, Doray, Maillard, Marimoutou and Spodenkiewicz. This is an open-access article distributed under the terms of the [Creative Commons Attribution License \(CC BY\)](https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/). The use, distribution or reproduction in other forums is permitted, provided the original author(s) and the copyright owner(s) are credited and that the original publication in this journal is cited, in accordance with accepted academic practice. No use, distribution or reproduction is permitted which does not comply with these terms.

Obstacles and facilitators to preventing fetal alcohol spectrum disorder: a qualitative study with general practitioners

Sébastien Leruste^{1,2,*†}, François Baelen^{1†}, Bérénice Doray^{1,2,3,4,5,6}, Thierry Maillard⁷, Catherine Marimoutou^{1,2} and Michel Spodenkiewicz^{1,2,8,9}

¹Université de La Réunion—UFR Santé Site de l'IES, CHU de La Réunion, Saint-Pierre, France, ²INSERM CIC-EC 1410, CHU of Réunion Island, Saint-Pierre, France, ³Laboratoire EPI (Etudes pharmaco-immunologiques), UFR Santé, Université de La Réunion, CHU (Centre Hospitalier Universitaire) de La Réunion, Saint-Denis, France, ⁴Service de Génétique, CHU (Centre Hospitalier Universitaire) de La Réunion, La Réunion, Saint-Denis, France, ⁵TSAF (Troubles du Spectre de l'Alcoolisation Foetale), Fondation Père Favron, CHU (Centre Hospitalier Universitaire) de La Réunion, Saint-Pierre, France, ⁶Centre de Référence Anomalies du Développement et Syndromes Malformatifs Sud-Ouest Occitanie Réunion, Site Constitutif de La Réunion, Saint-Denis, France, ⁷SAF-OI, Saint-Louis, France, ⁸Moods Team, INSERM UMR-1178, CESP, Le Kremlin-Bicêtre, France, ⁹McGill Group for Suicide Studies, Douglas Mental Health University Institute, Department of Psychiatry, McGill University, Montréal, QC, Canada

Background: Fetal Alcohol Spectrum Disorders are the leading cause of non-genetic intellectual disability. The damage caused, although completely preventable, is irreversible and requires lifelong support. General Practitioners have an important role in the prevention of Fetal Alcohol Spectrum Disorders. However, evidence suggests that General Practitioners do not monitor systematically alcohol consumption among pregnant women.

Objectives: The aim of this study was to understand the barriers and motivations of General Practitioners in the prevention of Fetal Alcohol Spectrum Disorders on Reunion Island.

Methods: A qualitative research study was conducted by conducting semi-structured individual interviews with general practitioners. Participants were selected by random or snowball sampling. General practitioners who worked only in unscheduled care services were excluded from this study. After the interviews were transcribed, a verbatim analysis was performed according to the principles of grounded theory.

Results: Twenty interviews were conducted by two researchers between November and December 2020. General practitioners expressed discomfort in addressing alcohol consumption and excessive drinking in women. They had inaccurate theoretical knowledge and a lack of practical experience with Fetal Alcohol Spectrum Disorders. They also showed little knowledge of the Fetal Alcohol Spectrum Disorders care pathway available on Reunion Island. Both patients and general practitioners expressed discomfort when discussing women's alcohol consumption. Conflicting government policies were highlighted as alcohol promotion campaigns overshadowed Fetal Alcohol Spectrum Disorders prevention initiatives.

Conclusion: General practitioners should be open and non-judgmental in their interactions with women and couples, with a focus on early detection and short-term intervention. General practitioners should be better educated about

Fetal Alcohol Spectrum Disorders and have a clearer understanding of the Fetal Alcohol Spectrum Disorders care pathway.

KEYWORDS

general practice, fetal alcohol spectrum disorder, prevention, Reunion Island, qualitative study

1 Introduction

Alcohol is a known teratogen (1, 2). It disrupts neurogenesis and can lead to disorders of varying severity, collectively termed fetal alcohol spectrum disorders (FASDs), the most severe of which is fetal alcohol syndrome (FAS). This is the complete form including facial morphological features (short palpebral fissures, smooth philtrum, and thin upper vermillion.) severe growth retardation and psychomotor retardation. The worldwide incidence of FAS is estimated to be 1 in 1,000 births. FASD is 10 times more common, with an incidence of 1/100 (3). They are the leading preventable cause of neurodevelopmental disability and delay, representing a real loss of opportunity and requiring lifelong multidisciplinary support. Primary prevention is the cornerstone of FASD management (4).

Reunion Island is a French overseas territory of 860,000 inhabitants located in the western part of the Indian Ocean. The population of Reunion Island is characterized by significant social heterogeneity, with highly vulnerable and marginalized groups (5). These populations are at greater risk of alcohol consumption, particularly as Reunion Island has a low tax rate on the sale of locally produced rum (6). In terms of volume, rum accounts for more than a quarter of alcohol consumption in Reunion Island. In addition to this advantageous tax regime, the ubiquitous advertising campaigns with gondola heads at the supermarket entrances are a strong incentive to drink (6).

The problem of FASD has been known there since the 1970s (7). Several innovative structures have been created to prevent FASD: a FASD diagnostic center, a resource center, and a coordination and orientation platform for families and health professionals. In 2015, the local Regional Health Agency implemented an action plan with the objectives of conducting public awareness activities, training health professionals to detect alcohol consumption in pregnant women, and promoting access to diagnosis and evaluation of children with FASD (8). During the first evaluation of this action plan in 2019 (7), the Agency regretted the lack of compliance of the 845 general practitioners (GPs) in Reunion Island with the proposed training on FASD and the lack of effectiveness of the measures to identify alcohol consumption in pregnant women.

In France, GPs are front-line physicians, responsible for prevention, patient centered care, follow-up and coordination of the healthcare pathways in a holistic perspective. GPs have a primary role in prevention because of their long-term relationship with their patients and their families (8, 9). Even though French guidelines edited by the Ministry of Health recommendations encourage GPs to identify alcohol consumption in pregnant women and women of childbearing age, the pressure of consultation time, and due to the characteristics of their care activities, GPs regularly focus on curative care to the detriment of prevention and detection.

When a woman screens positive for alcohol consumption, the GPs provide a comprehensive examination of the patient with a focus on other metabolic risk factors but also on the consequences of this

alcohol consumption (i.e., on mental health), and refer to more specialized services (i.e., addictology). They keep the coordination of the care provided by specialist physicians according to the problems identified as priorities.

The aim of this study was to understand the barriers and motivations of general practitioners in La Réunion in the prevention of FASD.

2 Materials and methods

2.1 Study design

We conducted a qualitative research study using semi-structured interviews based on the principles of grounded theory and following the COREQ guidelines (10). Two studies were conducted jointly by two researchers on the same sample of general practitioners. The first was conducted by Louise Delfargueil (LD) on the detection of alcohol consumption in pregnant women and the identification of individuals with FASD, while the second was conducted by François Baelen (FB) and aimed to understand the obstacles and motivations faced by general practitioners in Reunion Island in the prevention of FASD.

2.2 Data sampling

The theoretical purposive sample was initially constructed based on diversity criteria, taking into account age, gender, practice location, and years of experience. Recruitment was random, supplemented by snowball sampling. Each physician was contacted individually by telephone or email. Only volunteers were selected to participate in the study. The criteria for non-inclusion were refusal to participate and physicians practicing complementary alternative medicine (CAM) or who exclusively practiced unscheduled care. Data collection was shared between two investigators, both general practitioners, both trained in the principles of qualitative research (11), who facilitated the interviews. One focused on the role of the family physician in the prevention of FASD and the other on the role of the family physician in the identification of children with FASD. Data collection consisted of individually recorded, semi-structured interviews. These interviews could be conducted either face-to-face in the family physician's office or via videoconference. An interview guide was used to conduct the interviews (Appendix 1). This framework was designed beforehand by the two investigators under the guidance of the two research directors and then enriched and modified as the interviews progressed (Appendix n°1). The personal data (surname, first name, etc.) of the GPs were not recorded in order to limit the risk of identification. The interviews were numbered and transcribed anonymously. All audiovisual and voice recordings were destroyed at the end of the transcription process.

2.3 Analysis

After the verbatim transcription of the interviews, the analysis of the verbatim transcripts was carried out according to the principles of grounded theory (12, 13). The interviews were transcribed verbatim and coded using Nvivo® version 11.3 software, first in an open-ended manner and then progressively organized into axial coding. Data collection and analysis were conducted simultaneously, and hypotheses were constructed as the interviews progressed. As the analysis progressed, a categorization of these codings brought out concepts that were related. This analysis was subject to triangulation of data between interviewers to ensure the quality of coding. Discrepancies were addressed during meetings by a senior qualitative researcher Michel Spodenkiewicz (MS). Interviews were considered sufficiently numerous when a theoretical sufficiency of data was achieved and confirmed by the absence of new emerging ideas when additional interviews were conducted.

2.4 Ethics

Verbal consent was obtained. Anonymity of participation and interviews was ensured. No transcript was returned to participants. In accordance with current regulations, a request for compliance with the reference method (MR004) was submitted to the Commission Nationale de l'Informatique et des Libertés (CNIL), registered under number 2219961 v 0.

3 Results

Of the 31 GPs contacted, 20 agreed to take part in an interview (nine females and 11 males). All interviews were completed between November and December 2020. The mean length of the interviews was 18.7 min, the mean age of the participants was 47.8 years (median: 46.5), and the professional experience ranged from 2 to 39 years of practice (median: 17 years). A summary of participant characteristics is presented in Table 1.

3.1 The general practitioner in the face of alcohol-related challenges

Numerous situations brought the family physicians to the problem of alcohol consumption. However, the assessment of this consumption was often approximate and subjective. Some used a quantification in "glasses of alcohol," but none of the doctors interviewed used a standardized scale. Some physicians spontaneously mentioned pregnancy as a circumstance in which they asked about alcohol consumption. The importance of brief interventions and motivational interviewing was mentioned several times:

E1: "It's motivational interviewing, so the patient has to find their own motivation, so I actually try to open doors as much as possible..."

On the other hand, many difficulties in addictology were underlined: the approach to alcohol remained sometimes difficult, especially compared to tobacco. Consultations related to an addiction

TABLE 1 Characteristics of general practitioners interviewed during the study.

Interview	Gender	Age, (years)	Years practice	Duration of interview (min)
E1	M	30	2	21
E2	M	30	2	26
E3	M	60	30	22
E4	F	35	3	18
E5	M	62	31	32
E6	F	47	17	18
E7	F	41	12	25
E8	F	55	22	26
E9	F	64	39	38
E10	M	46	17	26
E11	M	64	35	12
E12	M	55	26	13
E13	F	47	19	17
E14	M	67	36	18
E15	M	31	4	20
E16	F	45	17	16
E17	M	59	30	26
E18	F	38	10	16
E19	M	42	15	23
E20	F	39	9	21

problem were considered complex and time-consuming. Even specialized treatment was often unsatisfactory and sometimes discouraging in terms of results.

E19: "Maybe also because I have problems with the treatment, so if I feel that I have problems with something, I am not going to dig up something that I cannot handle."

3.2 General practitioners and FASD: some knowledge, few diagnoses

All GPs had some knowledge of FASD. However, most of this knowledge was focused on the most severe form, FAS. This knowledge was still rather imprecise; most of the doctors interviewed stated that they had received little training on the subject, and none of them had been sensitized or recently trained on FASD. One notable finding was that all of the general practitioners emphasized that they had encountered few, if any, people with FASDs during their careers.

E10: "So obviously we must be missing some of them for sure, but...I do not really know...Or maybe it's me who does not see it, I must not be trained enough, I do not recognize it."

The few cases encountered were late diagnoses made by pediatricians or psychiatrists, at the time of school difficulties. Despite

the existence of innovative structures in La Réunion (Resource Center, Diagnostic Center, Coordination and Orientation Platform), the doctors interviewed were not aware of their existence and of the care pathway in case of suspicion of FASD. Finally, some admitted their lack of interest in FASD.

3.3 Women and alcohol and the family doctor

Alcohol was seen as an even more taboo subject when it came to women. The pejorative view of society was thought to be responsible for a sense of shame and often a denial of alcohol consumption. Women's drinking seemed to be more hidden than men's and therefore more difficult for general practitioners to identify.

E15: "Honestly, I do not know the percentages and ratios of female/male addicts, but I think that women do not reveal themselves too much..."

Some doctors also recognized that there was denial on their side, as some were more likely to screen men for alcohol use than women.

E5: "But I'm a bit of an older generation and I think I tend to ask the question more often with men than with women. And that's not good!"

Regarding the pregnant patient, most doctors said they systematically asked patients about possible alcohol consumption from the beginning of the pregnancy. Some asked later, especially when it was time to fill out the pregnancy record after several weeks of pregnancy. Some admitted that they did not do so systematically. Some of the doctors interviewed explained that they did very little follow-up with pregnant women. These doctors only intervened in the pregnancy on an *ad hoc* basis after an intercurrent problem. Some doctors mentioned the importance of pre-conception counseling in terms of prevention, especially with regard to alcohol consumption.

E18: "Maybe less so now that I think about it, but up to a certain point, when women decided to stop taking the pill, they came for a consultation..."

The important role of the doctor-patient relationship was emphasized, with the importance of being open to discussion, without judgment, without moralizing, and of being available, thus allowing the relationship of trust necessary to address a sensitive issue such as alcohol consumption.

3.4 The general practitioner in the face of contradictory policies

The efforts made in recent years to raise public awareness have been noticed by general practitioners.

E7: "Well, there are a lot of messages being broadcast these days... on the radio, on billboards..."

The message "no alcohol during pregnancy" was known to all participants, as was the idea of no minimum toxic dose. Patients were now considered by the participating general practitioners to be better informed about the consequences of alcohol consumption during pregnancy. Efforts to raise public awareness were considered essential by the participants. On the other hand, policies that facilitate access to alcohol on Réunion Island were highlighted: the virulence of advertising, the lucrative impact of the alcohol trade. Some even considered that government policies were responsible for the excessive consumption of alcohol by patients.

E18: "But I'm not going to feel guilty anymore, because if the government is not behind us...I'm not asking them to be behind us, but at least to avoid certain things, it's complicated anyway."

4 Discussion

4.1 Discussion of results

This study highlights the central role of primary care physicians in screening patients for alcohol use and, more broadly, in the prevention of FASD. The importance of early identification, brief interventions, and motivational interviewing was highlighted in this study. This finding is consistent with trends in the development of the profession (14). This task is fraught with many challenges, because although alcohol is an unavoidable problem in primary care, the physicians interviewed clearly expressed difficulties in dealing with alcohol and managing excessive consumption, which are widely documented in the literature (15). These deficits in addictology were also found in the evaluation of general practice residents at the end of their training (16). This suggests a lack of initial training especially on the screening procedures. Simulation based medical teaching on how to ask the right questions or to use the different screening tools in a real-life clinical setting could be helpful in overcoming this challenge (17). This training could use the supports designed by the Centers for Disease Control and Prevention.¹

All general practitioners had some knowledge of FASD, mostly focused on FAS. Surprisingly, very few had encountered individuals with FASD during their careers. This finding contrasts with epidemiologic data (1). This result allows us to understand the lack of support from general practitioners. It is a vicious circle: the less doctors are trained and made aware of FASD, the less likely they are to identify a child with FASD early. The less they identify children with FASD, the less they will feel the importance of systematic upstream prevention. Despite efforts to raise awareness, there is still a stigma associated with female alcohol use. Several studies (18) have confirmed a more negative social view than for men. Alcohol consumption among women, including during pregnancy, is still underestimated. This study also suggests the interest of pre-conception counseling in terms of prevention. A study carried out in 2015 on 392 patients showed that only 15% of them had received a preconception consultation, with a strong predominance among primiparous women

1 <https://www.cdc.gov/ncbddd/fasd/index.html>

with a high socio-professional level (19). In France, recent studies suggest that the proportion of pregnancies supervised by general practitioners is decreasing: 19.3% of pregnancies supervised in 2016 compared with 23.8% in 2010 (20). At the same time, the percentage of pregnancies monitored by midwives increased from 16 to 25%. The obstetrician-gynecologist is still the main actor in pregnancy follow-up. Are general practitioners becoming less effective in their preventive role in pregnancy monitoring as they are asked to monitor fewer and fewer pregnancies? Some of the interviews conducted in this study seem to point in this direction.

The French government's awareness campaigns "Alcohol and pregnancy, talk to your doctor"; "Zero alcohol during pregnancy" and the various means used to reach the population are recognized by the doctors interviewed. They consider that women are now well informed about the consequences of alcohol consumption during pregnancy. A 2015 qualitative research study points out that while almost all women agree that drinking alcohol during pregnancy is risky, half do not know exactly what the risks are (21). If heavy drinking is perceived as dangerous, the discourse is much more ambivalent when it comes to casual consumption. In Mété et al. (6), of a sample of 1,000 French people, 21% thought it was recommended to have a small drink from time to time during pregnancy (22). These results suggest that it is essential to continue these efforts to inform the population, as well as the individual prevention missions of the general practitioner. Finally, our interviews highlighted the ambivalence of the French government: the alcohol lobby is powerful and lucrative. The promotion of alcohol on the island of Réunion is massive, omnipresent and intensified during the holiday period (23). Alcohol, whether rum or beer, is linked to the Reunionese identity. Its taxation is even more advantageous than in metropolitan France.

4.2 Strengths and limitations

This was an original qualitative study in La Réunion. The methodology was developed according to the COREQ guidelines. The analysis respected the principles of grounded theory and data triangulation was carried out during coding to minimize interpretation bias. Theoretical sufficiency of the data was achieved after 15 interviews: the next five interviews only supported ideas already expressed by the participants and did not contribute any additional elements to the theory construction.

One of the weaknesses of this study was that the two interviewers had no previous experience in conducting a qualitative study and facilitating interviews. No data were obtained concerning neither GPs training on FASD, their experience in a systematic screening of FASD nor their own alcohol consumption. Training was provided by the dissertation advisors in advance to minimize internal researcher bias and investigator bias.

4.3 Perspectives and conclusions

As part of the action research to which this study belongs, a study will be conducted to implement prevention and detection measures in practice and measure their impact on general practitioners' practices.

This study suggests that there are many opportunities for improvement. They support the strong investment of health actors, including users, in the fight against the problem of alcohol dependence and FASD. Several concrete actions could facilitate the prevention of FASD. Firstly, there is a need to continue the work started with public awareness campaigns. Secondly, general practitioners must be better involved in the prevention of FASD and, more generally, in the field of addiction with a better initial training and an increase in the value of consultations related to addiction problems seem relevant. The role of the general practitioner in the prevention of FASD is important, and his missions are early detection and brief interventions. The fight against the taboo of alcohol, which is even more pronounced for women, must be intensified. The question of alcohol consumption must be a recurring question, without relying on "one's own impression." It should be done systematically and as early as possible before the desire to become pregnant and during pregnancy: open questioning and systematic information on the risks associated with alcohol consumption. The importance of pre-conception counseling is recognized and efforts should be made to make it more systematic. Finally, Reunion Island could draw inspiration from other countries in terms of alcohol regulation policies: Norway and South Africa, for example, have banned all advertising of alcoholic beverages (20).

Data availability statement

The raw data supporting the conclusions of this article will be made available by the authors, without undue reservation.

Ethics statement

The studies involving humans were approved by a declaration to the university's data protection officer (RGPD). An anonymization step has been performed during the data processing in order to avoid the acquisition of personal data. In accordance with current regulations, a request for compliance with the reference method (MR004) was submitted to the Commission Nationale de l'Informatique et des Libertés (CNIL), registered under number 2219961v0. The consultation of a data protection committee was not required for this type of study. The studies were conducted in accordance with the local legislation and institutional requirements. The participants provided their written informed consent to participate in this study.

Author contributions

SL: Conceptualization, Formal analysis, Methodology, Project administration, Resources, Supervision, Validation, Visualization, Writing – original draft, Writing – review & editing. FB: Conceptualization, Data curation, Formal analysis, Investigation, Methodology, Project administration, Visualization, Writing – original draft, Writing – review & editing. BD: Writing – review & editing. TM: Writing – review & editing. CM: Writing – review & editing. MS: Conceptualization, Formal analysis, Methodology,

Project administration, Supervision, Validation, Writing – review & editing.

Funding

The author(s) declare financial support was received for the research, authorship, and/or publication of this article. SL is a doctoral thesis student funded by the Doctoral School of the University of Réunion.

Acknowledgments

SL would like to thank Denis Pouchain for his review of the article.

References

- Fillaut T, Hontebeyrie J, Douguet F. Un pédiatre nantais « découvreur » du syndrome d'alcoolisation foetale: le Dr Paul Lemoine (1917–2006). *Psychotropes*. (2017) 23:9–29. doi: 10.3917/psyt.231.0009
- Jones K, Smith D. Recognition of the fetal alcohol syndrome in early infancy. *Lancet Glob Health*. (1973) 302:999–1001. doi: 10.1016/S0140-6736(73)91092-1
- Popova S, Lange S, Probst C, Gmel G, Rehm J. Estimation of national, regional, and global prevalence of alcohol use during pregnancy and fetal alcohol syndrome: a systematic review and meta-analysis. *Lancet Glob Health*. (2017) 5:e290–9. doi: 10.1016/S2214-109X(17)30021-9
- Nordmann R. Consommation d'alcool, de tabac ou de cannabis au cours de la grossesse. *Bull Acad Nat Méd*. (2004) 188:519–21. doi: 10.1016/S0001-4079(19)33780-X
- Obradovic I. (2020). Drogues et addictions dans les Outre-mer: état des lieux et problématiques. Paris: Observatoire français des drogues et les toxicomanies (OFDT).
- Mété D. Fiscalité des rhums traditionnels en outre-mer et santé publique: l'exemple de l'île de La Réunion [Taxation of traditional rums in French overseas territories and public health: the example of Reunion Island]. *Rev Epidemiol Sante Publique*. (2017) 65:443–52. doi: 10.1016/j.respe.2017.06.003
- Lesure JF. Syndrome d'alcoolisme foetal à l'île de La Réunion. *Nouv Press Med*. (1980) 9:1708–10.
- La Réunion ARS (2017). Plan d'action régional de prévention du syndrome d'alcoolisation foetale (SAF)—Dossier de presse.
- Peadar E, O'Leary C, Bower C, Elliott E. Impacts of alcohol use in pregnancy—the role of the GP. *Aust Fam Physician*. (2007) 36:935–9.
- La Réunion ARS (2020). Evaluation du processus du Plan d'action de prévention et de prise en charge de l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foetale à La Réunion—Rapport final d'évaluation.
- Tong A. Consolidated criteria for reporting qualitative research (COREQ): a 32-item checklist for interviews and focus groups. *Int J Qual Health Care*. (2007) 19:349–57. doi: 10.1093/intqhc/mzm042
- Aubin I. Introduction à la recherche qualitative. *Exercer*. (2008) 84:142–5.
- Lejeune C. *Manuel d'Analyse Qualitative: Analyser Sans Compter ni Classer*. Louvain-la-Neuve: De Boeck (2014).
- Beck F, Guignard R, Obradovic I, Gautier A, Karila L. Le développement du repérage des pratiques addictives en médecine générale en France. *Rev DEpidémiol Santé Publ*. (2011) 59:285–94. doi: 10.1016/j.respe.2011.03.059
- Andler R, Cogordan C, Pasquereau A, Buyck J-F, Nguyen-Thanh V. The practices of French general practitioners regarding screening and counselling pregnant women for tobacco smoking and alcohol drinking. *Int J Public Health*. (2018) 63:631–40. doi: 10.1007/s00038-018-1103-9
- Djengué A, Pham A-D, Kowalski V, Burri C. L'alcoolologie et les futurs médecins généralistes français: Évaluation des connaissances, des pratiques et de la formation reçue en fin d'internat. *Psychotropes*. (2017) 23:89–109. doi: 10.3917/psyt.231.0089
- Al-Elq AH. Simulation-based medical teaching and learning. *J Fam Community Med*. (2010) 17:35–40. doi: 10.4103/1319-1683.68787
- Taschini E, Urdapilleta I, Verhac J-F, Tavani J-L. Représentations sociales de l'alcoolisme féminin et masculin en fonction des pratiques de consommation d'alcool. *Cah Int Psychol Soc*. (2015) 107:435–61. doi: 10.3917/cips.107.0435
- Paradis S, Ego A, Bosson J-L. Preconception care among low-risk mothers in a French perinatal network: frequency of utilization and factors associated. *J Gynecol Obstet Hum Reprod*. (2017) 46:591–6. doi: 10.1016/j.jogoh.2017.05.002
- Institut National de la Santé et de la Recherche Médicale, Direction de la Recherche, des Etudes, de l'Évaluation et des Statistiques (2016). Enquête Nationale Périnatale.
- Brahic J, Thomas O, Dany L. Alcool et grossesse: une recherche qualitative auprès de femmes enceintes. *Cah Int Psychol Soc*. (2015) 107:403–34. doi: 10.3917/cips.107.0403
- Cogordan C. (2017). Alcool et grossesse: connaissances et perceptions des risques, visibilité du pictogramme. Santé Publique France.
- Mété D (2015). Fédération régionale d'Addictologie de La Réunion. Lutter plus efficacement contre l'abus d'alcool à La Réunion.

Conflict of interest

The authors declare that the research was conducted in the absence of any commercial or financial relationships that could be construed as a potential conflict of interest.

Publisher's note

All claims expressed in this article are solely those of the authors and do not necessarily represent those of their affiliated organizations, or those of the publisher, the editors and the reviewers. Any product that may be evaluated in this article, or claim that may be made by its manufacturer, is not guaranteed or endorsed by the publisher.

4.1.3. Comprendre le repérage en médecine générale

4.1.3.1. Introduction

La compréhension des freins et des motivations des MG à prévenir et repérer des TSAF en consultation de médecine générale mais aussi les processus qui concourent à leur construction a permis d'approcher des pratiques des médecins généralistes. Les résultats de cet état des lieux réalisé ont permis de passer à la deuxième étape de la recherche action en s'engageant dans un processus d'élaboration des actions et de consensus pour définir quelles seront les actions pertinentes pour quels changements de pratique en vue de leur optimisation.

Cette seconde étude exploratoire a été réalisée avec l'aide de deux étudiants en 3^{ème} cycle d'études médicales en DES de médecine générale, Louise Delfarguiel (LD) et François Baelen (FB). L'exploration portait cette fois-ci sur le repérage tel qu'il a pu être identifié dans la revue de la littérature.

4.1.3.2. Objectif et méthode

L'objectif était de comprendre comment étaient construits les freins et les motivations des MG dans le repérage des TSAF. Une étude qualitative utilisant une approche par théorisation ancrée a été menée. Un échantillonnage raisonné théorique a été construit au fur et à mesure de la recherche auprès de médecins généralistes installés. Le recueil de données a été réalisé par des entretiens semi-structurés en face à face après avoir obtenu leur consentement préalable par oral et par écrit. Les entretiens ont été réalisés jusqu'à la suffisance théorique. La triangulation des données a été faite par les deux étudiants (LD et FB) sous ma supervision en tant qu'investigateur principal de l'étude et celle du Dr Spodenkiewicz en tant que co-investigateur.

Ma supervision a consisté à accompagner Louise Delfarguiel dans la construction de son travail aussi bien dans son élaboration, à commencer par la question de recherche que dans sa réalisation. J'ai assuré avec le Dr Michel Spodenkiewicz, la supervision de l'analyse des données et de la modélisation des résultats, ainsi que la relecture du manuscrit.

À partir d'un premier draft de l'article écrit par Louise Delfarguiel, ma contribution à cet article a consisté à reprendre l'ensemble du manuscrit de l'article pour en proposer une version répondant

aux recommandations des auteurs de la revue visée, à soumettre l'article et en assurer les réponses point par point aux relecteurs.

4.1.3.3. Article 3

Après un refus de la revue *Children*, une soumission d'une version modifiée a été faite à la revue *Archives of Public Health*. Suite à une première relecture, une version révisée a été soumise au comité de lecture qui l'a accepté en troisième relecture. Cet article a été publié le 6 décembre 2023 dans la revue *Archives of Public Health*. (Leruste S, Delfarguiel L, Doray B, Loubaresse C, Sennsfelder L, Maillard T, Marimoutou C, Spodenkiewicz M. The role of general practitioners in Reunion in detecting alcohol use in pregnant women and identifying fetal alcohol spectrum disorder: a qualitative study. *Arch Public Health*. 2023 Dec 6;81(1):210. doi: 10.1186/s13690-023-01221-0. PMID: 38057936; PMCID: PMC10699023).

Le résumé de l'article est présenté dans l'encadré ci-dessous. Une copie de la version publiée est présentée pages 86 à 94.

Contexte : L'ensemble des troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale (TSAF) est la principale cause de déficience intellectuelle non génétique et d'inadaptation sociale chez les enfants. La Réunion est la plus touchée de toutes les régions françaises avec une prévalence de l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation fœtale (TSAF) estimée à 1,2 ‰ naissances. Les médecins généralistes sont en première ligne pour identifier les patients atteints de TSAF.

Objectif : explorer et comprendre comment les médecins généralistes identifient les patients atteints de TSAF.

Méthode : Étude qualitative utilisant une approche théorique ancrée, par le biais d'entretiens semi-structurés en face à face avec des médecins généralistes. Les entretiens ont été menés dans le but d'atteindre la saturation théorique.

Résultats : les médecins généralistes ont signalé des obstacles à l'identification des TSAF : difficultés à surmonter les tabous sociaux et les injonctions paradoxales, influence des connaissances et de l'expérience limitée, symptômes non spécifiques et très variables, classification et méthode de diagnostic ambiguës impliquant la mobilisation d'une équipe multidisciplinaire et

de longues consultations. Du point de vue des médecins généralistes, il est crucial de donner la priorité à la promotion et à la formation visant à améliorer l'identification et la coordination des parcours de soins des enfants diagnostiqués avec des troubles neurodéveloppementaux, tels que les TSAF.

RESEARCH

Open Access



The role of general practitioners in Reunion in detecting alcohol use in pregnant women and identifying fetal alcohol spectrum disorder: a qualitative study

Sébastien Leruste^{1,2*}, Louise Delfargueil¹, Bérénice Doray^{1,2,3,4,5}, Coralie Loubresse¹, Laetitia Sennsfelder^{2,3}, Thierry Maillard⁶, Catherine Marimoutou^{1,2} and Michel Spodenkiewicz^{1,2,7,8}

Abstract

Background Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD) is the leading cause of non-genetic intellectual disability and social maladjustment in children. International guidelines recommend abstinence from alcohol during pregnancy. Réunion is the most affected of all French regions with an estimated Fetal Alcohol Spectrum (FAS) prevalence of 1.2‰ births. General practitioners (GPs) are at the forefront of identifying patients with FASD. Objective: To understand how GPs identify FASD.

Methods Qualitative study using a grounded theory approach, through semi-structured face-to-face interviews with GPs. Interviews were conducted with the aim of reaching theoretical saturation. These were transcribed verbatim and then analyzed by four researchers to ensure triangulation of the data.

Results GPs reported barriers to the identification of FASD: challenges in overcoming social taboos and paradoxical injunctions, the influence of limited knowledge and experience, non-specific and highly variable symptoms, ambiguous classification and method of diagnosis involving the mobilization of a multidisciplinary team and lengthy consultations. Conversely, they felt competent to identify neurodevelopmental disorders of any cause, but were concerned about the long waiting time to access specialized care. From the perspective of GPs, it is crucial to prioritize promotion and training aimed at improving the identification and coordination of care pathways for children diagnosed with neurodevelopmental disorders, such as FASD.

Keywords Fetal alcohol spectrum disorders, General practitioners, Qualitative research

*Correspondence:

Sébastien Leruste

sebastien.leruste@univ-reunion.fr

¹ UFR Santé, University of La Réunion, 97410 Saint-Pierre, France

² INSERM CIC 1410, CHU de La Réunion, Saint-Pierre, France

³ Service de Génétique - CHU de La Réunion, Saint-Denis, France

⁴ Laboratoire EPI, Université & CHU de La Réunion, Saint-Denis, France

⁵ Centre Ressources TSAF - Fondation Père Favron - CHU de La Réunion,

Saint-Pierre, France

⁶ SAF-Ocean India, Saint-Louis, France

⁷ Moods Team, INSERM UMR-1178, CESP, Le Kremlin-Bicêtre, France

⁸ McGill Group for Suicide Studies, Douglas Mental Health University Institute, Department of Psychiatry, McGill University, Montréal, Canada



© The Author(s) 2023. **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.

Text box 1. Contributions to the literature

- Exploring GPs' representations of the identification of FASD in the general population is a novel approach to the scientific literature, which is more interested in targeted populations, such as Canadian and Australian Aboriginal people, or specialist care.
- The barriers and motivations faced by general practitioners in identifying FASD will enable decision makers and institutions to consider the resources needed to improve identification.
- The findings help to emphasize the importance of primary care in identifying disorders at an early, undifferentiated stage.

Introduction

Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD) is a group of disorders that occur in a child whose mother drank alcohol during pregnancy. Several types of damage are reported:

- Fetal alcohol syndrome (FAS) is called "full" when it includes growth retardation, craniofacial dysmorphism, and neurodevelopmental disorders. It is called "partial FAS" when it is a more moderate form without these three developmental abnormalities [1, 2].
- Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorder (ARND): manifested by psycho-affective disorders, adjustment disorders related to memory problems, attention, behavior with hyperactivity, socialization with difficulties in social interactions [3, 4].
- Alcohol-Related Birth Defects (ARBD): are malformations, mainly cardiac and musculoskeletal, as a result of alcohol consumption during the first trimester of pregnancy [3, 4].

Excessive alcohol consumption almost always results in FAS. Because it is impossible to define thresholds at which it would consistently occur [5, 6], the French recommendation is "zero alcohol during pregnancy" [4, 7, 8].

FAS is a major public health problem. It is considered the leading cause of preventable non-genetic intellectual disability at birth and social maladjustment of the child: disruption of schooling, unemployment, mental health problems, or trouble with the law [9, 10].

A meta-analysis published in 2017 by Popova et al. estimated the prevalence of FAS at 0.146 per 100 persons worldwide [11]. In France, between 2006 and 2013, 0.48 per 100 births were diagnosed with FASD in the neonatal period, including 0.7 per 100 people with FAS [12]. This incidence is poorly known and probably underestimated. Among the French regions, Réunion is the one most affected by this syndrome [12].

According to the Leeuwenhorst Group, "the generalist is a medical doctor who provides personal, primary and

continuing care to individuals, families and populations, regardless of age, sex or pathology. It is the synthesis of his or her functions that is unique" [13]. The general practitioner (GPs) serves as an individual's customary initial interface within their inherent milieu. This professional attends to all individuals, impartial to age, gender, or medical condition. Comprehensive in scope, they assimilate the entirety of biopsychosocial facets, encompassing the spectrum of potential hazards and ailments that might impact the individual. Additionally, they orchestrate the management of repercussions stemming from determinations made by fellow healthcare practitioners. In effectuating continuity and overseeing the trajectory of medical attention, these practitioners, through their ministrations to both individuals and families, actively contribute to the fulfillment of public health objectives [13].

Several studies, mainly quantitative using questionnaires, have consistently shown that general practitioners (GPs) are reluctant to address the issue of alcohol consumption during pregnancy [14–16]. The reasons were multiple: lack of time, lack of knowledge about the syndrome due to lack of training, difficulty in diagnosis due to the great variability of symptoms, difficulty in discussing alcohol with patients for fear of being stigmatized [14–16].

Réunion, located in the Indian Ocean, is a French overseas territory with a diverse and multicultural population. The region faces significant challenges related to socio-economic precariousness and illiteracy rates. The local culture is deeply intertwined with secular knowledge, mainly centered around the cultivation of sugar cane and the consumption of rum. Notably, alcohol taxation is low and alcohol advertising is prevalent in the area [17].

Previous research has mainly focused on the detection capabilities of different health care disciplines, such as pediatricians, midwives, and others, with regard to patients with FASD. However, limited attention has been paid to the challenges faced by GPs in identifying individuals with FASD, despite their privileged position in monitoring families, which provides a unique opportunity for early identification of neurodevelopmental disorders.

The responsibilities incumbent upon family physicians situate them at the vanguard of primary prevention endeavors. Their pivotal roles encompass the discernment of indicative manifestations conducive to averting or eradicating the etiological underpinnings of health maladies, both for individual patients and broader demographic cohorts. In this context, their purview extends to the identification of behavioral patterns among women of reproductive age concerning alcohol consumption, while concurrently encompassing the early identification of prodromal cues indicative of neurodevelopmental disorders. The latter holds significance as timely recognition

thereof holds the potential for accurate diagnosis and the institution of pertinent therapeutic interventions.

In 2015, the French government designated La Réunion as a pilot region for the implementation of a program to prevent and treat fetal alcohol spectrum disorders. Between 2016 and 2018, an action plan for the prevention of FAS was implemented. Six axes have been defined, including one on professional training and another on the implementation of a care pathway for affected women and children [18].

During the first evaluation of this action plan in 2019, the Regional Health Agency of La Réunion highlighted the lack of uptake by GPs in La Réunion of the training courses offered on FASD, as well as the lack of effectiveness of measures to identify alcohol consumption in pregnant women [19].

General practitioners reported difficulties in discussing alcohol during consultations, especially with women. Alcohol remains a taboo subject in French society [20].

The aim of the present study was to better understand the difficulties experienced by GPs in identifying pregnant women who drink alcohol and in identifying individuals with FASD in the pediatric or adult period. The results of the study could allow the design and implementation of interventions to overcome these difficulties and improve the identification of FASD.

Materials and methods

Study design and setting

The study was conducted in La Réunion, a French region where the prevalence of FASD is considered to be the highest in the country.

Two studies were conducted jointly by two researchers on the same sample of GPs. The first, conducted by François Baelen (FB), aimed to understand the barriers and motivations of general practitioners in La Réunion in the prevention of FASD, while the second, conducted by Louise Delfarguiel (LD), focused on the detection of alcohol consumption in pregnant women and the identification of individuals with FASD. This study followed a cross-sectional qualitative design, guided by the principle of grounded theory. This research approach was chosen to comprehensively explore the perceptions of GPs regarding the identification of FASD. By adopting this methodology, the study aimed to uncover barriers and motivations in an unbiased manner, allowing for a thorough examination of the topic without influencing the responses provided by the participants.

Sampling procedure

Purposive sampling was theoretically constructed and adapted as the study progressed to recruit a diverse

population of physicians with respect to age, gender, years in practice, type and mode of practice, and location (east, west, north, and south of the region). Each physician was contacted individually by telephone or e-mail. The study was introduced by the researchers (LD, FB) by mentioning the research topic without revealing the research question. Participation was completely voluntary. Informed consent was obtained. Participants were assured of anonymity. Only volunteers were selected to participate in the study. The criteria for non-inclusion were refusal to participate and GPs with a particular type of practice or practicing exclusively unscheduled care.

Interview procedure

Two frameworks of open-ended questions were developed by the two researchers. They were then modified according to the emergence of concepts and the construction of theory (Appendix n°1). The interview framework was tested with three independent physicians.

Data were collected through individual, face-to-face, semi-structured interviews at the physicians' workplaces or via videoconference recorded by the two researchers. Informed consent was obtained from the physician at the beginning of each interview. The interviews were conducted only in French. The interviews began with the collection of demographic data: age, sex, number of years in practice, etc. The personal data (surname, first name, etc.) of the GPs were not recorded in order to limit the risk of identification. Interviews were numbered and transcribed anonymously. All audiovisual and voice recordings were destroyed at the end of the transcription process.

Data analysis

The analysis followed the principle of anchored theorization. The interviews were transcribed verbatim and coded using Nvivo® version 11.3 software, first in an open-ended manner and then gradually organized into axial coding. As the analysis progressed, a categorization of these codings revealed concepts that were related. Theoretical saturation of the data was sought through additional interviews. The analysis of the interviews was carried out by four researchers involved in the data collection (LD, FB), and then the results were also analyzed by two other researchers (SL and MS) to ensure the triangulation of the data.

Ethics

An anonymization step was performed during the data processing in order to avoid any personal data collection. In accordance with current regulations, a request for compliance with the reference method (MR004) was

submitted to the Commission nationale de l'informatique et des libertés (CNIL), registered under number 2219132v0.

The results

Initially, 31 GPs were contacted to participate in this study. In the end, 20 interviews were recruited. Of the remaining 11 GPs, some did not respond due to lack of time and interest in the subject, others responded positively but further data collection was no longer necessary because the theoretical saturation of data had been reached (Table 1).

On average, the interviews lasted 21 minutes (min-max = 12-38) for 9 women and 11 men. The mean age of the GPs at the time of the interviews was 44.7 years (min=30; max=67), with a mean number of years in practice of 18.8 years (min=2; max=39).

Interviews were conducted until theoretical data saturation occurred at the 15th interview. The last 5 interviews were conducted to verify the absence of new data useful for theory construction. The data or results analyzed were not shared with the participants.

General practitioners (GPs) face numerous and diverse barriers to identifying pregnant women who consume alcohol and individuals with FASD in the pediatric and adult stages. These obstacles stem from both intrinsic

factors related to the GP profession and extrinsic factors related to the societal context, particularly in Réunion. Intrinsic barriers are related to the challenges inherent in the role of the general practitioner, while extrinsic barriers are related to the prevailing taboo surrounding alcohol, especially for pregnant women, and to the social characteristics specific to Réunion.

Taboo, denial and paradoxical social injunctions

The idea that alcohol is taboo in society, especially among women, led to the patients' denial of its use: *"I think that women don't talk about it too much...it's true that uh...we feel that it's more taboo for women than for men."* (GP 15). A denial by some GPs who, although aware of their prejudices, said they were less likely to broach the subject and underestimated alcohol consumption in this population: *"It is said that alcoholism is more hidden, more secretive among women, that they talk less about it, and it is true that, as a result, it is a problem that I broach even less often with women"* (GP 19).

GPs also expressed a sense of powerlessness in the face of paradoxical social injunctions regarding alcohol advertising in Réunion: *"There are more advertisements for rum than for FAS..."* (GP 1). Nevertheless, the prevention campaigns were considered effective by the doctors and led to a good awareness of the population of the dangers of

Table 1 Characteristics of the included population of general practitioners

	Gender	Age years	Years of practice	Place of exercise	Duration of interview minutes	Place of interview
GP 1	M	30	2	Saline les Hauts	21	Medical office
GP 2	M	30	2	Saint Paul	26	Medical office
GP 3	M	60	30	Les Avirons	22	Medical office
GP 4	F	35	3	Sainte Marie	18	Video conferencing
GP 5	M	62	31	Saint Denis	32	Medical office
GP 6	F	47	17	Grand Bois	18	Medical office
GP 7	F	41	12	Saint Pierre	15	Medical office
GP 8	F	55	22	Piton St Leu	26	Medical office
GP 9	F	64	39	Saint Benoit	38	Video conferencing
GP 10	M	46	17	Salazie	26	Video conferencing
GP 11	M	64	35	Saint Joseph	12	Medical office
GP 12	M	55	26	Tampon	13	Medical office
GP 13	F	47	19	Le Port	13	Medical office
GP 14	M	67	36	Le Port	18	Medical office
GP 15	M	31	4	Saint Pierre	20	Medical office
GP 16	F	45	17	Etang Sale	16	Medical office
GP 17	M	59	30	Saint Joseph	26	Medical office
GP 18	F	38	10	Saint Joseph	16	Medical office
GP 19	M	42	15	Saint Joseph	23	Medical office
GP 20	F	39	9	Etang Sale	17	Medical office

F Female, M Man, Video conferencing Remote video recording

alcohol in general: "We have the impression that there is still better knowledge on the part of the general public." (GP 11).

Overall, GPs felt that, thanks to mass prevention campaigns, patients were well aware of the importance of not drinking alcohol during pregnancy: "I think that today the majority of women know that they shouldn't drink alcohol during pregnancy...well, there are a lot of messages that are being spread lately...on the radio, also on billboards..." (GP 7).

Alcohol and tobacco were often discussed at the first consultation at the beginning of the pregnancy and then less or not at all during the follow-up: "Often at the pregnancy discovery consultation with the prescription of beta-HCG and then afterwards we give the little booklet and there we explain the risks during pregnancy with regard to food, tobacco, alcohol" (GP 20).

The GPs advocated abstinence from alcohol during pregnancy: "I tell her that from now on it's zero... we have to set the bar on alcohol" (GP 6).

Limited knowledge and experience

Awareness varies according to the personal experience of each doctor. Many GPs considered FAS to be a syndrome rarely seen in general practice: "Well, FAS, I don't see it... or I miss it completely..." (GP 7). The low prevalence of FAS meant that GPs had little experience of the condition. They reported that, despite its high local incidence, they did not think about identifying it. "Afterwards, it is not something that I tend to detect in babies, even though I do a lot of pediatrics and prevention in children" (GP 19).

This lack of experience led to a general lack of knowledge about the signs that can identify FASD: "Well, how can I put it? FAS is still a bit strange for me. Well, it's clear that I feel like I don't know enough about it overall..." (GP 7). This lack of knowledge was accentuated by the great variability of the non-specific symptoms that make up the condition: "After that, it's probably more complex... there are different forms and it's not 1 or 0. It's polymorphic." (GP 3).

Overall, GPs reported a lack of training in this area: "I don't feel that I am particularly trained now" (GP 14).

Overall, they lamented a gradual decline in antenatal care as it became the domain of midwives and gynecologists. GPs are consulted by patients for acute pathological episodes: "Pregnant women, it's true, we don't see them that much. We see them from time to time ... yes, when they are sick ... well, often it is rather the gynecologists who follow them" (GP 16).

Highly variable symptoms and care pathway

The GPs haven't reported an impression of being in the first line for diagnosing patients with FASD. They

remained uncertain about the pathway of care that lead to the diagnosis. Diagnosing FAS was often made by other health professionals: "So I didn't make a diagnosis, in the sense that the children I know who have it, have always been diagnosed beforehand" (GP 19) and "They are examined by the pediatrician in the city or in the hospital before they come to the GP" (GP 1).

Many had doubts about the care pathway following the diagnosis was made: "I'm really embarrassed because ... There was RELINISAF before... and now I don't know..." (GP 6) and "Oh no, I don't know... maybe the children's hospital... no, I don't know, I would have to look, I don't know" (GP 9).

Ambiguous classification and method of diagnosis

The specificity of FASD symptoms within other neurodevelopmental disorders remained unclear for most GPs. According to the participants, physicians' goals should focus more on identifying acquisitional delays in general in order to refer the child early for a specific diagnosis and treatment: "As a general practitioner, honestly, we're going to do our job of alerting as soon as we realize there's a psychomotor delay or whatever, but ... like anything, I don't mean FAS more than anything else" (GP 13) or "I'm qualified to assess the child's development, so I refer them to the specialist who will do their job of diagnosing a developmental disorder, and in the spectrum of developmental disorder there may be FAS." (GP 19)

Lengthy consultations

GP related a perception of pressure of time in their day-to-day clinical time. Curative-centered practice remained the norm according to the GPs. Their meetings follow one on another at a pace leaving too little room for preventive and screening interventions. Identifying this disorder was all the more complex because of the limited time available for a medical meeting: "It's true that when you have a consultation where you go from one to the other to ask yourself questions, you need to have time." (GP 11) or "it's not often easy and we don't see the children for very long..." (MG 16).

Discussion

GPs reported that obstacles to the identification of FASD were the taboo and the paradoxical injunctions of society, the limited knowledge and experience, the non-specific and highly variable symptoms, the ambiguous classification and method of diagnosis involving the mobilization of a multidisciplinary team, and the length of consultations. The results of the study showed that GPs did not prioritize the identification of FASD in adults and expressed skepticism about the effectiveness of treatment, believing the disorder to be irreversible. In

contrast, GPs were confident in identifying neurodevelopmental disorders resulting from a variety of causes, but were concerned about the long waiting times for access to specialist care.

Taboo, denial and paradoxical social injunctions

Practicing in Réunion means taking local specificities into account. In Réunion, it is traditional to consume alcohol for social reasons (family celebrations or others), but also for therapeutic reasons (alcohol as a remedy in traditional medicine). A study carried out among Réunionese women with children suffering from FASD revealed a feeling of shame and guilt leading to a denial of their alcohol consumption. In fact, the patients reported that it took them a long time to admit that their drinking was excessive and to speak of "alcoholism" [21]. This denial among patients in La Réunion is in line with the observations of the GPs, who found it difficult to screen for addictive behavior because it was hidden by the patients themselves.

GPs highlighted another important aspect of La Réunion, namely the ubiquitous presence of alcohol advertising, which actively promotes its consumption. The GPs noted that this advertising environment plays a role in encouraging alcohol consumption among the population. The strong impact of these advertising campaigns on the population leads the general practitioners to feel that prevention is worthless [22]. This is encouraged by the low price of alcohol and the multiplication of outlets [23]. This could be an obstacle to the role of GPs in preventing the harmful effects of alcohol, as they do not feel supported by local public authorities.

Limited knowledge and experience

An Australian study found that health professionals did not systematically prevent alcohol use during pregnancy because they believed that pregnant women knew about the harmful effects of alcohol on the fetus and had stopped drinking as a result [24]. This is consistent with the results of the present study, in which GPs believed that prevention campaigns were effective and that patients were well informed on the subject. They were also aware that they had prejudices about alcohol consumption among women in general, which led to an underestimation of alcoholism in this population. GPs found it challenging to address women's addictive behavior and had difficulty referring them to appropriate services for support. Nevertheless, GPs acknowledged the existence of validated questionnaires to assist in the diagnosis of pathological alcohol use, which they used during consultations to aid in the assessment process, such as AUDIT, T-ACE, TWEAK, CAGE, etc. [25, 26].

Participating GPs emphasized the importance of addressing alcohol use during the initial pregnancy consultation. This particular moment was identified as a critical opportunity to provide lifestyle advice and guidance, prompting GPs to actively inquire about alcohol use at this early stage of care. Many brief alcohol interventions for pregnant women are effective in increasing abstinence during pregnancy and preventing FASD, but even a single question about alcohol use during pregnancy can be powerful [27]. They were able to use the pregnancy booklets, which mention alcohol consumption [28]. Overall, they supported the "zero alcohol during pregnancy" policy recommended in France and in many other countries, such as the United States, Canada, and Australia. On the other hand, they tended not to ask the question again during pregnancy follow-up, for various reasons, including the fact that follow-up is increasingly carried out by other professionals, such as midwives or gynecologists. GPs saw patients mainly for acute illness and not for follow-up [14, 24].

Consistent with previous research, studies to date have reached a consensus on the central role of GPs in the prevention and detection of FASD. These studies have recognized and supported the significant contribution of GPs in both preventing cases of FASD through appropriate counseling and education, and in identifying individuals at risk or already affected by the disorder [29, 30]. However, very few GPs reported having seen patients with these disorders during their careers. As a result, they did not feel competent to deal with this disorder due to lack of experience [13, 15, 24]. They requested more training on the subject [31]. This lack of knowledge about FAS was also described by the GPs participating in the study, in fact, during the interviews they always used the acronym "FAS" and not "FASD" to describe Fetal Alcohol Spectrum Disorder. They also did not mention ARBD and ARND. This lack of precision in terminology may reflect a lack of information or the detrimental effect of the lack of consensus on the precise nomenclature of this disorder in nosographic classifications [32]. The DSM-V proposes: "Neurobehavioral Disorder Associated with Prenatal Alcohol Exposure (ND-PAE)" [33]. The ICD-10 uses the code Q86.0: "FAS (dysmorphic)" [34] without further precision.

Nonspecific and highly variable symptoms

Healthcare professionals have difficulties in identifying FASD because of the wide variety of symptoms, the lack of standardized diagnostic tools, and the limited time available for consultation [15, 24, 35, 36].

A study comparing 5 diagnostic methods [36–39] concluded that none was better than the others for diagnosing FASD versus other neurodevelopmental disorders,

but also among FAS, ARND, and ARBD, and that it would be interesting to create a standardized diagnostic method to have a single reference [35, 39].

Lack of consensus on classification and diagnostic method

Several attempts at classification have been proposed to assess the severity of the effects of alcohol on the fetus and to make a diagnosis: Dehaene proposed FAS type I, II, III, IV according to the severity of dysmorphic damage and the knowledge of prenatal alcohol exposure [40]. The 1996 Institute of Medicine classification [35, 37, 40] refers to FAS with or without maternal alcohol exposure, partial FAS, ARBD, ARND; a revision of this classification was published in 2005 and 2016, which is more precise in diagnosis and easier to apply clinically [32]. This non-exhaustive list of terms surrounding the acronym "FAS" helps us to understand the difficulty of GPs in identifying this disorder.

The lack of knowledge of local specialized referral health care providers for patients diagnosed with FASD has been reported in the present study as well as in previous studies [12, 15]. The availability of specialized units included in the care pathway is recognized as an obstacle to the identification of FASD. However, GPs in Réunion could seek advice from the Coordination and Orientation Platform for Neurodevelopmental Disorders (PCO) [40], the FASD Resource Centre [41] or specialized associations for the orientation of their patients, but they were not aware of their existence.

It is even more difficult to improve the prognosis if the diagnosis is made late, for example in adulthood. In addition, GPs in this study rarely mentioned adults with FASD and more often spoke about identification in the pediatric population, suggesting that the prevalence of undiagnosed FASD is underestimated [42, 43]. FASD may be responsible for subsequent secondary disabilities such as disruptions in schooling, unemployment, mental health problems, trouble with the law, inappropriate sexual behavior, addictions, etc. Even if treatment is less effective because it is delayed, a diagnosis of FASD made in adulthood would make it possible to obtain support (human, financial, legal, etc.), improve quality of life and, consequently, improve prognosis [44]. It would be important to make GPs aware of the importance of identifying FASD, including in adulthood.

GPs agreed that their role was more important in identifying and referring children with FASD in general than in FASD itself. In fact, they objected that FASD is difficult to diagnose in practice for various reasons already discussed: time constraints, knowledge, or the need for a multidisciplinary team. Rare GPs feel confident in recognizing and referring children with FASD [14]. In addition, the 20 obligatory examinations of the child are fully

reimbursed by the health insurance and the use of the health booklet could be an aid in identifying the delay in acquisition.

Lengthy consultations

The amount of time spent on prevention in the consultations of French general practitioners remains low compared with the time spent on curative care. The results of the study Pelletier-Fleury N and AI suggest that 50% of GPs report little or no primary prevention activity in almost 75% of their daily consultations [45].

The average consultation time for a French GP is 17 minutes [46]. This is not optimal for the identification of FASD in infants, children and adolescents. Alcohol consumption by women of childbearing age who wish to become pregnant could be investigated using screening tools such as AUDIT, T-ACE, TWEAK, CAGE, etc. [25, 26].

Strengths and limitations of the study

The strength of this study is the focus on GPs' interpretation of their clinical role in identifying patients with FASD. We interviewed patients from a wide range of the French region with the highest prevalence of FAS, with a higher probability for GPs to meet patients with FASD.

Among the limitations of the study, three of the interviews were conducted at the physicians' place of work between consultations or at the end of the day, which may have had an influence on the length and quality of the interviews. Finally, the interviewed population could sometimes have answered a little less spontaneous and more thoughtful. A more relaxed attitude was regularly observed at the end of the recording with some-times more spontaneous discussions. Furthermore, it is noteworthy that more than one-third of the contacted GPs expressed disinterest in participating in the study. This potential sampling bias raises the concern that the GPs who did participate may have had a greater interest or motivation in identifying alcohol consumption in pregnant women or FASD. As a result, the findings should be interpreted considering this potential bias, which may limit the generalizability of the study's results to the broader GP population.

Implications for practice and research

The study has highlighted several potential perspectives for practice based on its findings, which include:

- Providing training to general practitioners (GPs) in early identification and intervention for alcohol consumption in both the general population and specifically among pregnant women (for e.g. asking even a single question about alcohol use during pregnancy).

- Focusing on the identification and coordination of care pathways for children affected by neurodevelopmental disorders (NDDs) such as Fetal Alcohol Spectrum Disorders (FASD).
- Actively identifying and referring adults suspected of having FASD for further evaluation and support.
- Implementing educational initiatives targeting young women in middle and high school to raise awareness about the risks associated with alcohol consumption during pregnancy.

Furthermore, future studies are recommended to consider patients' perspectives on the role of GPs in identifying FASD or other NDDs. It is also suggested to conduct consensus-building approaches to develop a standardized assessment tool for diagnosing FASD in Réunion, ensuring consistency and reliability in the diagnostic process. These recommendations aim to improve the identification, intervention, and support provided by GPs for individuals affected by FASD and other NDDs.

Conclusions

Reunion is the French region with the highest documented prevalence of FASD. However, the GPs reported difficulties in identifying patients, due to a lack of knowledge and experience, but also due to the difficulty of diagnosis with a great variability and lack of specificity of FASD symptoms, and the absence of a consensus on the classification or diagnosis of FASD. They reported a lack of knowledge about caregiving strategies and local providers. It is highly important to limit alcohol advertising, reinforce prevention messages about alcohol use among pregnant women and to have a well-identified care pathway to which GPs could refer their patients with NDD in order to benefit from an early functional assessment and care.

Supplementary Information

The online version contains supplementary material available at <https://doi.org/10.1186/s13690-023-01221-0>.

Additional file 1: Appendix.

Acknowledgements

The corresponding author would like to thank Dr. Denis Pouchain for his critical reading of the article.

Authors' contributions

SL conducted this study with LD and François Bealen (FB), who did not participate in the writing of the article. MS directed the research and made substantial contributions to the writing of the article. All authors (SL, LD, BD, CL, LS, TM, CM, MS) read and approved the final version of the manuscript.

Funding

No external funding was received for this research. SL is a Ph.D. student funded by the Doctoral School of the University of Réunion.

Availability of data and materials

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

Declarations

Ethics approval and consent to participate

In accordance with current regulations, a request for compliance with the reference method (MR004) has been submitted to the Commission nationale de l'informatique et des libertés (CNIL), registered under number 2219132v0.

Competing interests

The authors declare no competing interests.

Received: 10 July 2023 Accepted: 24 November 2023

Published online: 06 December 2023

References

1. Chudley AE, Conry J, Cook JL, Looock C, Rosales T, LeBlanc N. Fetal alcohol spectrum disorder: Canadian guidelines for diagnosis. *CMAJ Can Med Assoc J*. 2005;172(5 Suppl):S1-21.
2. Popova S, Lange S, Shield K, Mihic A, Chudley AE, Mukherjee RAS, et al. Comorbidity of fetal alcohol spectrum disorder: a systematic review and meta-analysis. *Lancet*. 2016;387(10022):978–87.
3. Centers for Disease Control and Prevention (CDC). Basics about FASDs. Available from: <https://www.cdc.gov/ncbddd/fasd/facts.html>. Accessed 13 Jan 2023.
4. Haute Autorité de Santé. Troubles causés par l'alcoolisation foetale: repérage. Available from: https://www.has-sante.fr/jcms/c_1636956/fr/troubles-causes-par-l-alcoolisation-foetale-reperage. Accessed 21 Nov 2022.
5. Pregnancy and alcohol: occasional, light drinking may be safe. *Prescrire Int*. 2012;21(124):44-50. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/22413723/>.
6. Rostand A, Kaminski M, Lelong N, Dehaene P, Delestret I, Klein-Bertrand C, et al. Alcohol use in pregnancy, craniofacial features, and fetal growth. *J Epidemiol Community Health*. 1990;44(4):302–6.
7. « Zéro alcool pendant la grossesse », un message pour tous. Available from: <https://www.santepubliquefrance.fr/les-actualites/2020/zero-alcool-pendant-la-grossesse-un-message-pour-tous>. Accessed 12 Dec 2022.
8. L'alcoolisation foetale – Académie nationale de médecine | Une institution dans son temps. Available from: <https://www.academie-medicine.fr/l'alcoolisation-foetale/>. Accessed 12 Dec 2022.
9. Popova S, Lange S, Burd L, Urbanoski K, Rehm J. Cost of specialized addiction treatment of clients with fetal alcohol spectrum disorder in Canada. *BMC Public Health*. 2013;13(1):570.
10. Banakar MK, Kudlur NS, George S. Fetal alcohol spectrum disorder (FASD). *Indian J Pediatr*. 2009;76(11):1173–5.
11. Popova S, Lange S, Probst C, Gmel G, Rehm J. Estimation of national, regional, and global prevalence of alcohol use during pregnancy and fetal alcohol syndrome: a systematic review and meta-analysis. *Lancet Glob Health*. 2017;5(3):e290–9.
12. Laporal S, Demiguel V, Cogordan C, Barry Y, Guseva I, Goulet V, et al. Surveillance des troubles causés par l'alcoolisation foetale: analyse des données du programme de médicalisation des systèmes d'information en France entre 2006 et 2013. [Synthèse] Saint-Maurice: Santé publique France, coll. Données de surveillance. 2018;16p.
13. Allen J, Gay B, Crebolder H et al. La définition européenne de la médecine générale. Médecine de famille. WONCA Europe 2002.
14. Howlett H, Mackenzie S, Strehle EM, Rankin J, Gray WK. A Survey of Health Care Professionals' Knowledge and Experience of Fetal Alcohol Spectrum Disorder and Alcohol Use in Pregnancy. *Clin Med Insights Reprod Health*. 2019;13:1179558119838872.

15. Peardon E, O'Leary C, Bower C, Elliott E. Impacts of alcohol use in pregnancy—the role of the GP. *Aust Fam Physician*. 2007;36(11):935–9.
16. Adebisi BO, Mukumbang FC, Cloete LG, Beytell AM. Exploring service providers' perspectives on the prevention and management of fetal alcohol spectrum disorders in South Africa: a qualitative study. *BMC Public Health*. 2018;18(1):1238.
17. Mété D. Fiscalité des rhums traditionnels en outre-mer et santé publique : l'exemple de l'île de La Réunion [Taxation of traditional rums in French overseas territories and public health: The example of Reunion Island]. *Rev Epidemiol Sante Publique*. 2017 Nov;65(6):443–452. French. <https://doi.org/10.1016/j.respe.2017.06.003>. Epub 2017 Oct 27. PMID: 29110959.
18. Queruel N, Doray B. Available online: <https://www.santepubliquefrance.fr/docs/a-la-reunion-former-les-professionnels-aux-troubles-de-l'alcoolisation-foetale-interview>. Accessed 19 March 2023.
19. ARS La Réunion. Evaluation du processus du Plan d'action de prévention et de prise en charge de l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foetale à La Réunion – Rapport final d'évaluation. 2020.
20. Toutain S. What women in France say about alcohol abstinence during pregnancy. *Drug Alcohol Rev*. 2010;29(2):184–8. <https://doi.org/10.1111/j.1465-3362.2009.00136.x>. (PMID: 20447227).
21. Pourchez L. L'alcoolisme au féminin à l'île de la Réunion. *Ethnol Française*. 2002;32(4):689–97.
22. Mété D. Fédération régionale d'Addictologie de La Réunion. Lutter plus efficacement contre l'abus d'alcool à La Réunion. 2015. Available from: <https://documentation.outre-mer.gouv.fr/Record.htm?dlist=13&record=19135457124919536399>. Accessed 12 Nov 2022.
23. Andler R, Assogba F, Broustal O, Gane J, Goetsch T, Jeannel D, et al. Alcool. *Santé publique France. Bulletin de sante publique* 2020. La Réunion: 27p. Available from: <https://www.santepubliquefrance.fr/regions/ocean-indien/documents/bulletin-regional/2020/bulletin-de-sante-publique-alcool-la-reunion-janvier-2020>. Accessed 24 Feb 2023.
24. Crawford-Williams F, Steen M, Esterman A, Fielder A, Mikocka-Walus A. "If you can have one glass of wine now and then, why are you denying that to a woman with no evidence": Knowledge and practices of health professionals concerning alcohol consumption during pregnancy. *Women Birth*. 2015;28(4):329–35.
25. Burns E, Gray R, Smith LA. Brief screening questionnaires to identify problem drinking during pregnancy: a systematic review. *Addict Abingdon Engl*. 2010;105(4):601–14.
26. Pilowsky DJ, Wu LT. Screening instruments for substance use and brief interventions targeting adolescents in primary care: A literature review. *Addict Behav*. 2013;38(5):2146–53.
27. Popova S, Dozet D, Pandya E, Sanches M, Brower K, Segura L, Ondersma SJ. Effectiveness of brief alcohol interventions for pregnant women: a systematic literature review and meta-analysis. *BMC Pregnancy Childbirth*. 2023;23(1):61. <https://doi.org/10.1186/s12884-023-05344-8>. PMID: PMC9872314.
28. Carnet de santé maternité (ou carnet de grossesse). Available from: <https://www.service-public.fr/particuliers/vosdroits/F17365>. Accessed 12 Nov 2022.
29. Floyd RL, Ebrahim SH, Boyle CA. Observations from the CDC: Preventing Alcohol-Exposed Pregnancies among Women of Childbearing Age: The Necessity of a Preconceptional Approach. *J Womens Health Gend Based Med*. 1999;8(6):733–6.
30. Delpech R, Poncet L, Gautier A, Panjo H, Ourabah R, Mourey P, et al. The role of organization of care in GPs' prevention practice. *Prim Health Care Res Dev*. 2021;19(22):e74. <https://doi.org/10.1017/S1463423621000694>.
31. Davis PM, Carr TL, La CB. Needs assessment and current practice of alcohol risk assessment of pregnant women and women of childbearing age by primary health care professionals. *Can J Clin Pharmacol*. 2008;15(2):e214–22.
32. Brown JM, Bland R, Jonsson E, Greenshaw AJ. The Standardization of Diagnostic Criteria for Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD): Implications for Research, Clinical Practice and Population Health. *Can J Psychiatry*. 2019;64(3):169–76.
33. Kable JA, O'Connor MJ, Olson HC, Paley B, Mattson SN, Anderson SM, et al. Neurobehavioral Disorder Associated with Prenatal Alcohol Exposure (ND-PAE): Proposed DSM-5 Diagnosis. *Child Psychiatry Hum Dev*. 2016;47(2):335–46.
34. ICD-10 Version: 2019. Available from: <https://icd.who.int/browse10/2019/en/#/Q86.0>. Accessed 23 Nov 2022.
35. Chudley AE, Conry J, Cook JL, Looock C, Rosales T, LeBlanc N. Ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foetale: lignes directrices canadiennes concernant le diagnostic. *CMAJ Can Med Assoc J*. 2005;172(5 Suppl):SF1–21.
36. Looock C, Conry J, Cook JL, Chudley AE, Rosales T. Identifying fetal alcohol spectrum disorder in primary care. *CMAJ Can Med Assoc J*. 2005;172(5):628–30.
37. Hoyme HE, Kalberg WO, Elliott AJ, Blankenship J, Buckley D, Marais A-S, Manning MA, Robinson LK, Adam MP, Abdul-Rahman O, et al. Updated Clinical Guidelines for Diagnosing Fetal Alcohol Spectrum Disorders. *Pediatrics*. 2016;138:e20154256. <https://doi.org/10.1542/peds.2015-4256>.
38. Coles CD, Gailey AR, Mulle JG, Kable JA, Lynch ME, Jones KL. A comparison among 5 methods for the clinical diagnosis of fetal alcohol spectrum disorders. *Alcohol Clin Exp Res*. 2016;40(5):1000–9.
39. Astley SJ. Diagnosing the full spectrum of Fetal Alcohol-exposed individuals: Introducing the 4-Digit Diagnostic Code. *Alcohol Alcohol*. 2000;35:400–10. <https://doi.org/10.1093/alcac/35.4.400>.
40. La Plateforme de Coordination et d'Orientation - Fondation Père Favron. Available from: <https://www.favron.org/la-plateforme-de-coordination-et-dorientation/>. Accessed 5 Dec 2022.
41. Centre Ressources ETCAF – Un centre pour aider les familles et les professionnels. Available from: <https://etcaf3.favron.org/>. Accessed 5 Dec 2022.
42. McLachlan K, McNeil A, Pei J, Brain U, Andrew G, Oberlander TF. Prevalence and characteristics of adults with fetal alcohol spectrum disorder in corrections: a Canadian case ascertainment study. *BMC Public Health*. 2019;19(1):43. <https://doi.org/10.1186/s12889-018-6292-x>.
43. Popova S, Lange S, Shield K, Burd L, Rehm J. Prevalence of fetal alcohol spectrum disorder among special subpopulations: a systematic review and meta-analysis. *Addiction*. 2019;114(7):1150–72.
44. Temple VK, Ives J, Lindsay A. Diagnosing FASD in adults: the development and operation of an adult FASD clinic in Ontario Canada. *J Popul Ther Clin Pharmacol*. 2015;22(1):e96–105.
45. Pelletier-Fleury N, Le Vaillant M, Szidon P, Marie P, Raineri F, Sicotte C. Preventive service delivery: a new insight into French general practice. *Health Policy*. 2007;83:268–76.
46. Chaput H, Monziols M, Fressard L, Verger P, Ventelou B, Zaytseva A. Deux tiers des médecins généralistes libéraux déclarent travailler au moins 50 heures par semaine. *DREES Etudes et Résultats*. 2019;1113:1–2.

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



4.1.4. État des lieux : Discussion

La revue de la littérature montre que les interventions des médecins généralistes dans la prise en soin des patients atteints de TSAF sont multiples et se retrouvent à tous les niveaux : prévention, identification, diagnostic, suivi, éducation et rôle de coordinateur pour les patients, leurs familles, les femmes enceintes et leurs partenaires. Le médecin généraliste, s'il reste l'interlocuteur principal devrait être mieux formé à la fois sur le TSAF et sur les réseaux de soins pour optimiser la prise en soin complexe de cette pathologie.

A La Réunion, compte tenu du contexte régional autour de la consommation d'alcool, des grossesses précoces, de la consommation d'alcool pendant la grossesse, de l'ignorance de leur statut de début de grossesse, les actions à privilégier semblent être les actions de prévention et de repérage. Les actions de diagnostic sembleraient nécessiter une équipe pluridisciplinaire de même que pour la prise en soin.

La réalité de terrain confirme les difficultés et contraintes pour les médecins généralistes à pouvoir jouer pleinement leur rôle dans le cadre du TSAF, tant dans la prévention que dans le repérage et les actions à mener.

Les médecins généralistes interviewés exprimaient des difficultés dans l'abord de l'alcool en consultation et particulièrement auprès des femmes. Ils manquent de formation sur les TSAF. Certaines injonctions paradoxales entre la prévention de la consommation de l'alcool et les campagnes publicitaires, la fiscalité faible sur certains alcools à La Réunion mettaient en difficulté les médecins généralistes. Les symptômes non pathognomoniques des TSAF et les outils de diagnostic étaient considérés comme ambigus.

La longueur des consultations étaient également un obstacle de même que la difficulté de faire entrer une personne suspecte de TSAF dans un parcours de diagnostic et de prise en soin avec une équipe pluridisciplinaire.

La priorité à la promotion et à la formation au repérage de la consommation d'alcool et au repérage des troubles neurodéveloppementaux, dans le but d'améliorer l'identification et la coordination des

parcours de soins des enfants diagnostiqués avec des troubles neurodéveloppementaux, tels que les TSAF semblaient primordial du point de vue des médecins généralistes interviewés.

L'objectif de réduction de l'incidence des TSAF par des actions de prévention et de repérage, via les médecins généralistes nécessite de renforcer la connaissance sur les troubles et les parcours de soins. Pour ce faire il convient de proposer des actions concrètes et réalistes, adaptées à la réalité de terrain de la pratique du MG à La Réunion.

4.2. Définir les actions de prévention et de repérage de TSAF à La Réunion

4.2.1. Introduction

Cette deuxième étape de la recherche action a consisté à l'élaboration des actions. Pour ce faire, une méthode de consensus a été choisie.

Les différentes actions identifiées lors de la revue narrative étaient des actions qui avaient fait l'objet d'une évaluation scientifique et de publication. Cela constituait une première base d'actions à soumettre à un processus de consensus.

D'autres actions de terrain existaient mais elles avaient fait l'objet soit d'une évaluation informelle soit n'avaient pas encore été effectuées. Pour accéder à ces actions, nous avons sollicité des acteurs de terrain impliqués au cœur de la problématique des TSAF.

L'ensemble de ces actions a été colligé, puis présenté à des experts de terrain afin d'identifier les actions qui faisaient consensus auprès du panel d'experts.

4.2.2. Objectif et méthode

L'objectif était d'élaborer un consensus d'actions de prévention et de repérage de TSAF en médecine générale applicables à La Réunion.

La méthode Delphi a été choisie pour mener cette étude qualitative de consensus. Cette méthode permet de questionner des experts de la situation étudiée. Des médecins généralistes, des professionnels de santé, travaillant autour de la prise en soin des patients atteints de TSAF : les gynécologues, les pédiatres, addictologue, sage-femme, professeure des écoles en ULISS, neuropsychologue, puéricultrice, généticien et parents et représentants d'association ont constitué

le panel d'experts. Cette qualification d'expert est liée à leur profession et à leur pertinence professionnelle sur le sujet.

Elle a consisté en une recherche de consensus à partir des actions identifiées au chapitre précédent. L'étude a été finalisée en 2023, faisant l'objet d'une thèse d'exercice de médecine générale dont j'étais le directeur, accompagné du Dr Michel Spodenkiewicz en tant que codirecteur.

La direction de thèse a consisté à accompagner Alice Pouilley-Bax dans la construction de son travail aussi bien dans son élaboration, à commencer par la question de recherche, que dans sa réalisation. J'ai assuré avec le Dr Michel Spodenkiewicz, la supervision de l'analyse des données et des résultats, ainsi que la valorisation sous forme d'article scientifique.

4.2.3. Article 4

Ce travail a fait l'objet d'une publication dans la revue *Frontiers in Medicine Family and Primary Care*. L'article a été accepté le 8 janvier 2024 et publié le 05 février 2024. À partir d'un premier draft de l'article écrit par Alice Pouilley-Bax pour sa thèse d'exercice, ma contribution à cet article a consisté à reprendre l'ensemble du manuscrit de l'article, pour en proposer une version répondant aux recommandations des auteurs de la revue visée et en assurer la soumission et le suivi. (**Leruste S**, Pouilley-Bax A, Doray B, Maillard T, Monin F, Loubarette C, Marimoutou C and Spodenkiewicz M. Actions to prevent and identify fetal alcohol spectrum disorders to be implemented in general practice: a consensus. *Front. Med.* 2024; 11:1278973. doi: 10.3389/fmed.2024.1278973).

L'article est résumé dans l'encadré ci-dessous et présenté dans son intégralité page 99 à 107.

Introduction : L'exposition à l'alcool fœtal est la cause évitable la plus fréquente de déficience intellectuelle non génétique. Le syndrome d'alcoolisation fœtale (SAF) se caractérise par un retard mental et des traits faciaux particuliers. Il touche 0,1 % des naissances vivantes, soit environ 800 cas par an en France. Les troubles causés par l'alcoolisation fœtale (TSAF) sont dix fois plus fréquents que le SAF, avec environ 8 000 cas par an, et sont associés à une inadaptation comportementale et sociale chez les enfants et les adultes, ainsi qu'à diverses malformations. Les

médecins généralistes jouent un rôle clé dans la prévention et l'identification des TSAF par leur implication dans le suivi de la grossesse et de l'enfant.

La méthode : Étude qualitative utilisant la méthode Delphi. Les items ont été élaborés à partir de la littérature et d'entretiens semi-structurés avec des professionnels de terrain et des institutions de santé. Un panel d'experts multiprofessionnels, principalement des médecins généralistes, a été recruté.

Résultats : Vingt-quatre actions initiales ont été soumises aux experts. A l'issue du premier tour, 8 actions ont fait l'objet d'un consensus et 6 ont été reformulées pour le second tour. A l'issue du second tour, 3 actions ont fait l'objet d'un consensus, soit un total de 11 actions consensuelles. Quatre de ces actions semblent particulièrement pertinentes pour une mise en œuvre rapide, à savoir la proposition systématique de consultations pré-conceptionnelles pour les femmes ayant un projet de grossesse, l'identification systématique des facteurs environnementaux lors du suivi de l'enfant, la diffusion systématique d'informations sur l'exposition à l'alcool fœtal en période pré-conceptionnelle ou en début de grossesse, et la création d'une brochure destinée aux médecins généralistes sur le repérage des enfants atteints de SAF ou de TSAF et contenant les coordonnées des associations concernées par la prise en soin des patients atteints de TSAF.

Conclusion : La prévention et l'identification des TSAF peuvent être améliorées grâce à des formations courtes et générales destinées aux médecins généralistes. Le dépistage précoce de TSAF est crucial pour les enfants et devrait être maintenu tout au long de leur suivi. Cette étude pourrait être utilisée pour la communication et la diffusion d'informations basées sur le consensus obtenu.



OPEN ACCESS

EDITED BY
Christos D. Lionis,
University of Crete, Greece

REVIEWED BY
Victoria J. Kain,
Griffith University, Australia
Julia M. Stephen,
Mind Research Network (MRN), United States

*CORRESPONDENCE
Sébastien Leruste
✉ sebastien.leruste@univ-reunion.fr

[†]These authors have contributed equally to
this work and share first authorship

RECEIVED 17 August 2023
ACCEPTED 08 January 2024
PUBLISHED 05 February 2024

CITATION
Leruste S, Pouilley-Bax A, Doray B, Maillard T,
Monin F, Loubaresse C, Marimoutou C and
Spodenkiewicz M (2024) Actions to prevent
and identify fetal alcohol spectrum disorders
to be implemented in general practice: a
consensus.
Front. Med. 11:1278973.
doi: 10.3389/fmed.2024.1278973

COPYRIGHT
© 2024 Leruste, Pouilley-Bax, Doray, Maillard,
Monin, Loubaresse, Marimoutou and
Spodenkiewicz. This is an open-access article
distributed under the terms of the [Creative
Commons Attribution License \(CC BY\)](https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/). The
use, distribution or reproduction in other
forums is permitted, provided the original
author(s) and the copyright owner(s) are
credited and that the original publication in
this journal is cited, in accordance with
accepted academic practice. No use,
distribution or reproduction is permitted
which does not comply with these terms.

Actions to prevent and identify fetal alcohol spectrum disorders to be implemented in general practice: a consensus

Sébastien Leruste^{1,2,*†}, Alice Pouilley-Bax^{1†},
Bérénice Doray^{1,2,3,4,5,6}, Thierry Maillard⁷, Frédérick Monin¹,
Coralie Loubaresse¹, Catherine Marimoutou^{1,2} and
Michel Spodenkiewicz^{1,2,8,9}

¹Université de La Réunion—UFR Santé, Saint-Pierre, France, ²INSERM CIC-EC 1410, CHU of Réunion Island, Saint-Pierre, France, ³Laboratoire EPI (Etudes pharmaco-immunologiques), UFR Santé, Université de La Réunion, CHU (Centre Hospitalier Universitaire) de La Réunion, Saint-Denis, France, ⁴Service de Génétique, CHU (Centre Hospitalier Universitaire) de La Réunion, Saint-Denis, France, ⁵Centre Ressources TSAF (Troubles du Spectre de l'Alcoolisation Foetale), Fondation Père Favron, CHU (Centre Hospitalier Universitaire) de La Réunion, Saint-Pierre, France, ⁶Centre de Référence Anomalies du Développement et Syndromes Malformatifs Sud-Ouest Occitanie Réunion, Site Constitutif de La Réunion, Saint-Denis, France, ⁷SAF Océan Indien (SAF-OI), Saint-Louis, France, ⁸Moods Team, INSERM UMR-1178, CESP, Le Kremlin-Bicêtre, France, ⁹Department of Psychiatry, McGill Group for Suicide Studies, Douglas Mental Health University Institute, McGill University, Montréal, QC, Canada

Introduction: Fetal alcohol exposure is the most common preventable cause of non-genetic intellectual disability. Fetal Alcohol Syndrome (FAS) is characterized by intellectual disability and distinctive facial features and affects 0.1% of live births, representing approximately 800 cases per year in France. Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD) are 10 times more common than FAS, with an estimated 8,000 cases per year, and are associated with behavioral and social maladjustment in both children and adults, as well as various malformations. General practitioners play a key role in preventing and identifying FASD through their involvement in pregnancy and child monitoring.

Methods: Qualitative study using the Delphi method. Items were developed from the literature and semi-structured interviews with field professionals and health institutions. A panel of multi-professional experts, mostly general practitioners, was recruited.

Results: 24 initial actions were submitted to the experts. At the end of the first round, six actions reached a consensus and six were reformulated for the second round. At the end of the second round, three actions reached a consensus, for a total of 11 consensus actions. Four of these actions seem particularly relevant for rapid implementation, namely systematic proposal of pre-conceptual consultations for women planning pregnancy, systematic identification of environmental factors during child monitoring, systematic distribution of information on fetal alcohol exposure during pre-conception or early pregnancy, and the publication of a leaflet for general practitioners on the identification of children with FAS or FASD and the contact details of relevant associations.

Conclusion: Prevention and identification of FASD can be improved through short and general training supports for general practitioners. Early screening of FASD is crucial for children, and should be maintained throughout their

monitoring. This study could be used for communication and dissemination of information based on the consensus obtained.

KEYWORDS

general practice, fetal alcohol spectrum disorders, early identification, consensus, Reunion Island

1 Introduction

Although the cause of FASD is known, prenatal fetal alcohol exposure represents the most common cause of non-genetic intellectual disability (1). In France, 12% of pregnant women declared in 2017 that they had consumed alcohol during their pregnancy, regardless of whether they knew they were pregnant (2).

Among disorders resulting from prenatal alcohol exposure, Fetal Alcohol Syndrome (FAS) is the most typical and least difficult to diagnose. It associates a characteristic facial dysmorphism, a delayed growth in height and weight and neurodevelopmental disorders of varying severity. It accounts for 0.1% of births, or around 800 cases a year.

The toxicity of alcohol during pregnancy can vary according to the quantity of alcohol consumed, the period and duration of exposure. The various physical and neurodevelopmental impairments caused by exposure to alcohol during pregnancy are heterogeneous and grouped together under the term Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD). Four distinct diagnostic categories were established in 1996 by the Institute of Medicine (IOM): Fetal Alcohol Syndrome (FAS), partial Fetal Alcohol Syndrome (pFAS), Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorders (ARND), and Alcohol-Related Birth Defects (ARBD) (3). FASD is 10 times more common than FAS, accounting for 7.7% of births worldwide (4), with an extrapolation of 7,700 births cases per year in France.

These disorders manifest themselves from birth through adulthood (5). There is an increased risk of intellectual disability, psychiatric disorders, and secondary comorbidities or disabilities such as addictions, delinquency, and criminal behavior (6).

The meta-analysis by Popova et al. (4) identified over 400 comorbid conditions in people with Fetal Alcohol Spectrum Disorder. The most common are congenital malformations, chromosomal deformities and abnormalities, and mental and behavioral disorders.

In 2015, La Réunion was designated as a pilot region by the government to set up a program for the prevention and management of fetal alcohol spectrum disorders. An FAS prevention action plan was implemented between 2016 and 2018. It was articulated around six axes (Appendix 1) including professional training and the implementation of a care pathway for the women and children concerned (7).

General practitioners appear to be key players in the prevention and detection of FASD, through their involvement in pregnancy and child follow-up. On the other hand, studies suggest that GPs sometimes feel incompetent in screening and management (8, 9). In 2021, an action research project was launched. A review of the literature and exploratory research were carried out to explore the obstacles and motivations faced by GPs in preventing and identifying FASD. The doctors interviewed revealed a lack of theoretical and

practical knowledge on the subject, as well as insufficient knowledge of the care pathway and structures for diagnosing and managing FASD (10). For the second stage of the action research, several actions were identified, but a consensus was needed to prioritize relevant actions in general practice.

2 Materials and methods

2.1 Type of study

The Delphi method was used, a systematic and interactive prospecting method based on a panel of experts. It enables a group of experts to be questioned on a defined subject in order to reach a consensus (11). Each expert is interviewed individually and anonymously on the basis of an initial questionnaire.

2.2 Population

The use of an expert panel should not be confused with the consultation of a group of high-ranking scientists. An expert is defined as a person with sufficient knowledge of the subject because of professional or personal involvement in the issue (11, 12).

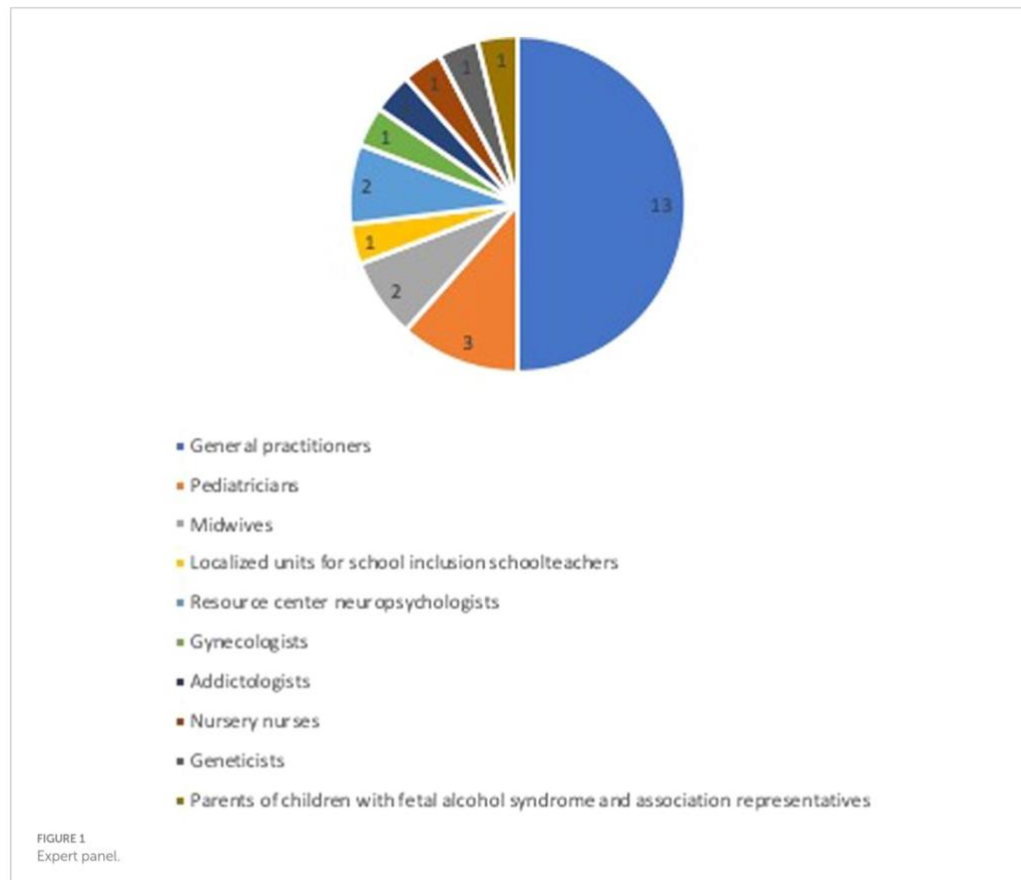
For this study, the recruitment of experts implied knowledge in the field of FASD through their professional practice or personal involvement in this issue. The inclusion criteria for the various players who were sought to make up the expert group were:

- Outpatient general practitioners.
- Other healthcare professionals involved in the care of women of childbearing age and infants.
- Socio-educational actor working with children with Fetal Alcohol Spectrum Disorder.
- Families and patients with Fetal Alcohol Spectrum Disorder.

As far as general practitioners are concerned, the inclusion of those who have or have had a practice focused on child health and/or women's health and/or addictology was favored.

Recruitment was network-based. Experts were invited individually by email (Appendix 2), explaining the objectives of the study and the Delphi method. They were integrated into the network after having familiarized themselves with the elements and agreed to the study's modalities.

The expert group is made up of 26 experts, including seven men and 19 women. They were mainly general practitioners (13), but also pediatricians (3), midwives (2), Localized units for school inclusion schoolteacher (1), resource center neuropsychologists (2), gynecologist



(1), addictologist (1), nursery nurse (1), geneticist (1), and parent of children with fetal alcohol syndrome and association representatives (1) (Figure 1).

2.3 Data collection

2.3.1 Drawing up the initial questionnaire

The choice of evidence-based prevention actions implemented by primary care teams was based on the literature review carried out prior to this work. This selection was supplemented by interviews with local FASD healthcare providers to identify non-evidence-based actions that have been implemented. What all these initiatives had in common was that they aimed to prevent and identify FASD in couples of childbearing ages, as well as in pregnant women and children. Twenty-six "initial" actions emerged from this work, and were proposed to the experts. Following the initial questionnaire, a number of actions could already be agreed upon.

The comments were analyzed using a qualitative research approach based on thematic analysis. This enabled us to identify various themes for the second questionnaire.

2.3.2 Expert consultation

The application chosen for submitting the questionnaires was Google Forms®. Invitations to complete the questionnaires were sent by email, with a link to the questionnaire.

2.3.3 First round

For each action, the experts were asked to indicate their degree of agreement on each action on a Likert scale ranging from 1 (complete disagreement) to 9 (complete agreement), and then to comment on each action to argue their opinion.

First, for each action, the median of responses was calculated, enabling the position to be judged in relation to the proposed action:

Median \leq 3: disagreement.

Median between 4 and 6: equivocal.

Median \geq 7: agreement

Secondly, the degree of convergence within the group was calculated in order to define the so-called consensual actions. Literature data suggest a rate of agreement between experts ranging from 51 to 80% (3). In our study, this rate of agreement was set at 70%. Thus, if 70% of expert responses were greater than or equal to the median, the action was said to be consensual. For actions with a rate

of agreement below 70% of the median, the actions were said to be non-consensual. Comments on these actions were analyzed individually or in combination to compose the second questionnaire.

2.3.4 Second and final round

The statistical analysis used to define the consensus actions was carried out in the same way as in the first round. The researchers (AP-B, SL, and MS) considered that the number of actions on which there was consensus in the initial questionnaire and the second questionnaire was sufficient for consensus building.

The aim of analyzing the comments from the second questionnaire was to open up avenues of reflection for the implementation of consensual actions or other research projects. Comments were analyzed by theme for each action individually.

2.4 Ethical and regulatory criteria

A request for compliance with the MR004 reference method was made to the Commission Nationale de l'Informatique et des Libertés (CNIL) prior to the study, and registered under n°2,226,567.

The data were collected anonymously via a data entry mask edited with the Google Forms® application.

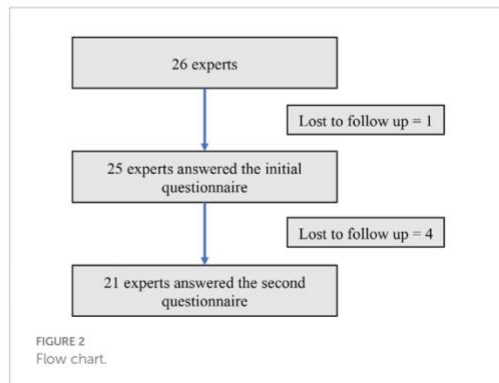
3 Results

3.1 First round results

Twenty-six invitations to reply to the first questionnaire were sent to the experts on July 11 2022. Experts were given 3 weeks to respond. A reminder was sent on August 1, 2022 to experts who had not responded to the initial questionnaire. A 2-week extension was granted, as several experts were on vacation during this period and did not receive their mail. Twenty-five experts were able to respond to the first questionnaire between July 11, 2022 and August 22, 2022 (Figure 2).

Among the 24 actions proposed in the first round:

- 22 actions were approved by experts, eight of them by consensus.
- Two actions were deemed equivocal by the expert group.



- There was no disagreement among the group.

Here are the eight consensus actions from the first round:

- Systematically offer a pre-conception consultation to young women wishing to become pregnant.
- Set up multidisciplinary structures with medical, psychological and social players.
- Integrate FASD into general practitioner training courses on neurodevelopmental disorders (NDD).
- Systematically identify environmental factors during the follow-up.
- Produce an information leaflet for general practitioners on identifying children with FAS or FASD, with contact details for associations.
- Enable GPs to easily refer pregnant women with alcohol addiction to competent weaning structures, by creating priority access for pregnant women to these structures.
- Systematic distribution of an information leaflet on fetal alcohol syndrome when folic acid is prescribed pre-conceptionally or in early pregnancy.
- Create Continuing Professional Development (CPD) training courses on FASD for general practitioners.

Sixteen actions did not achieve consensus in the first round. Three actions were dropped after analysis of the first questionnaire, as analysis of the comments did not reveal any new proposals. Three other actions were dropped because their objectives were close to those of the consensus actions. These were to discuss the best time to distribute an information document on fetal alcohol syndrome, and which training medium should be used to train GPs. Three actions were reformulated individually in the second questionnaire. Lastly, the comments on seven actions were analyzed by theme, leading to the proposal of three new actions to complete the second questionnaire (Table 1).

3.1.1 Comments analysis

A thematic analysis of the comments revealed a number of themes for reflection: prevention by the GP, the implementation of multidisciplinary follow-up, child follow-up, information documents, GP training, and the use of standardized questionnaires during consultations.

Here is a summary of this analysis:

Prevention by general practitioners must be targeted. It should not be based solely on "childbearing age," but should identify women with a desire to become pregnant. It was also important to make the partner aware of fetal alcohol syndrome. The partner's role is to accompany and support the woman during pregnancy. It would be interesting to look for alcohol consumption in the partner, and to quantify it.

During pregnancy monitoring, the prevention and detection of FASD must be a multidisciplinary team effort (doctors, midwives, addictologists, social workers, etc.). The information transmitted between the various professionals must be relevant to the patient's interests, and in agreement with her.

Screening for FASD should be carried out at a very early stage, from the child's first months of life, well before starting school, and then during the child's follow-up. The health record seems to be the ideal medium for screening for neurodevelopmental disorders,

TABLE 1 Summary of first-round results.

Proposed actions—TOUR 1	M	DC	R
Conduct brief interventions on alcohol consumption among women of childbearing age, using standardized questionnaires (Example: DETA, AUDIT).	8	52%	AR
Systematic distribution of an information leaflet on fetal alcohol syndrome by general practitioners during consultations with women of childbearing age.	7	52%	DA
The doctor monitoring the pregnancy should receive feedback on the 4th-month prenatal interview with the midwife (example: letter).	9	68%	AR
Systematically offer a preconception consultation to young women wishing to become pregnant	9	72%	CA
Set up multidisciplinary structures with medical, psychological and social professionals dedicated to monitoring pregnant women who drink alcohol.	9	72%	CA
Develop a local smartphone application for the identification of Fetal Alcohol Syndrome (FAS) and Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD). This application would help refer patients according to a probabilistic score based on dysmorphia and child development.	9	62.6%	AR
Integrate FASD into general practitioner training courses on neurodevelopmental disorders (NDD).	9	88%	CA
Systematically identify environmental factors during the child's follow-up.	9	84%	CA
Ask about alcohol consumption several times during the pregnancy follow-up, using open-ended questions (e.g., when giving advice on diet, when filling in the maternity booklet, etc.).	9	60%	AR
Produce an information leaflet for general practitioners on identifying children with FAS or FASD, with contact details for associations.	9	80%	CA
Implementation of a screening program for FASD during child follow-up in general practice.	8	56%	AR
Posters on fetal alcohol syndrome in all general practices.	9	62,5%	DA
Enable GPs to easily refer pregnant women with alcohol addiction to competent weaning structures, by creating priority access for women.	9	88%	CA
Systematic distribution of an information document on fetal alcohol syndrome when a biology test involving the detection of pregnancy hormone (HCG) is prescribed.	8	56%	DA
Setting up a university diploma (DU) for general practitioners on NDT, part of which would focus on fetal alcohol spectrum disorders.	9	56%	DA
Routine screening for neurodevelopmental disorders in general practice for all children at age 3.	9	60%	AR
Identification of women at risk of exposure to alcohol during a future pregnancy by the general practitioner. These patients are then offered contraception, with regular assessment of compliance and tolerance.	5	70.8%	DA
Screen ALL pregnant women using standardized questionnaires in the waiting room (e.g., T-ACE, AUDIT-C).	7	60%	AR
Create Continuing Professional Development (CPD) training courses on FASD for general practitioners.	9	72%	CA
Enhance the value of addictology consultations in general practice by introducing a specific rating system.	8	66,7%	DA
During information and awareness campaigns on fetal alcohol syndrome, emphasize the seriousness of the clinical picture and the consequences for families and caregivers, in order to have a greater impact.	7	62.5%	AR
Systematically measure drug consumption at every pregnancy check-up via the maternity record (and not just at the start of pregnancy).	8	64%	AR
Systematic distribution of an information leaflet on fetal alcohol syndrome when folic acid is prescribed pre-conceptionally or in early pregnancy.	8	80%	CA
Identify high-risk drinking situations during pregnancy follow-up, using standardized self-questionnaires during general medical consultations (e.g., T-ACE, AUDIT-C).	7	58.4%	AR

M, Median. DC, Degree of convergence or percentage of responses within the median interval. R, Result; CA, Consensus action; DA, Discontinued action; AR, Action reworked for second round.

including FASD. For example, the health record could be modified to include warning signs during compulsory visits.

The systematic distribution of an information document on fetal alcohol syndrome was approved by the experts, but they agreed on the importance of distributing it at the right time. The availability of this information to patients during HCG prescription or urine purchase of a pregnancy test was discussed by the experts. On the other hand, the pre-conception consultation, the prescription of folic acid, or when a couple expresses a desire for pregnancy, seem to be key moments for distributing the document.

As far as training general practitioners in FASD is concerned, there is a need for "broad" training. According to the experts, the

introduction of a university diploma (DU) specific to FASD could encourage the training of doctors only interested and involved in the subject, and thus a minority of healthcare professionals.

The idea would be to use shorter training materials such as Continuing Professional Development (CPD) and to deepen their knowledge of FASD in more general training courses, such as those on child follow-up or neurodevelopmental disorders.

The use of standardized questionnaires to screen for alcohol consumption has been validated by the experts. On the other hand, it should provide an opportunity for discussion and support with the general practitioner. The use of simplified questionnaires during consultations was proposed.

TABLE 2 Summary of second-round results.

Proposed actions—TOUR 1	M	DC	R
Use the child's health record as a tool for early detection of neurodevelopmental disorders, including Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD), for example, by including the search for "warning signs" in the child's compulsory follow-up visits.	9	81%	CA
Creation of an application or website for general practitioners to help them screen for and refer neurodevelopmental disorders, including alcohol spectrum disorders.	9	52%	DA
Research and quantify the partner's alcohol consumption when a couple is planning a pregnancy, because men are also involved in preventing fetal alcohol syndrome.	9	67%	DA
During pregnancy follow-up, look for the consumption of various toxic substances on several occasions, not just during the initial consultation, and record it in the patient's medical record.	9	71%	CA
During general medical consultations, conduct brief interventions on alcohol consumption among women and couples with a desire to become pregnant, using standardized questionnaires (Example: DETA, AUDIT).	8	52%	DA
Implement transmission of the minutes (by post or email via secure messaging system) of the 4th-month prenatal interview with the midwife to the doctor monitoring the pregnancy, with the patient's consent.	9	86%	CA

M, Median. DC, Degree of convergence or percentage of responses within the median interval. R, Result; CA, Consensus action; DA, Discontinued action.

3.2 Second round results

Twenty-five invitations to reply to the second questionnaire were sent to the experts on October 10, 2022. Experts were given 3 weeks to respond. Two reminders to complete the questionnaire were sent out during this period. Twenty-one experts were able to respond to the second questionnaire between October 10, 2022 and October 31, 2022. Four experts did not reply. The reasons for their non-participation have not been identified (Figure 1).

Of the six actions proposed in the second round, all six were approved by experts, including three with consensus:

- Use the child's health record as a tool for early detection of neurodevelopmental disorders, including fetal alcohol spectrum disorders.
- During pregnancy monitoring, look for the use of various toxic substances on several occasions, not just during the consultation.
- Set up transmission of the minutes (by post or email via secure messaging system) of the 4th-month prenatal interview, with the patient's consent.

The total number of actions (eight actions in the first round and three actions in the second round, i.e., 11 actions) was deemed sufficient to build consensus, enabling the Delphi Round to be closed.

Unlike the initial questionnaire analysis, comments on each action were analyzed individually (Table 2).

3.2.1 Comments analysis

With regard to the use of the health record as a tool for the early detection of neurodevelopmental disorders, including FASD, the expert group reached a consensus. On the other hand, it was emphasized that doctors should be trained to identify these disorders. The choice of medium (health record) was discussed by five experts, as the group felt it was important to be vigilant about respecting medical confidentiality with regard to fetal alcohol. The use of computerized medical records was suggested by one expert.

There was no consensus on the creation of an application or website for general practitioners to help them screen for and refer neurodevelopmental disorders, including FASD. The complexity of the tool was underlined by the group. The use of a website for identification during consultations was judged by several experts to

be time-consuming. If a website were to be developed, it would have to be quick and easy to use. The "Antibioctic[®]" site, which concerns the rational prescription of antibiotic therapy in primary care, was cited as a model for the introduction of this kind of tool.

There was no consensus within the group on the need to research and quantify the partner's alcohol consumption in the event of a couple planning to become pregnant. The main point discussed by the experts in their comments was the role of the man during pregnancy follow-up consultations. According to the experts, women often consult alone. It is not possible to look for alcohol consumption by the partner. On the other hand, two experts felt that the doctor should initiate "couple" consultations, and disseminate information about the potential toxicity of alcohol consumption by the sire during embryogenesis.

The expert group reached a consensus on the need to investigate the use of various toxic substances on several occasions during pregnancy follow-up, and to record this in the patient's medical record. Once again, the importance of training general practitioners was raised in the comments. However, some experts questioned the added time such an action would require during pregnancy follow-up consultations, which are often lengthy. The relevance of such an action was also questioned by one expert in the event of no follow-up being carried out.

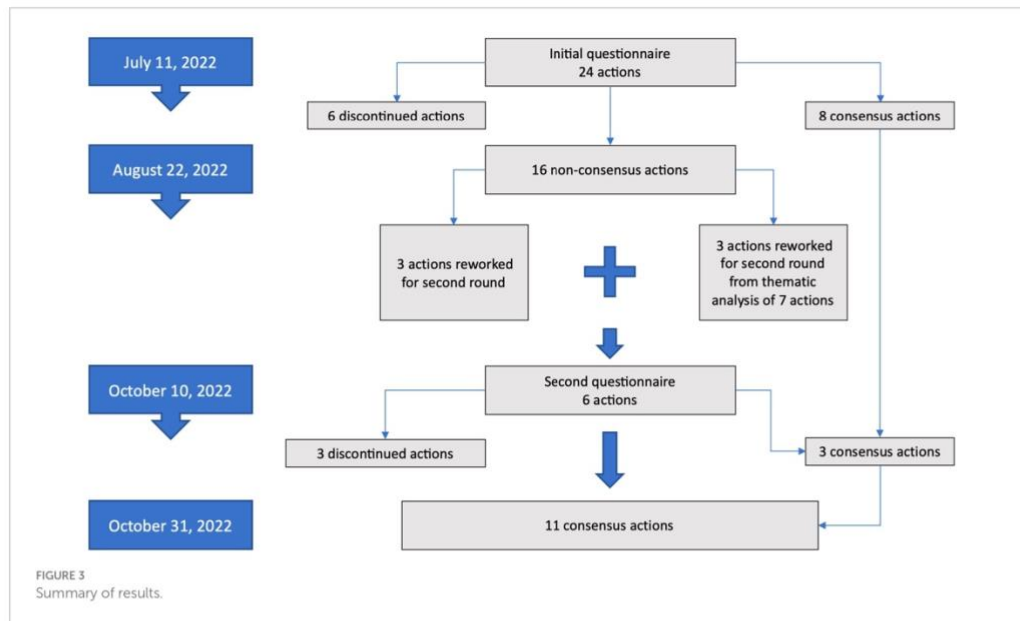
Concerning the use of early detection and brief interventions on alcohol consumption among women and couples with a desire to become pregnant, using standardized questionnaires, there was no consensus within the expert group. In fact, several experts found the action too time-consuming. What is more, not all GPs are aware of, or trained in, this type of action.

There is a consensus that the minutes of the 4th-month prenatal interview with the midwife should be forwarded to the doctor monitoring the pregnancy, with the patient's consent. For the experts, multidisciplinary follow-up multiplies the chances of identifying and monitoring women who consume alcohol during pregnancy (Figure 3).

4 Discussion

4.1 Strength and limits

Various studies on the prevention or identification of FASD using a Delphi round have been carried out in Australia (13) and South Africa (14). This study is original to France. The use of a Delphi round made



it possible to convene a multidisciplinary group of experts, the majority of whom were general practitioners spread across the whole of Reunion Island. The selection of experts was the subject of numerous discussions between the researchers (AP-B, SL, and MS). This search for consensus is part of an action research project on the prevention and detection of fetal alcohol spectrum disorders in general practice. Regarding the high prevalence of FASD in general population, an agreement was found to select experts in primary care first. As with any selection process, there are limits to the participation of the people involved. The strong point of this method is the possibility of commenting anonymously, thus avoiding the effect of authority or opinion leaders (15). What is furthermore, the use of email to set up this study saved time and money.

Even if several professions working with FASD were represented on the expert panel, other players could have been involved, which constitutes a recruitment bias. Several reports emphasize the importance of identifying FASD in the course of legal proceedings. In 2018, an agreement was signed between the youth legal protection agency and the Reunion resource center to train its professionals in FASD (16). The absence of patients with FASD was also noted. Including other players in the expert group could have altered the results, potentially constituting a reproducibility bias.

4.2 Discussion of results

This research is part of an action research project. At present, four actions seem relevant for rapid implementation:

Consensus was based on two calculations: the median and the degree of convergence. After a thematic analysis, the experts' free comments were also considered. These comments modulated the results of the calculations in the consensus decision.

The first action concerns the systematic introduction of a pre-conception consultation for women wishing to become pregnant.

This non-compulsory but "strongly recommended" consultation is reimbursed at 70% (17). Its modalities have not been updated by the HAS since 2009, and were issued in response to a request from healthcare professionals following the abolition of the pre-nuptial consultation in 2007 (18). This consultation assesses medical, behavioral and social risks during pregnancy. It helps reduce the risks that can arise very early on during organogenesis, and later during embryonic and fetal development (19). A study carried out in 2015 on 392 patients suggested that only 15% had attended a pre-conception consultation, and that this constituted primiparous patients with a high socio-professional level (20).

The second action concerns the systematic identification of environmental factors during the child's follow-up. Action levers for identifying FASD must take the environment into account. Studies of the psychosocial behavior of children with FASD have highlighted behavioral disorders that appear to be specific, resulting from an interaction between prenatal exposure to alcohol and environmental factors (21, 22). The impact of environmental factors has been demonstrated in the expression of other pathologies, notably psychiatric ones such as schizophrenia (23).

The third action proposed for implementation in the short term is the systematic distribution of an information document on the effects of fetal alcohol exposure when folic acid is prescribed pre-conceptionally or at the start of pregnancy. In 2016, in Nouvelle Aquitaine, a feasibility study was carried out on the distribution of this document by the general practitioner among women of childbearing age (24). The acceptability of the study and the information document was 100% with women, and this helped to encourage 34% of them to discuss their alcohol consumption with a healthcare professional. However, in this study, only 37% of women of childbearing age received the information leaflet. In our study, the experts suggested targeting the distribution of this type of document to women wishing to become pregnant or in early pregnancy.

Finally, the publication of an information leaflet for general practitioners on the identification of children with FASD, with

contact details for associations, would also seem appropriate. The SAF France association, recognized by a number of learned societies, recommends that professionals be given the definition of FASD, as well as key figures such as incidence and patient association contacts, to help women in vulnerable situations. In 2021, a survey conducted by this association questioned 302 French general practitioners. Only 24% of them claimed to have precise knowledge of fetal alcohol spectrum disorders, and 1/3 of them said they did not systematically discuss alcohol consumption in early pregnancy (25). The publication of this brochure is a first step toward providing information and encouraging training.

5 Conclusion

This work led to a consensus on 11 actions to prevent and identify FASD in general practice. Four of these actions appear to be suitable for rapid implementation, following evaluation via feasibility studies. In the course of this work, several experts discussed the importance of including the pregnant woman's partner in the prevention of FASD, but it is regrettable that no consensus was reached on an action to include him or her. The partner's role is one of accompaniment and support during pregnancy. Moreover, the father's alcohol consumption is also thought to increase the risk of FASD through epigenetic changes in sperm DNA (26). Finally, according to one study, 75% of FAS children have a biological father with an alcohol use disorder (27). Other research studies integrating the partner in the prevention of FASD would seem to be of interest.

Data availability statement

The original contributions presented in the study are included in the article/Supplementary material, further inquiries can be directed to the corresponding author.

Ethics statement

Ethical review and approval was not required for the study on human participants in accordance with the local legislation and institutional requirements. Written informed consent from the participants was not required to participate in this study in accordance with the national legislation and the institutional requirements.

Author contributions

SL: Conceptualization, Investigation, Methodology, Project administration, Supervision, Validation, Visualization, Writing

References

- Jones K, Smith D. Recognition of the fetal alcohol syndrome in early infancy. *Lancet Glob Health*. (1973) 302:999–1001. doi: 10.1016/S0140-6736(73)10992-1
- Audler R, Richard JB, Cogordan C, Deschamps V, Escalon H, Nguyen-Thanh Y, et al. Nouveau repère de consommation d'alcool et usage: résultats du Baromètre de Santé publique France 2017. *Bull Epidemiol Hebd*. (2019) 10-11:180–7.

– original draft, Writing – review & editing. AP-B: Conceptualization, Data curation, Formal analysis, Investigation, Methodology, Visualization, Writing – original draft. BD: Writing – review & editing. TM: Writing – review & editing. FM: Writing – review & editing. CL: Writing – review & editing. CM: Writing – review & editing. MS: Conceptualization, Methodology, Project administration, Supervision, Validation, Writing – review & editing.

Funding

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

Acknowledgments

The authors thank the experts for their kind participation in this study, and in particular the FASD resource center of Reunion.

Conflict of interest

SL is a doctoral thesis student funded by the Doctoral School of the University of Réunion.

The authors declare that the research was conducted in the absence of any commercial or financial relationships that could be construed as a potential conflict of interest.

Publisher's note

All claims expressed in this article are solely those of the authors and do not necessarily represent those of their affiliated organizations, or those of the publisher, the editors and the reviewers. Any product that may be evaluated in this article, or claim that may be made by its manufacturer, is not guaranteed or endorsed by the publisher.

Supplementary material

The Supplementary material for this article can be found online at: <https://www.frontiersin.org/articles/10.3389/fmed.2024.1278973/full#supplementary-material>

APPENDIX 1
SAF regional prevention action plan.

APPENDIX 1
Recruitment of experts.

5. Temple VK, Ives J, Lindsay A. Diagnosing FASD in adults: the development and operation of an adult FASD clinic in Ontario, Canada. *J Popul Ther Clin Pharmacol.* (2015) 22:e96–e105.
6. Lemoine P, Lemoine H. Avenir des enfants de mères alcooliques (étude de 105 cas retrouvés à l'âge adulte) et quelques constatations d'intérêt prophylactique [outcome of children of alcoholic mothers (study of 105 cases followed to adult age) and various prophylactic findings]. *Ann Pediatr.* (1992) 39:226–35.
7. Queruel N., Doray B. (2023). Santé Publique France. La santé en action Available at: <https://www.santepubliquefrance.fr/docs/a-la-reunion-former-les-professionnels-aux-troubles-de-l-alcoolisation-foetale-interview> (Accessed March 19, 2023).
8. Howlett H, Mackenzie S, Strehle EM, Rankin J, Gray WK. A survey of health care Professionals' knowledge and experience of Foetal alcohol Spectrum disorder and alcohol use in pregnancy. *Clin Med Insights Reprod Health.* (2019) 13:1179558119838872. doi: 10.1177/1179558119838872
9. Peadar E, O'Leary C, Bower C, Elliott E. Impacts of alcohol consumption during pregnancy: Pregnancy—the role of the general practitioner. *Aust Fam Méd.* (2007) 36:935–9.
10. Baelen F. (2021). Obstacles and motivations of general practitioners on Reunion Island in preventing fetal alcohol spectrum disorders. Medicine thesis. University of Réunion Island.
11. Pope C, Mays N. *Qualitative Research in Health Care.* 3rd ed. Oxford: Blackwell Publishing Ltd. (2006).
12. Hasson F, Keeney S, McKenna H. Research guidelines for the Delphi survey technique. *J Adv Nurs.* (2000) 32:1008–15. doi: 10.1046/j.1365-2648.2000.101-1-01567.x
13. Watkins RE, Elliott EJ, Halliday J, O'Leary CM, D'Antoine H, Russell E, et al. A modified Delphi study of screening for fetal alcohol spectrum disorders in Australia. *BMC Pediatr.* (2013) 13:13. doi: 10.1186/1471-2431-13-13
14. Adebisi BO, Mukumbang FC, Beytell AM. A guideline for the prevention and management of fetal alcohol Spectrum disorder in South Africa. *BMC Health Serv Res.* (2019) 19:809. doi: 10.1186/s12913-019-4677-x
15. Adler M, Ziglio E. *Gazing into the Oracle: The Delphi Method and Its Application to Social Policy and Public Health.* London: Kingsley (1996).
16. Hervouet L (2020). Police et justice face au troubles du spectre de l'alcoolisation foetale, Vivre avec le SAF. Paris. Available at: <https://www.vivreaveclesaf.fr/wp-content/uploads/2020/12/Rapport-TSAF-et-justice-Final.pdf> (Accessed June 18 2023).
17. Ameli (2023). Consulter avant d'être enceinte: la consultation préconceptionnelle. CNAM: Paris. Available at: <https://www.ameli.fr/assure/sante/themes/consultation-et-mode-de-vie-en-vue-d-une-grossesse/avant-d-etre-enceinte-la-consultation-preconceptionnelle> (Accessed July 18 2023).
18. Haute Autorité de Santé (2010). Projet de grossesse: informations, messages de prévention, examens à proposer-fiche de synthèse. Paris: HAS. Available at: https://www.has-sante.fr/jcms/c_1360649/fr/projet-de-grossesse-informations-messages-de-prevention-examens-a-proposer (Accessed May 18 2023).
19. Poujade O, Luton D. Intérêts de la consultation préconceptionnelle. *Réal Gynécol Obstétr.* (2008) 133:6p.
20. Paradis S, Ego A, Bosson JL. Preconception care among low-risk mothers in a French perinatal network: frequency of utilization and factors associated. *J Gynecol Obstet Hum Reprod.* (2017) 46:591–6. doi: 10.1016/j.jogoh.2017.05.002
21. Varescon I, Gaugue-Finot J, Wendland J. Le syndrome d'alcoolisation foetale: état de la question. *Psychotropes.* (2006) 12:113–24. doi: 10.3917/psyt.121.0113
22. Malone M, Koren G. Alcohol-induced behavioural problems in fetal alcohol spectrum disorders versus confounding behavioural problems. *J Popul Ther Clin Pharmacol.* (2012) 19:e32–40 [Epub and print].
23. Vilain J, Galliot AM, Durand-Roger J, Leboyer M, Llorca PM, Schürhoff F, et al. Les facteurs de risque environnementaux de la schizophrénie [Environmental risk factors for schizophrenia: a review]. *L'Encéphale.* (2013) 39:19–28. doi: 10.1016/j.encep.2011.12.007
24. Fernandez S. (2017). Prevention of alcohol consumption during pregnancy in general practice: A feasibility study. Medicine thesis: University of Réunion Island.
25. Auzanneau N, Raveglia J (2021). Connaissances et comportements des médecins généralistes en matière de SAF. Opinion Way. Pour SAF France. Paris. Available at: https://urml-oi.re/ZS/Prevention/enquete-opinionway_2021.pdf (Accessed May 30 2023).
26. Day J, Savani S, Krempley BD, Nguyen M, Kitlinska JB. Influence of paternal preconception exposures on their offspring: through epigenetics to phenotype. *Am J Stem Cells.* (2016) 5:11–8.
27. Abel E. Paternal contribution to fetal alcohol syndrome. *Addict Biol.* (2004) 9:127–33. doi: 10.1080/13556210410001716980

4.2.4. Résultat principal

Le recrutement d'un panel d'experts pluridisciplinaires, dont la majorité était des médecins généralistes a été effectué dans le même temps que l'élaboration de la liste des actions de prévention et de repérage TSAF. Cette liste d'actions élaborée à partir de la revue de littérature et d'entretiens semi dirigés avec des professionnels de terrain, médecins, généralistes, addictologue et représentant de l'association.

Chaque expert recevait indépendamment la liste des 24 actions. Ils ont pu noter sur une échelle de Likert allant de 1 à 9 et commenter chaque action. Le calcul de la médiane et du degré de convergence ont été calculés pour chaque action.

Après deux tours de ronde Delphi, 11 actions de prévention et de repérage des troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale ont fait consensus auprès du panel de 26 experts pluriprofessionnels. Ces 11 actions ont pour vocation à être mises en place au sein du territoire réunionnais dans la perspective d'une amélioration de la prévention et du repérage des TSAF en médecine générale.

Voici la liste de ces actions ci-dessous.

- 1. Recommander systématiquement une consultation avant la conception chez les jeunes femmes ayant un désir de grossesse.**
2. Établir des équipes multidisciplinaires comprenant des professionnels de la santé, de la psychologie et des services sociaux, dédiées à l'accompagnement des femmes enceintes consommant de l'alcool.
- 3. Concevoir des formations TSAF à destination des médecins généralistes dans le cadre des formations sur les Troubles du neurodéveloppement (TND).**
4. Repérer systématiquement les facteurs environnementaux durant le suivi de l'enfant.
5. Créer un accès prioritaire pour les médecins généralistes vers des structures adaptées aux femmes enceintes avec addiction à l'alcool
- 6. Au cours de la prescription d'acide folique en pré-conceptionnel ou en début de grossesse, donner un document d'information sur l'alcoolisation fœtale**
- 7. Distribuer aux médecins généralistes un document sur le repérage des enfants atteints de SAF ou de TSAF avec les coordonnées des associations**

8. Concevoir des formations sur le TSAF dans le cadre du Développement professionnel continu (DPC) des médecins généralistes
9. Utiliser le carnet de santé de l'enfant comme outil d'aide au dépistage précoce des troubles du neuro-développement dont les TSAF.
10. Rechercher la consommation de toxiques à multiples reprises au cours du suivi de grossesse et pas uniquement au cours de la consultation
11. Transmettre le compte-rendu de l'entretien du 4^{ème} mois avec l'accord de la patiente (courrier ou courriel par messagerie sécurisée)

Une fois établie la liste des actions faisant consensus pour la médecine générale, restait à prioriser leur mise en œuvre.

4.3. Mise en place des actions

Parmi les actions faisant consensus, deux critères ont permis de choisir celles qui feraient l'objet d'une mise en place immédiate : l'accessibilité et la faisabilité en termes de moyens.

Au total, quatre actions ont été choisies, notamment parce qu'elles ne requéraient que peu de moyens, financiers en particulier. Chacune de ces actions et leur moyen de mise en œuvre sont détaillées dans les sous-chapitres suivants et référencées par leur numéro dans la liste des actions consensuelles précitées.

Il est bien évident que les sept autres actions pourront faire l'objet d'une mise en place ultérieure. Mais cela nécessiterait d'établir un protocole de recherche avec sollicitation de moyens.

4.3.1. Action N° 1 : La consultation pré-conceptionnelle

La première action sera de recommander systématiquement une consultation avant la conception chez les jeunes femmes ayant un désir de grossesse. Avant de mettre en place cette action, il nous a semblé nécessaire de vérifier l'acceptabilité et la faisabilité de la consultation pré-conceptionnelle par une étude qualitative utilisant une approche par théorisation ancrée, selon les lignes directrices COREQ.

Cette étude de faisabilité est en place auprès des trois populations de professionnels de santé concernées : les couples en âge de procréer, les médecins généralistes et les sages-femmes. Cette étude se fait au travers du travail de plusieurs thèses d'exercice par Sabine Ardilouze, Marine Auvray et Claire Meissonnier sous ma direction et celle du Dr Coralie Loubaresse.

4.3.2. Action N° 3 : Concevoir des formations TSAF à destination des médecins généralistes dans le cadre des formations sur les Troubles du neurodéveloppement (TND).

Afin d'intégrer l'enseignement des TSAF dans le cadre de la formation des médecins généralistes sur les Troubles du neuro-développement (TND), la première question de recherche est de répondre à quelles sont les attentes, les besoins et les objectifs des internes de médecine générale, des experts et des médecins généralistes concernant la formation au repérage des TND en médecine générale ?

Cette question représente l'objectif du travail de thèses d'exercice de Barbara Cloutet sous la direction du Dr Coralie Loubaresse et moi-même.

Pour y répondre, une méthode mixte qualitative par approche par théorisation ancrée et par méthode de consensus par la ronde Delphi a été mise en place. Les populations cibles étaient les étudiants inscrits à l'Université de La Réunion pour l'année 2023-2024, les experts des troubles du neurodéveloppement à La Réunion et les médecins généralistes impliqués dans l'enseignement du DES de médecine générale.

4.3.3. Action N° 6 : Au cours de la prescription d'acide folique en pré-conceptionnel ou en début de grossesse, donner un document d'information sur l'alcoolisation fœtale.

La troisième action sera la délivrance d'un document d'information sur l'alcoolisation fœtale systématiquement lors de la prescription d'acide folique en pré-conceptionnel ou en début de grossesse par les médecins généralistes auprès des femmes en âge de procréer.

L'élaboration du document d'information sera effectuée à partir des données de la littérature complété par des entretiens avec les personnes du centre ressources TSAF et des médecins

généralistes. Ce document d'information sera proposé à un échantillon représentatif de MG. Ces MG distribueront le document d'information auprès du public cible.

L'objectif est de tester l'efficacité perçue du document d'information auprès des femmes en âge de procréer.

Ce travail est réalisé dans le cadre de thèses d'exercice par Lou Pardessus sous la direction du Dr Coralie Loubaresse et moi-même.

4.3.4. Action N° 7 : distribuer aux médecins généralistes un document sur le repérage des enfants atteints de SAF ou de TSAF avec les coordonnées des associations.

La quatrième action sera de distribuer un document d'information pour les médecins généralistes sur le repérage des enfants atteints de SAF ou de TSAF. Cette plaquette a été élaborée par le COREADD Nouvelle-Aquitaine. Elle sera personnalisée avec les coordonnées des ressources régionales et locales concernant la prise en soin des patients atteints de SAF ou de TSAF.

Ce travail est réalisé dans le cadre d'une thèse d'exercice par Coline Emerit sous la direction du Dr Coralie Loubaresse et moi-même.

Les objectifs principaux étaient de définir l'acceptabilité des médecins généralistes de l'utilisation de la brochure d'information au repérage des TSAF et d'en mesurer la satisfaction. Une méthode séquentielle a été mise en place comprenant une étude observationnelle, descriptive, transversale complétée par une étude qualitative avec une approche par théorisation ancrée.

4.4. Évaluation des actions

Dans la construction de la mise en place des actions, l'évaluation de ces actions a été incluse et décrite dans la partie précédente. Les évaluations des actions de prévention et de repérage choisies parmi les 11 actions qui ont fait consensus seront menées conjointement à leur mise en place.

Ces évaluations sont complexes à mettre en place puisqu'elles s'intéressent à la prévention dont les résultats en termes d'indicateurs de santé publique sont souvent décalés par rapport à la mise en place de l'action de prévention.

Quels outils et quelles combinaisons d'outils d'évaluation sont à mettre en place pour rendre compte de l'efficacité des actions de prévention et de repérage en médecine générale. La question est vaste.

Concernant la mise en place d'une consultation pré-conceptionnelle, l'idée initiale était d'aller pas à pas en commençant par une étude de faisabilité et d'acceptabilité par une exploration qualitative par théorisation ancrée auprès des différents acteurs professionnels de santé. Dans un second temps, cette exploration pourrait être élargie aux acteurs du médico-social et de la société civile comme l'ARS et l'Assurance maladie.

Suite aux résultats de cette exploration, une étude pilote en lien avec l'assurance-maladie qui assurerait le financement de cette consultation pré-conceptionnelle pourrait être mise en œuvre afin de déterminer l'efficacité de cette consultation.

Concernant l'action numéro trois, l'intégration des troubles de développement dans le développement professionnel continu ou en formation médicale initiale pourrait être évaluée par un essai randomisé en grappe ou par un suivi de cohorte des acteurs formés.

Profiter de la prescription d'acide folique en pré-conceptionnel ou en début de grossesse pour donner un document d'information sur l'alcoolisation fœtale pourrait être évaluée par une étude décrivant les connaissances, les attitudes et les pratiques des médecins généralistes sur la distribution du document d'information d'une part, et d'autre part des couples en âge de procréer par rapport à leur consommation d'alcool en pré-conceptionnel et au cours de la grossesse pour la femme.

Il en serait de même pour l'action numéro 7 à propos de la distribution aux médecins généralistes d'un document sur le repérage des enfants atteints de SAF ou de TSAF en précisant les coordonnées des ressources. L'étude de l'activité des associations et du Centre ressources suite à la diffusion de ces plaquettes pourrait permettre le suivi de l'impact de l'usage de la plaquette par les médecins ;

des études d'évaluation, de satisfaction ou de connaissances pourraient également compléter la première évaluation d'acceptabilité et satisfaction.

4.5. Retour vers les participants et vers la communauté des soignants

Sur l'état des lieux, un premier retour est programmé dès la publication des articles par la diffusion de ceux-ci aux acteurs de la prévention et du repérage des TSAF en médecine générale et également aux acteurs de soins primaires comme les sages-femmes et les pédiatres ambulatoires.

La communication des résultats des deux premières étapes a fait l'objet de plusieurs communications en congrès nationaux et internationaux. (Cf section 11. Valorisation des travaux TSAF) permettant un retour vers les pairs.

Les résultats de la recherche de consensus par la méthode Delphi ont été transmis au panel d'experts constitué de médecins généralistes, de pédiatres, de sages-femmes, professeurs des écoles en ULIS, neuropsychologues en centre ressource, gynécologues, addictologues, puéricultrices, généticiens, parents d'enfants atteints de SAF et représentants d'associations.

5. Discussion

5.1. Discussion générale

5.1.1. Résultats principaux et comparaison avec la littérature

Les résultats de la revue de littérature s'accordaient sur le fait que les rôles du médecin généraliste dans la prévention et le repérage des TSAF étaient multiples et s'intéressaient à plusieurs populations cibles. Le médecin généraliste accomplit quatre rôles auprès des adolescents, des couples en âge de procréer et des femmes enceintes ainsi que de leur entourage : la prévention vis-à-vis de l'alcool, le repérage des comportements à risque, le diagnostic et la prise en soin d'un trouble de l'usage de l'alcool.

Le médecin généraliste accomplit un rôle aussi auprès du nouveau-né, de l'enfant, de l'adolescent, sans oublier l'adulte au travers du repérage des troubles du neurodéveloppement, l'initiation et

l'orientation vers le diagnostic pluridisciplinaire, la coordination des soins, de la prise en soin de la personne atteinte d'un trouble du neurodéveloppement ainsi que la recherche de comorbidité.

Nous vous proposons de discuter les résultats principaux au regard des cinq fonctions du MG (67) :

- Le premier recours,
- L'approche globale,
- La continuité des soins,
- La coordination des soins
- L'action de santé publique.

5.1.1.1. Le premier recours

Les médecins généralistes : « *Ce sont des médecins personnels, principalement responsables de la fourniture de soins complets et continus à toute personne cherchant des soins médicaux, indépendamment de son âge, de son sexe et de sa maladie. Ils soignent les individus dans le contexte de leur famille, de leur communauté, de leur culture et de la santé intégrée de la planète, en respectant toujours l'autonomie de leurs patients* » (67).

L'étude qualitative portant sur la compréhension des freins et motivations à la prévention des TSAF en médecine générale a révélé le rôle central du médecin généraliste dans cette problématique, mais aussi leurs difficultés.

Le repérage

Les médecins généralistes exprimaient leur scepticisme quant à l'efficacité des traitements estimant que les troubles étant irréversibles, l'intérêt de les repérer était moindre. Par contre, ils étaient confiants dans leur rôle de repérer les troubles du développement, quelle que soit l'origine.

Les imprécisions nosologiques

Les participants à l'étude soulignaient le manque de précisions terminologiques et les effets néfastes de l'absence de consensus dans les classifications (85). Le DSM-V propose : « Trouble neurocomportemental associé à l'exposition prénatale à l'alcool (ND-PAE) » (86). La CIM-10 utilise le code Q86.0 : "SAF (dysmorphie)" sans plus de précision (87).

La grande variabilité des symptômes

Les professionnels de la santé ont des difficultés à identifier les TSAF en raison de la grande variété de symptômes, du manque d'outils de diagnostic standardisés et du peu de temps disponible pour la consultation (88-91). Ce manque de clarté de la nosographie et des classifications associés à une hétérogénéité des manifestations cliniques contribuent à entraver ce qui est propre au TSAF par rapport à d'autres formes de TND. Il en est de même pour les difficultés développementales (92).

Les méthodes de repérage

Une étude comparant 5 méthodes de diagnostic a conclu qu'aucune n'était meilleure que les autres pour diagnostiquer les TSAF par rapport à d'autres troubles du neurodéveloppement, mais aussi entre FAS, ARND et ARBD (90). Il serait intéressant de créer une méthode de diagnostic standardisée pour disposer d'une référence unique.

Et les adultes...

Les médecins généralistes de cette étude ont rarement mentionné les adultes atteints de TSAF et ont plus souvent parlé de l'identification dans la population pédiatrique, ce qui suggère que la prévalence des TSAF diagnostiquée est sous-estimée (93, 94).

Les TSAF augmentent le risque d'incapacités secondaires tels que des problèmes de santé mentale, difficultés dans la scolarité, le chômage, des démêlés avec la justice, des comportements sexuels inappropriés, des addictions, etc. Même si la prise en soin est moins efficace car retardée, un diagnostic de TSAF posé à l'âge adulte permettrait d'obtenir des aides (humaines, financières, juridiques, etc.), d'améliorer la qualité de vie et, par conséquent, le pronostic (95). Il serait important de sensibiliser les médecins généralistes à l'importance du dépistage des TSAF, y compris à l'âge adulte.

Le rôle du MG dans le repérage et l'orientation des TND

Les médecins généralistes ont convenu que leur rôle était plus important dans l'identification et l'orientation des enfants atteints des TND en général que dans le TSAF lui-même. En fait, ils ont objecté que les TSAF étaient difficiles à diagnostiquer en pratique pour diverses raisons déjà évoquées : contraintes de temps, connaissances ou nécessité d'une équipe pluridisciplinaire. De rares médecins généralistes se sentent en confiance pour reconnaître et orienter les enfants atteints de TSAF (96). Les 20 examens obligatoires de l'enfant intégralement remboursés par l'assurance maladie et l'utilisation du carnet de santé pourraient être une aide à l'identification du retard d'acquisition.

La prévention

La prévention s'exerçait tant auprès d'un public féminin que masculin, notamment en ciblant ceux en âge de procréer ainsi que les femmes enceintes au cours du premier trimestre. Cela est d'autant plus important que la plupart des grossesses sont découvertes après six semaines d'aménorrhée (97). Un point d'attention est également nécessaire chez les femmes ayant déjà eu un enfant atteint d'un TSAF (98-100).

L'entretien motivationnel sur la consommation de l'alcool et la contraception aux femmes en âge de procréer et le repérage précoce et l'intervention brève (RPIB) sont des outils pertinents pour aborder les comportements à risque et les usages de la consommation de substances psychoactives (101). Ils ont fait leur preuve de leur efficacité dans la prévention des TSAF.

La prévention en pré-conceptionnel reste un enjeu majeur (102). Une étude australienne a révélé que les professionnels de la santé ne prévenaient pas systématiquement des dangers de la consommation d'alcool pendant la grossesse parce qu'ils pensaient que les femmes enceintes connaissaient les effets nocifs de l'alcool sur le fœtus et qu'elles avaient arrêté de boire en conséquence (89). Ceci est cohérent avec nos résultats.

Le temps consacré à la prévention dans les consultations des médecins généralistes français reste faible par rapport au temps consacré aux soins curatifs. Les résultats de l'étude Pelletier-Fleury N et Al suggèrent que 50 % des médecins généralistes rapportent peu ou pas d'activité de prévention

primaire dans près de 75 % de leurs consultations quotidiennes (2). Le temps moyen de consultation d'un médecin généraliste français est de 17 minutes (103). Cette durée n'est pas optimale pour l'identification des TSAF chez les nourrissons, les enfants et les adolescents. Ce manque de temps à consacrer à la prévention a été souligné par les médecins interviewés pour l'état des lieux.

5.1.1.2. L'approche globale

Le médecin généraliste « s'intéresse aux personnes et à leurs problèmes dans le contexte de leur vie, et non à une pathologie impersonnelle ou à des "cas". Le point de départ du processus est le patient. Il est tout aussi important de comprendre comment le patient fait face à sa maladie et comment il la perçoit que de s'attaquer au processus pathologique lui-même. Le dénominateur commun est la personne avec ses croyances, ses peurs, ses attentes et ses besoins. » (67).

Par sa vision globale et son approche centrée patient, le médecin généraliste peut construire et renforcer une relation médecin-patient pour améliorer l'alliance thérapeutique, à commencer par la confiance nécessaire pour explorer sans jugement la consommation d'alcool (98).

Il n'en reste pas moins que le médecin généraliste éprouvait des difficultés à explorer et à gérer la consommation d'alcool, en particulier chez les femmes (104). La consommation des femmes reste régulièrement stigmatisée (84). Il s'agit d'un cercle vicieux : moins les médecins sont formés et sensibilisés à l'abord de la consommation d'alcool et au repérage des TSAF, moins ils sont susceptibles de repérer les comportements à risque et d'identifier précocement un enfant atteint de TSAF. Moins ils repèrent les comportements à risques et moins ils identifient les enfants atteints de TSAF, moins ils ressentent l'importance d'une prévention systématique en ambulatoire.

L'étude sur le repérage a confirmé également le tabou du médecin généraliste à explorer la consommation d'alcool en particulier celle des femmes. Les étudiants du DES de médecine générale en fin de cursus font part de la même difficulté (105).

La formation en contexte de soins et l'utilisation de la simulation permettraient de renforcer la formation au sujet de la prise en soin des TSAF (106). Cette formation pourrait s'appuyer sur les

supports construits par le Centre de contrôle de prévention du CDC aux États-Unis (<https://www.cdc.gov/ncbddd/fasd/index.html>) après adaptation culturelle au contexte réunionnais. Le centre de simulation chargé de la formation des étudiants, en développement à La Réunion, est un outil utile dans ce contexte.

5.1.1.3. La continuité des soins

« Le médecin généraliste est responsable de la continuité des soins dans le temps en fonction des besoins du patient. L'approche de la médecine générale doit être constante de la naissance (et parfois avant) à la mort (et parfois après). Elle assure la continuité des soins en suivant les patients tout au long de leur vie. Le dossier médical est la preuve explicite de cette constance. Il est la mémoire objective des consultations, mais n'est qu'une partie de l'histoire commune médecin-patient. Les médecins de famille prodiguent des soins sur des périodes importantes de la vie de leurs patients, à travers de nombreux épisodes de maladie. Ils sont également chargés de veiller à ce que les soins de santé soient dispensés 24 heures sur 24, en coordonnant ces soins lorsqu'ils ne sont pas en mesure de les dispenser personnellement. » (67).

Le repérage de la consommation à risque d'alcool n'est qu'une étape dans la prise en soin du couple en âge de procréer. Il concerne autant la mère que le père. Il constitue un des éléments de la prise en soin par le médecin généraliste dans une vision globale du couple et de la grossesse. Le repérage précoce a pour effet de minimiser les conséquences pour l'enfant (107-110).

Quatre outils sont disponibles pour mesurer la consommation d'alcool à risque : L'AUDIT, le CRAFFT, le T-ACE et le TWEAK.

Durant son entretien, le médecin généraliste, recueille les informations relatives à l'histoire personnelle et familiale de la femme et du père de l'enfant et leur mode de vie. Ces éléments de contextualisation permettent de faciliter l'abord de la consommation d'alcool par l'usage des tests. Il est nécessaire d'adapter ces outils aux pratiques des médecins généralistes (27,108). Chaque médecin généraliste, doit s'approprier, le ou les tests qu'ils utilisent par des formations spécifiques. L'éducation thérapeutique du patient est indispensable pour prévenir par exemple « le binge drinking » chez les jeunes (97), ce mode de consommation étant le plus fréquent chez les femmes

jeunes. La sensibilisation des familles est nécessaire sur la consommation des adolescents, (98) et la prise en soin du patient atteint de TSAF (107).

A La Réunion, il n'existe pas de centre de référence du trouble des apprentissages et du langage. L'orientation se fait principalement par les CMPEA. Bien que les pédopsychiatres, les pédiatres et les généticiens fassent les diagnostics de TSAF, le diagnostic pluridisciplinaire s'effectue en CMPP ainsi qu'au Centre Diagnostic ETCAF du CHU de La Réunion (sites Nord et Sud). Ces centres viennent en appui au médecin généraliste qui coordonne le parcours de la personne atteinte d'un TSAF avec ces structures.

5.1.1.4. La coordination des soins

Le médecin généraliste « *utilise efficacement les ressources des soins de santé en coordonnant les soins, en travaillant avec d'autres professionnels dans le cadre des soins primaires et en gérant l'interaction avec d'autres spécialités jouant un rôle de défenseur des intérêts du patient lorsque cela est nécessaire...* » (67).

La coordination des soins et l'approche centrée patient du médecin généraliste permettent une prise en soin globale et continue des femmes et des hommes et des personnes atteintes de TSAF. Le manque de connaissance des MG sur les professionnels de soins de santé locaux spécialisés dans l'orientation des patients diagnostiqués avec le TSAF a été signalé dans la présente étude ainsi que dans des études antérieures (27, 88). Pour La Réunion, il a fait l'objet d'une enquête en 2019 auprès des professionnels de santé et des autorités sanitaires. Les résultats ont fait émerger la préconisation de passer d'une approche verticale ciblée sur une problématique à une approche transversale où « *les dispositifs doivent être créés pour et avec le public* », en priorisant le décroisement entre les acteurs du soin, du médico-social (dont l'addictologie) et le secteur social (19).

Les médecins généralistes de La Réunion pouvaient s'adresser à la Plateforme de Coordination et d'Orientation des Troubles du Neurodéveloppement (PCO) (111) au Centre de Ressources ETCAF (112) ou à des associations spécialisées pour l'orientation de leurs patients, mais ils n'en connaissaient pas l'existence. C'est ici qu'intervient tout l'intérêt de l'action visant à mettre à disposition des MG de La Réunion une plaquette d'aide au diagnostic listant les associations et lieux spécialisés.

5.1.1.5. L'action en santé publique

Le médecin généraliste « *promeut la santé et le bien-être des patients et des écosystèmes dans lesquels ils vivent par des interventions appropriées et efficaces. Les interventions doivent être appropriées, efficaces et fondées sur des preuves solides chaque fois que possible. Une intervention qui n'est pas nécessaire peut causer des dommages et gaspiller des ressources précieuses en matière de soins de santé. Les interventions doivent prendre en compte le bien-être non seulement des individus, mais aussi des composants vivants (flore et faune) et non vivants (climat, air, eau, sol/terre, nourriture, etc.) des écosystèmes environnants.* » (67).

Une limite de l'action des médecins généralistes est que le nombre de médecins généralistes suivant les femmes enceintes diminue alors que celui des sages-femmes augmente, le gynécologue restant le premier interlocuteur. En conséquence, il serait souhaitable d'élargir les campagnes d'information et de formation auprès de tous les professionnels de santé attachés aux couples et à la femme enceinte.

La campagne « zéro alcool » a démontré son efficacité dans la prise de conscience des femmes (113) même s'il reste un discours ambivalent sur la consommation occasionnelle (114).

Il existe également une ambivalence du gouvernement face au lobby de l'alcool et à la promotion de celui-ci à La Réunion qui reste important avec une fiscalité avantageuse (115). Des mesures de santé publique sortant de la sphère médicale pourraient s'avérer indispensables.

Les médecins généralistes ont trouvé difficile d'aborder le comportement addictif des femmes et ont eu du mal à les orienter vers des services de soutien appropriés. Néanmoins, les médecins généralistes ont reconnu l'existence de questionnaires validés pour aider au diagnostic de la consommation pathologique d'alcool, qu'ils ont utilisé lors des consultations pour faciliter le processus d'évaluation, tels que AUDIT, T-ACE, TWEAK, CAGE, etc. (62, 63).

L'élaboration des actions et la recherche de consensus a permis d'établir un consensus sur 11 actions. La mise en place de quatre actions est programmée.

La consultation pré-conceptionnelle est non obligatoire depuis 2007, date de la suppression de la consultation prénuptiale. Les recommandations de la HAS en 2009 incitent fortement les professionnels de santé à proposer cette consultation pré-conceptionnelle (115). Seules 15 % des femmes en auraient bénéficié. Il s'agissait principalement de femmes primipares et issues d'un niveau socio-économique élevé (102).

La deuxième action était l'identification systématique des facteurs d'environnement au cours du suivi de l'enfant démontrés comme utiles et importants (3,116).

La troisième action était la diffusion d'une documentation d'information sur l'effet de l'exposition à l'alcoolisation fœtale, lors de la prescription d'acide folique. En Nouvelle Aquitaine, une étude de faisabilité a été réalisée (117). L'acceptabilité était de 100 % chez les 37 % des femmes ayant reçu le document. Seules 34 % des femmes ont dit avoir discuté d'alcool avec le professionnel de santé suite à cette distribution.

La quatrième action choisie était la diffusion aux médecins généralistes d'un document sur le repérage des enfants atteints de SAF ou de TSAF en précisant les coordonnées des ressources. Ce choix se basait sur nos propres résultats mais est cohérent avec des études françaises antérieures. En 2021, une enquête menée par l'association SAF France a interrogé 302 médecins généralistes français, seuls 24 % d'entre eux déclaraient avoir des connaissances précises sur les TSAF et 33 % déclaraient ne pas parvenir systématiquement à explorer la consommation d'alcool pendant la grossesse.

5.1.2. La recherche action : rôle de modèle et modèle de rôle ?

Cette recherche action a été élaborée et développée avec l'aide de la directrice de thèse, la Professeure Catherine Marimoutou et le co-directeur Michel Spodenkiewicz en 2020. Le travail a commencé par une revue de littérature, complétée en 2021 par deux études exploratoires sur la prévention et le repérage des TSAF en médecine générale. Le travail s'est poursuivi en 2023 par l'élaboration des actions de prévention et de repérage des TSAF en médecine générale en utilisant

une approche par consensus par méthode Delphi. Cette recherche action continue actuellement par la mise en place de 4 des 11 actions qui ont fait consensus et des éléments qui permettront leur évaluation. Elles feront l'objet d'études en 2024 et 2025.

Par ses fonctions et ses compétences, le médecin généraliste en accord avec les 10 principes de la médecine générale et le référentiel métier compétences, aborde la problématique de la prévention et du repérage des TSAF avec une vision globale holistique. Cette vision englobe la sensibilisation et la prévention de l'usage de l'alcool chez les couples en âge de procréer. Le médecin généraliste agit pour repérer ces troubles de l'usage de l'alcool, pour en faire le diagnostic et de les prendre en soin de façon coordonnée avec les autres acteurs de la prise en soin des troubles de l'usage de l'alcool.

Le médecin généraliste fait de même auprès des nourrissons, des enfants, des adolescents et même des adultes concernant le repérage de dépistage et sa participation au diagnostic multidisciplinaire des TSAF et de leur prise en soin aux différents âges de la vie de la personne atteinte. Il a également en soin le repérage, le diagnostic et la prise en soin des comorbidités liées au TSAF, ainsi que la prévention et le repérage des conséquences directes et indirectes auprès de la fratrie et de l'entourage des familles dont un membre est atteint de TSAF. En tenant compte de l'environnement, le médecin généraliste peut agir par des actions auprès des centres communaux d'actions sociales ou d'autres acteurs.

La modélisation en figure 10 permet d'illustrer les rôles et les fonctions du médecin généraliste autour des personnes à risque de transmettre ou atteinte de TSAF.

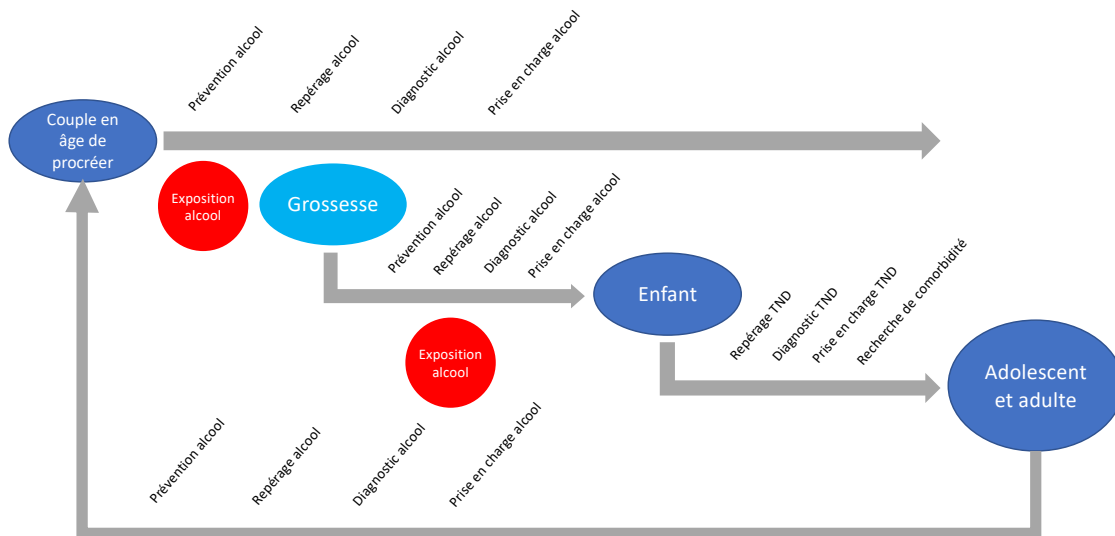


Figure 11 : Modélisation des rôles et fonctions du médecin généraliste et TSAF

La recherche action comme modèle d'intervention adapté à la MG

La recherche action est un processus dynamique et continu qui permet de progresser régulièrement dans l'exploration et la compréhension de ce phénomène complexe que sont la prévention et le repérage des TSAF en médecine générale aboutissant à la mise en place d'actions capables de modifier la prise en soin des personnes. Cette présente recherche a permis par ses premiers résultats d'avoir les éléments qui permettront de décrire les différentes trajectoires de vie des personnes à risque ou atteintes de TSAF et de définir ou d'enrichir des parcours de santé adoptant une prise en soin globale autour de cette problématique, que sont les TSAF.

La modélisation de la recherche action en figure 11 permet de comprendre les processus inhérents à cette recherche action.

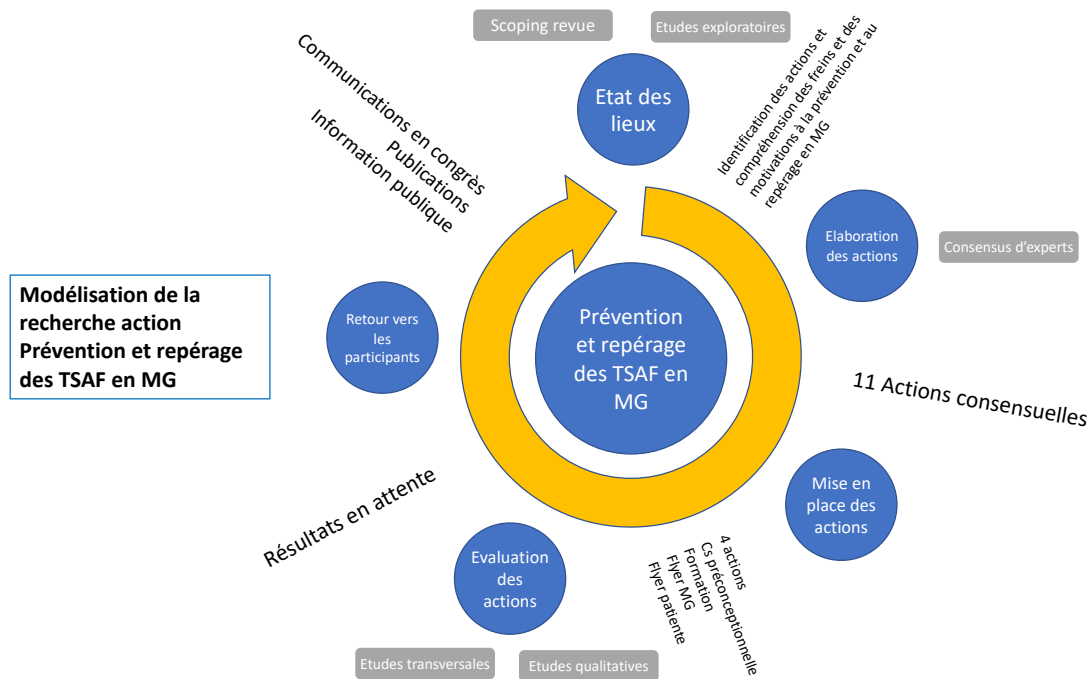


Figure 12 : Modélisation de la recherche action Trouble du spectre de l'alcoolisation fœtale (TSAF)

Cette recherche action paraît être un modèle d'intervention de santé publique visant l'analyse de la compréhension de l'action des médecins généralistes à favoriser la prévention et repérage des troubles du neurodéveloppement (TND) en médecine générale. La prévention et le repérage des TSAF en médecine générale apparaissent comme un modèle pour la prévention des TND à mettre en œuvre en médecine générale, au même titre que la prévention et le repérage des troubles du spectre de l'autisme (TSA), du déficit de l'attention avec ou sans hyperactivité (TDAH), de la déficience intellectuelle ou des troubles des apprentissages.

Cette proposition de recherche action comme un modèle de recherche en soins primaires est soutenue par la méthode de recherche elle-même qui est ancrée dans le terrain, et par le fait d'emmener l'ensemble des acteurs à commencer par les patients.

Ce modèle pourrait s'appliquer plus largement aux soins primaires et à d'autres problématiques comme celles étudiés par le Dr Elodie Million sur les facteurs de risque ou éléments à repérer ainsi

que les outils de repérage pertinents chez les adolescents lors d'une consultation en soins primaires en adoptant une recherche action comprenant une synthèse des revues de la littérature et une recherche de consensus par méthode Delphi (Présentation des premiers résultats au congrès du CNGE le Lille en 2022). Le Dr Léa Charton à Strasbourg mène actuellement un projet de recherche action qui explore les déterminants sociaux et territoriaux de l'obésité, le rapport au poids des patients adultes vivant en milieu précaire, dans le quartier prioritaire de la ville, à travers des observations de consultation de médecine générale, en quartier prioritaire de la ville, mais aussi d'entretien et de focus groupes.

La revue narrative a produit des résultats sous forme de liste d'actions actuellement réalisées et appliquées en soins primaires ayant fait l'objet d'une évaluation scientifique.

Ces évaluations scientifiques d'action ont permis de faire l'inventaire des actions actuellement appliquées en soins primaires. Cela donne des éléments d'état des lieux sur le comment sont réalisés la prévention et le repérage en médecine générale, mais ne permet pas de comprendre les processus mis en œuvre par les médecins généralistes pour appliquer ces actions sur le terrain. Les études exploratoires adoptant une approche par théorisation ancrée ont permis de compléter cet état des lieux. Les résultats de ces deux études ont identifié les éléments de compréhension des freins et les motivations des médecins généralistes dans leur approche préventive et de repérage des TSAF.

Cet état des lieux et ces éléments de compréhension ont permis de passer à la deuxième étape de la recherche action, celle de l'élaboration des actions. En premier lieu à partir des résultats de la revue littérature identifiant les actions scientifiquement démontrées puis complétées par la suite avec des entretiens d'experts du TSAF pour identifier les actions mises en œuvre, mais n'ayant pas fait l'objet d'évaluation scientifique.

Fort de ces résultats, 26 actions ont été élaborées, puis soumises à un panel d'experts en vue d'obtenir un consensus par méthode Delphi. Après deux tours de ronde Delphi, onze actions ont fait consensus. Parmi ces onze actions, quatre ont pu être immédiatement mises en œuvre, car ne

nécessitant pas ou peu de financement. Les sept autres actions feront l'objet d'études ultérieures et de financement sur appel à projet en vue de leur mise en place dans les prochaines années.

Ce modèle est à combiner avec d'autres études comme un essai clinique randomisé en grappe, centré sur la formation des médecins ou des professionnels de santé à la prévention et repérage des TSAF. Dans une perspective plus lointaine, une deuxième boucle pourrait être envisagée autour des déterminants aux troubles de l'usage de l'alcool et de leur prise en soin en médecine générale.

5.1.3. Difficultés diagnostiques et nosologiques

La définition des TSAF évolue au fil des années et des avancées apportées par les travaux scientifiques (90). Nous pouvons faire le constat de l'évolution constante des connaissances et des guides pour le diagnostic. Cette évolution et ce caractère non figé induisent des difficultés pour les professionnels de santé de première ligne notamment les médecins généralistes pour effectuer le repérage des TSAF en population générale.

Au-delà de la faible prévalence des TSAF, les difficultés sont de plusieurs ordres. L'absence de signe pathognomonique, le caractère fluctuant des signes cliniques en fonction de l'âge, les signes portant essentiellement sur les troubles du comportement à l'âge adulte sans caractère spécifique, mettent en difficulté les médecins généralistes pour le repérage des troubles neuro développementaux ou des troubles du comportement.

5.1.4. La prévention

La médecine générale a considérablement évolué au fil des dernières décennies, en entamant un changement marquant vers une approche préventive plutôt que curative. Cette transformation reflète une évolution sociale, où la prévention est de plus en plus reconnue comme une composante essentielle de la pratique médicale. Il est important de souligner que les approches préventives et curatives ne s'excluent pas mutuellement, mais plutôt se complètent. Ce point de vue est partagé par les médecins généralistes eux-mêmes (118).

Toutefois, il est nécessaire d'adapter la formation des médecins généralistes pour qu'elle intègre pleinement la valeur de la prévention sélective, comme cela a commencé à être fait dans les

maladies cardio-vasculaires (119). L'objectif n'est pas de spécialiser excessivement les médecins généralistes, ni du point de vue du diagnostic ni de la santé publique, mais plutôt de les sensibiliser à la réalité démographique et aux besoins de santé spécifiques des populations qu'ils servent. Cela permettrait une meilleure intégration de la prévention sélective dans leur pratique, ciblant les patients les plus vulnérables, que ce soit pour les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale ou d'autres troubles neurodéveloppementaux (120). En reconnaissant et en valorisant l'importance de la prévention sélective, les jeunes générations de médecins généralistes pourraient ainsi contribuer de manière significative à améliorer la santé et le bien-être de leurs patients. (121, 122).

5.1.5. Le repérage

Nous restons dans l'utopie de pouvoir faire à la fois de la prévention, du repérage et du soin, en population générale et de la prévention ciblée sur des populations à risque.

Développer chez le médecin généraliste, un souci d'inquiétude pour une certaine population, consisterait à proposer des rendez-vous à certaines personnes ou certaines familles, pour suivre la trajectoire des enfants, des adolescents, des adultes ou des couples en âge de procréer, qui seraient susceptibles d'avoir été plus facilement exposés à la consommation d'alcool, durant la grossesse ou pour les grossesses futures.

Mettre en place des stratégies ciblées sur les personnes qui ont des déterminants à être vulnérables, nécessite d'identifier les acteurs de la sensibilisation, de la prévention, du repérage, de la démarche diagnostique et de la prise en soin. Il faudrait pour cela prendre en compte les déterminants sociaux, psychologiques et médicaux à l'exposition à l'alcool.

L'analogie pourrait être faite avec la clinique de l'inquiétude développée autour de la prise en soin du suicide avec le programme vigilanS (123,124). L'idée serait de développer et de proposer à ces personnes vulnérables des rendez-vous dédiés à la prévention et au repérage, selon une temporalité acceptable par tous.

Une perspective serait de tester une ou plusieurs stratégies ciblées mobilisant un ou plusieurs acteurs de professions différentes pour évaluer la ou les stratégies les plus efficaces et de penser les choses autrement.

Les actions identifiées par cette recherche action et notamment par la méthode de consensus, pourraient être mise en place, et évaluées pour déterminer quelles sont les actions les plus efficaces pour infléchir les trajectoires des personnes et diminuer la prévalence des TSAF.

Suite à la discussion fructueuse entre l'ARS, la médecine générale et les acteurs de la recherche, cette recherche action a été mise en place. D'autres recherches actions pourront être élaborées et mises en place sur d'autres problématiques réputées prioritaires, en prenant en compte que si tout est prioritaire, rien n'est plus prioritaire, surtout si les moyens manquent. Des arbitrages seront nécessaires.

5.2. Forces

Ancrée dans le terrain avec et autour des acteurs, cette recherche action centrée sur le médecin spécialiste en médecine générale était centrée sur la prévention et le repérage des TSAF en population générale et de leur parcours de santé du dépistage/diagnostic à la prise en soin multidisciplinaire.

La première force de l'étude était le choix de la recherche action. La recherche action est une méthode de recherche ancrée dans le terrain, flexible et adaptative en fonction de la réalité, du sujet d'étude et de la population cible. La recherche action a apporté des propositions de solutions opérationnelles pouvant pour certaines être rapidement mises en œuvre au sein même de la recherche pour ensuite les évaluer. Seules 4 des 11 actions sont actuellement mises en œuvre et font l'objet d'études. Il est encore trop tôt ici pour avoir les résultats des évaluations de ces actions, ce qui sera fait et poursuivi dans les prochains mois. Cependant, il est possible de formuler l'hypothèse que les actions mises en place auront un effet bénéfique sur le changement des pratiques des médecins généralistes quant à la prévention et le repérage des troubles des TSAF.

La deuxième force est le choix de la recherche qualitative. Il faut plusieurs méthodes de recherche et plusieurs techniques de recueils de données pour explorer et étudier toute la complexité en soins primaires. La recherche qualitative est pertinente lorsque les facteurs observés sont difficiles à mesurer, à quantifier ou à mettre en évidence. Cette recherche qualitative est complémentaire des recherches médicales habituelles quantitatives que sont les études épidémiologiques, transversales, de cohortes ou les essais randomisés.

Depuis quelques années, cette approche est utilisée dans la recherche en médecine générale ; son développement est lentement progressif. Cette recherche qualitative regroupe diverses perspectives tant sur les bases théoriques inductives générales, théorisation ancrée ou phénoménologique que dans les techniques de recueil de données par entretien, par observation, par observation participantes ou par immersion.

La combinaison des méthodes qualitatives et quantitatives est régulièrement utilisée en recherche en soins primaires. Quelles que soient les méthodes ou les combinaisons de méthode utilisées, la démarche est rigoureuse, réalisée pas à pas, avec des critères fiables de validité internes et externes qui garantissent la pertinence des résultats.

Le choix de la méthode Delphi comme méthode de consensus a été fait en raison des caractéristiques de la méthode et notamment le caractère anonyme des votes des experts participants. DELBECQ *et al* ont démontré, lors d'une étude psychométrique, que la méthode Delphi et la méthode du groupe nominal étaient supérieures sur le groupe non structuré (125). L'efficacité du groupe nominal était supérieure sur la méthode Delphi sur la génération des idées émises et sur la satisfaction des participants dans le cycle de prise de décision en groupe. L'efficacité des méthodes Delphi et du groupe nominal a été suggérée dans les résultats d'autres études (126-128). Ce qui a favorisé notre choix.

Une autre force de l'étude est l'effet Hawthorne qu'elle a généré (129). En effet, le fait d'interviewer des médecins généralistes pour comprendre les freins et motivations à la prévention repérage des TSAF, la mobilisation des professionnels de santé et de la petite enfance pour l'élaboration des actions et leur consensus, l'accompagnement par les étudiants de cette recherche, l'intégration des acteurs, professionnels de santé, médico sociaux et sociaux ont été amenés dans ce processus à échanger entre eux, à apprendre à se connaître et à décloisonner leur approche et leur prise en soin.

Le médecin généraliste par sa fonction de coordination et par sa vision globale garde une place centrale centrée sur la personne et son environnement.

Les communications au congrès de médecine générale ont également participé à la diffusion des différents messages clés de cette recherche auprès d'un public de médecins généralistes et d'étudiants.

5.3. Limites

La limite principale de l'étude était la méthode de la recherche action elle-même. Par définition ancrée dans un territoire et sur une problématique, cette méthode est difficilement reproductible ou transposable dans un autre territoire. Des biais de sélection, des biais de désirabilité sociale ont été possibles. Ils ont été limités par le choix des méthodes d'état des lieux et le choix de la méthode de consensus pour l'élaboration des actions.

Les historiques culturels et les particularités du territoire réunionnais n'ont pas été explorés. Les points de vue anthropologiques et sociologiques du rapport des réunionnais à l'alcool n'ont pas été choisis dans ce travail. Les particularités culturelles propres au territoire réunionnais sont à prendre en compte et notamment les représentations des réunionnais vis-à-vis de l'alcool. C'est un parti pris de recherche de ne pas explorer ce prisme très important, ceci dans un souci de priorisation de notre recherche.

Le nombre réduit d'articles sélectionnés, leur hétérogénéité et leur niveau de preuve parfois insuffisant constituait une limite à la revue narrative de la littérature. L'accès à la littérature grise est difficile, ce qui limitait l'exhaustivité nécessaire à cette revue de littérature.

Pour les études exploratoires, un tiers des médecins généralistes contactés n'ont pas exprimé leur souhait de participer à l'étude. La construction de l'échantillonnage induit un potentiel biais de volontariat s'intéressant préférentiellement aux médecins généralistes motivés par l'identification de la consommation d'alcool chez les femmes enceintes ou des personnes atteintes de TSAF. Les deux enquêteurs n'avaient aucune expérience préalable de la conduite d'une étude qualitative et de l'animation d'entretiens. Ce biais interne du chercheur et le biais de l'enquêteur a été contrôlé par la formation des deux enquêteurs par les investigateurs principaux. La formation des médecins généralistes sur le TSAF et leur expérience en matière de repérage des TSAF n'ont pas été recueillies.

Pour la méthode de consensus, un biais de recrutement était possible dans la constitution du panel d'experts. D'autres acteurs intervenant autour des TSAF auraient pu être sollicités comme les usagers et les personnes impliquées dans la protection judiciaire de la jeunesse (PJJ). Plusieurs rapports soulignaient l'importance du repérage des TSAF dans le cadre des procédures judiciaires. En 2018, une convention a été signée entre la protection judiciaire de la jeunesse et le centre de ressources de La Réunion pour former ses professionnels à l'ETCAF. Cela constituait potentiellement un biais de reproductibilité (130).

Enfin, il est difficile de conclure dans quelle mesure les résultats sont spécifiques aux TSAF au regard de l'absence d'un groupe contrôle. La même question mériterait d'être posée sur d'autres TND comme le TDAH dont le risque est largement augmenté par la consommation prénatale de tabac (indépendamment de la consommation d'alcool) (131, 132).

5.4. Perspectives et conclusion

Par sa vision globale et systémique, cette recherche action portant sur la prévention et le repérage des TSAF en médecine générale est un modèle de compréhension de la problématique des TSAF et au-delà, elle a un rôle de modèle des différentes problématiques de prévention et de repérage en médecine générale.

Cette recherche action pourra se poursuivre par l'évaluation des quatre actions mises en place, suivie ensuite ou en parallèle, par la mise en place des sept autres actions (ci-dessous) qui ont fait consensus.

1. Établir des équipes multidisciplinaires comprenant des professionnels de la santé, de la psychologie et des services sociaux, dédiées à l'accompagnement des femmes enceintes consommant de l'alcool.
2. Repérer systématiquement les facteurs environnementaux durant le suivi de l'enfant.
3. Créer un accès prioritaire pour les médecins généralistes vers des structures adaptées aux femmes enceintes avec addiction à l'alcool
4. Concevoir des formations sur le TSAF dans le cadre du Développement professionnel continu (DPC) des médecins généralistes
5. Utiliser le carnet de santé de l'enfant comme outil d'aide au dépistage précoce des troubles du neuro-développement dont les TSAF.
6. Rechercher la consommation de toxiques à multiples reprises au cours du suivi de grossesse et pas uniquement au cours de la consultation
7. Transmettre le compte-rendu de l'entretien du 4^{ème} mois avec l'accord de la patiente (courrier ou courriel par messagerie sécurisée)

Dans une autre perspective, la mise en place d'une nouvelle recherche action pourra être mise en place en amont sur les déterminants de la fragilité vis-à-vis de la consommation d'alcool, et en aval sur les actions à mettre en œuvre sur la prise en soin des personnes atteintes de TSAF.

Une recherche action non plus uniquement en médecine générale mais en incluant l'ensemble des professionnels de santé gravitant autour de la problématique des TSAF pourrait venir en complément.

Une autre piste serait une recherche mobilisant les autorités sanitaires et les pouvoirs publics pour lutter contre les facteurs de risques des TSAF que sont la précarité, la faible littératie en santé, les représentations et la promotion de la consommation d'alcool à La Réunion ; sans parler de la fiscalité favorable maintenant le faible coût local des alcools.

Ces recherches actions seraient complémentaires avec un essai randomisé en grappes auprès d'un groupe de praticiens de soins primaires formés au dépistage de la consommation d'alcool pendant la grossesse. Ce serait utile pour mesurer l'impact de la formation sur la consommation d'alcool des femmes en âge de procréer et sur l'état clinique de leurs enfants, mais nécessiterait un suivi de long terme.

Ces perspectives questionnent sur la place de la médecine préventive par rapport à la médecine curative au sein des soins primaires. Cela constitue une question centrale sur l'évolution des soins primaires et la mobilisation des ressources publiques pour garantir les moyens nécessaires à une prévention efficace.

La nouvelle organisation des soins primaires avec l'émergence et le développement des maisons de santé pluriprofessionnelles (MSP) au sein des micros territoires, et maintenant le développement des communautés professionnelles territoriales de santé (CPTS) au sein de macro territoires sont probablement une réponse organisationnelle et de moyen pour développer la prévention qu'elle soit primaire, secondaire, tertiaire et même quaternaire.

Ces structurations, MSP et CPTS, par leur pluri-professionnalisme permettraient d'expérimenter de nouveaux modes de prévention et de repérage ainsi que de prise en soin autour des problématiques des troubles du neurodéveloppement.

Ce type de recherche action ancré dans le terrain est à même de stimuler l'intelligence collective au service de l'amélioration des soins au bénéfice des usagers.

En conclusion, quels sont les enseignements de cette recherche ?

Même si cette recherche action n'est pas encore terminée, certains enseignements peuvent être suggérés.

Cette recherche a permis d'identifier des actions faciles à implémenter et adaptées au contexte et enjeux locaux. Certaines de ces actions sont déjà en place et en cours d'évaluation. La méthode qualitative choisie a permis aux médecins de s'exprimer librement et de les inclure non seulement comme sujets d'étude mais aussi comme experts au sein de la ronde Delphi. Cette recherche faite par et pour les médecins généralistes est une garantie de la faisabilité des interventions.

La codirection des travaux par un médecin pédopsychiatre, le Dr Spodenkiewicz spécialisé dans le repérage des TSAF mais aussi dans la recherche qualitative qui s'est beaucoup investi dans le suivi du travail de thèse a été essentiel, ainsi que l'appui sur une spécialiste de Santé publique la Pre Catherine Marimoutou.

Cette recherche action reste un modèle pour d'autres thématique que le TSAF. L'intérêt de la collaboration inter spécialité dans les domaines considérés est à développer.

6. Références bibliographiques

1. Gérvas J, Starfield B, Heath I. Is clinical prevention better than cure? *Lancet*. 2008 Dec 6;372(9654):1997-9. doi: 10.1016/S0140-6736(08)61843-7. PMID: 19059049.
2. Pelletier-Fleury N, Le Vaillant M, Szidon P, Marie P, Raineri F, Sicotte C. Preventive service delivery: a new insight into French general practice. *Health Policy*. 2007;83:268–76.
3. Varescon I, Gaugue-Finot J, Wendland J. Le syndrome d'alcoolisation foetale : état de la question. *Psychotropes*. 2006;Vol. 12(1):11324).
4. Tout Molière - Amphitryon - Acte 2. Disponible sur: <http://www.toutmoliere.net/acte-2,405350.html>).
5. Sullivan W. A note on the influence of maternal inebriety on the offspring. *Journal Mental Science* 1899 ;45 :489-503.
6. Nicloux, Maurice. 1900. "Dosage comparatif de l'alcool dans le sang et dans le lait après ingestion dans l'estomac." *Bulletin du Muséum d'histoire naturelle* 6(3), 125–127.
7. Schnegg Céline. Eprouver le risque « alcool et grossesse » entre recherche, clinique et santé publique - ArODES Disponible sur: <https://hesso.tind.io/record/3527?ln=fr>).
8. Lemoine P, Harouseau H, Borteyru JP, Menuet JJ. Les enfants de parents alcooliques. Anomalies observées. A propos de 127 cas. 1968. 476482 p.
9. Jones Kenneth L, Smith David W. Recognition of fetal alcohol syndrome in early infancy. *The Lancet*. 1973;302(7836):9991001.
10. Chernoff G. The fetal alcohol syndrome in mice: An Animal Model. *Birt Defects Res A Clin Mol Teratol*. 2010 Oct;88(10):811–7.
11. Jones Kenneth L, Smith David W. Recognition of fetal alcohol syndrome in early infancy. *The Lancet*. 1973;302(7836):9991001.
12. Nordmann R. Consommation d'alcool, de tabac ou de cannabis au cours de la grossesse. In: *Bulletin de l'Académie Nationale de Médecine*. 2004. p. 519–21. (3; vol. 188).
13. https://www.lemonde.fr/vous/article/2006/05/09/l-alcoolisme-du-foetus_769710_3238.html
14. Commission d'experts. Les 1000 premiers jours. In Ministère des Solidarités et de la Santé; 2020. p. 35.).

15. Lesure JF. Syndrome d'alcoolisme foetal à l'île de La Réunion. *Nouv Presse Med.* 1980;9:1708–10.
16. Turri JP. A propos de 31 observations d'embryofoetopathie alcoolique à l'île de La Réunion. [Thèse pour le doctorat de médecine]. Faculté de médecine Pitié - Salpêtrière, Paris; 1983.
17. Gourlin de Parseval A. Syndrome d'alcoolisme foetal à l'île de La Réunion : A propos de 25 observations. [Thèse pour le doctorat de médecine]. Faculté de Rouen; 1983.
18. Maillard T. L'alcoolisation foetale à La Réunion : enquête transversale, à la maternité de Saint-Pierre, pendant l'année 1996 [Thèse pour le doctorat de médecine]. Faculté de médecine de Rouen; 1998.
19. Valentin Chaix, Michel Spodenkiewicz (2019) Le SAF à La Réunion : représentation, besoin et attentes des professionnels, Mémoire de M2 de Santé Publique.
20. Hoyme HE, Kalberg WO, Elliott AJ, Blankenship J, Buckley D, Marais AS, et al. Updated Clinical Guidelines for Diagnosing Fetal Alcohol Spectrum Disorders. *Pediatrics.* 2016;138.
21. Brown, J. M., Bland, R., Jonsson, E., & Greenshaw, A. J. (2019). The standardization of diagnostic criteria for fetal alcohol Spectrum disorder (FASD): implications for research, clinical practice and population health. *The Canadian Journal of Psychiatry*, 64(3), 169-176.
22. INSERM Collective Expertise Centre. Alcohol: Health effects. In: INSERM Collective Expert Reports [Internet]. Paris: Institut national de la santé et de la recherche médicale; 2000. <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK7116/>. Accessed 21 Aug 2021.
23. George MA, Hardy C. Addressing FASD in British Columbia, Canada: analysis of funding proposals. *J Popul Ther Clin Pharmacol J Ther Popul Pharmacol Clin.* 2014;21(3):e338-345.
24. Consommation d'alcool, de tabac ou de cannabis au cours de la grossesse – Académie nationale de médecine | Une institution dans son temps. <https://www.academie-medecine.fr/consommation-dalcool-de-tabac-ou-de-cannabis-au-cours-de-la-grossesse/>. Accessed 21 Aug 2021.

25. World Health Organization. ICD-10: international statistical classification of diseases and related health problems: tenth revision. World Health Organization. <http://id.who.int/icd/entity/362980699> (2004). Accessed 13 May 2021.
26. Lejeune, C. (2001). Syndrome d'alcoolisation fœtale. *Devenir*, 13, 77-94. <https://doi.org/10.3917/dev.014.0077>.
27. Haute Autorité de santé. Troubles causés par l'alcoolisation fœtale: repérage https://www.has-sante.fr/jcms/c_1636956/fr/troubles-causes-par-l-alcoolisation-foetale-reperage (2013). Accessed 21 Aug 2021.
28. Germanaud D, Toutain S. Exposition prénatale à l'alcool et troubles causés par l'alcoolisation fœtale. *Contraste*. 2017;46:39.
29. Stratton, K., Howe, C., and Battaglia, F. (eds.) *Fetal Alcohol Syndrome: Diagnosis, Epidemiology, Prevention, and Treatment*. The Institute of Medicine Report. Washington, DC: National Academy Press, 1996.
30. Société canadienne de pédiatrie comité de la santé des Premières nations, des Inuits et des Métis. L'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation fœtale : Mise à jour diagnostique. *Paediatr Child Health*. 2010;15(7):457-8.
31. WHO.— *Global status report on alcohol and health 2018*. Genève, 2018, 1-472.
32. ESPAD Group.— *ESPAD Report 2015: Results from the European School Survey Project on Alcohol and Other Drugs*. Publications Office of the European Union, Luxembourg, 2016, pp 37-38.
33. OCDE. *Tackling Harmful Alcohol Use: Economics and Public Health Policy*. OECD Publishing, Paris, 2015, 1-240. DOI: <https://dx.doi.org/10.1787/9789264181069-en>
34. Popova, S., Lange, S., Probst, C., Gmel, G. & Rehm, J. Estimation of national, regional, and global prevalence of alcohol use during pregnancy and fetal alcohol syndrome: a systematic review and meta-analysis. *Lancet Glob. Health* 5, e290–e299 (2017). Presents the epidemiology of PAE and FAS.
35. Popova, S., Charness, M.E., Burd, L. *et al.* Fetal alcohol spectrum disorders. *Nat Rev Dis Primers* 9, 11 (2023). <https://doi.org/10.1038/s41572-023-00420-x>

36. Richard Jean-Baptiste, Andler Raphaël, Cogordan Chloé, Spilka Stanislas, Nguyen-Thanh Viêt. La consommation s'alcool chez les adultes en France en 2017. Disponible sur: <https://www.santepubliquefrance.fr/determinants-de-sante/alcool/documents/article/la-consommation-d-alcool-chez-les-adultes-en-france-en-2017>).
37. Source : PRS2, Diagnostic; Situation Sanitaire : Réunion et Mayotte, ARS, CIRE-OI, ORSOI, Janvier 2017, KABP Réunion.
38. Bardot M, Kwan C. La consommation d'alcool chez les adultes à La Réunion. Exploitation de l'enquête Baromètre de Santé publique France DROM en 2021. Rapport. Saint-Denis: ORS La Réunion; 2023.
39. Raphael Andler, Frank A.G. Assogba, Oriane Broustal, Jessica Gane, Thibaut Goetsch, Dominique Jeannel, Romain Guignard, Nadège Marguerite, Viet Nguyen-Thanh, Jean-Baptiste Richard, Elodie Terrien, Michel Vernay, Nicolas Vincent, Elsa Balleydier. Alcool. Santé publique France. 2020; Disponible sur: [file:///C:/Users/Client/Downloads/bsp_alcool_reunion_janvier_2020%20\(3\).pdf](file:///C:/Users/Client/Downloads/bsp_alcool_reunion_janvier_2020%20(3).pdf)).
40. <https://www.academie-medecine.fr/alcoolisation-foetale-de-nouveaux-outils-efficaces-au-service-des-meres-et-des-enfants-en-danger-2/>.
41. https://sante.gouv.fr/IMG/pdf/dossier_sns_2017_vdef.pdf
42. Laporal, S.; Demiguel, V.; Cogordan, C.; Barry, Y.; Guseva, C.; Goulet, V. Surveillance des Troubles causés par l'Alcoolisation Foetale: Analyse des Données du Programme de Médicalisation des Systèmes d'Information en France Entre 2006 et 2013. [Synthèse] Saint-Maurice: Santé Publique France, Coll. Données de Surveillance. 2018. Available online: <https://www.santepubliquefrance.fr/determinants-de-sante/alcool/documents/rapport-synthese/surveillance-des-troubles-causes-par-lalcoolisation-foetale-analyse-des-donnees-du-programme-de-medicalisation-des-systemes-d-information-en-fra> (accessed on 19 mars 2023).
43. Queruel, N.; Doray, B. Available online: <https://www.santepubliquefrance.fr/docs/a-la-reunion-former-les-professionnels-auxtroubles-de-l-alcoolisation-foetale-interview> (accessed on 19 December 2022).

44. Goullé J-P, Guerbet M. Éthanol : pharmacocinétique, métabolisme et méthodes analytiques. *Ann Pharm Fr.* 2015 Sep;73(5):313–22.
45. Claudine Berr, Françoise Clavel-Chapelon, Sylvain Dally, Jean-Luc Daval, Frédéric Fumeron, et al.. *Alcool : effets sur la santé. [Rapport de recherche] Institut national de la santé et de la recherche médicale (INSERM).* 2001, 358 p.
46. Ungerer M, Knezovich J, Ramsay M. In Utero Alcohol Exposure, Epigenetic Changes, and Their Consequences. *Alcohol Res.* 2013;35(1):37–46.
47. Avalos LA, Roberts SC, Kaskutas LA, Block G, Li DK. Volume and type of alcohol during early pregnancy and the risk of miscarriage. *Subst Use Misuse.* 2014 Sep;49(11):1437-45. doi: 10.3109/10826084.2014.912228. Epub 2014 May 8. PMID: 24810392; PMCID: PMC4183196.
48. *Inserm-alcool-effets-prenataux.pdf* Disponible sur: <https://www.safocanindien.org/wp-content/uploads/2016/01/inserm-alcool-effets-prenataux.pdf>
49. *médicale (Inserm) I national de la santé et de la recherche. Alcool : Effets sur la santé. Collection Expertise collective Inserm. Les éditions Inserm; 2001. Disponible sur: <https://www.ipubli.inserm.fr/handle/10608/168>.*
50. Spohr HL, Willms J, Steinhausen HC. Fetal alcohol spectrum disorders in young adulthood. *J Pediatr.* 2007 Feb;150(2):175-9, 179.e1. doi: 10.1016/j.jpeds.2006.11.044. PMID: 17236896.
51. Streissguth AP, Bookstein FL, Barr HM, Sampson PD, O'Malley K, Young JK. Risk Factors for Adverse Life Outcomes in Fetal Alcohol Syndrome and Fetal Alcohol Effects: *J Dev Behav Pediatr.* 2004 Aug;25(4):228–38.
52. Salmon, A., & Clarren, S. (2010). FASD Research in Primary, Secondary, and Tertiary Prevention: Building the Next Generation of Health and Social Policy Responses. *Fetal Alcohol Spectrum Disorder: Management and Policy Perspectives of FASD*, 387-398.
53. Mété D (2015). *Fédération régionale d'addictologie de La Réunion. Lutter plus efficacement contre l'abus d'alcool à La Réunion).*
54. Damien Subtil, Alain, Fourmaintraux, Philippe Dehaene. *Alcool pendant la grossesse: tératogène et neurotoxique. Disponible sur:*

- file:///C:/Users/Client/AppData/Local/Packages/microsoft.windowscommunicationsapps_8wekyb3d8bbwe/LocalState/Files/S0/3065/Attachments/MG_2004_652_611[9082].pdf.
55. Ouko LA, Shantikumar K, Knezovich J, Haycock P, Schnugh DJ, Ramsay M. Effect of alcohol consumption on CpG methylation in the differentially methylated regions of H19 and IG-DMR in male gametes: implications for fetal alcohol spectrum disorders. *Alcohol Clin Exp Res* 2009;33:1615–27. <https://doi.org/10.1111/j.1530-0277.2009.00993.x>.
56. https://www.has-sante.fr/upload/docs/application/pdf/2022-03/note_de_cadrage_fiche_points_cles_alcool.pdf.
57. Simon-Toulza, C., Ghassani, A., & Parant, O. (2015). Addictions et grossesse/Addiction and pregnancy. *Reproduction Humaine et Hormones*, 28(1), 41.
58. Sarradon-Eck, A. Vega, M. Faure, A. Humbert-Gaudart, M. Lustman, Créer des liens : les relations soignants–soignants dans les réseaux de soins informels, *Revue d'Épidémiologie et de Santé Publique*, Volume 56, Issue 4, Supplement, 2008, Pages S197-S206.
59. Reid, N., Crawford, A., Petrenko, C., Kable, J., & Olson, H. C. (2022). A family-directed approach for supporting individuals with fetal alcohol spectrum disorders. *Current developmental disorders reports*, 9(1), 9-18.
60. <https://www.cnrtl.fr/definition/rep%C3%A9rage> accéder le 23 janvier 2024.
61. <https://www.cnrtl.fr/lexicographie/d%C3%A9pistage> accéder le 23 janvier 2024.
62. Burns E, Gray R, Smith LA. Brief screening questionnaires to identify problem drinking during pregnancy: a systematic review. *Addict Abingdon Engl*. 2010;105(4):601–14.
63. Pilowsky DJ, Wu LT. Screening instruments for substance use and brief interventions targeting adolescents in primary care: A literature review. *Addict Behav*. 2013;38(5):2146–53.
64. OMS | Déclaration d'Alma-Ata sur les soins de santé primaires [Internet]. WHO. [cité le 14/09/2023]. Disponible sur: http://www.who.int/topics/primary_health_care/alma_ata_declaration/fr/.
65. (https://www.woncaeurope.org/file/41f61fb9-47d5-4721-884e-603f4afa6588/WONCA_European_Definitions_2_v7.pdf).

66. Assurer les soins primaires dans une Europe en mutation [Internet]. OMS/Europe. 2015 [cité 20 avr 2017]. Disponible sur: <http://www.euro.who.int/fr/about-us/partners/observatory/publications/studies/building-primary-care-in-a-changing-europe>.
67. The European Definition of GP / FM [Internet]. Wonca Europe. [cité 20 avr 2017]. Disponible sur: <http://www.woncaeurope.org/gp-definitions>.
68. Loi n° 2009-879 du 21 juillet 2009 portant réforme de l'hôpital et relative aux patients, à la santé et aux territoires. 2009-879 juill 21, 2009.
69. Code de la santé publique - Article L1411-11 [Internet]. Code de la santé publique janv 26, 2016. Disponible sur: https://www.legifrance.gouv.fr/affichCodeArticle.do;jsessionid=7159F0A07DACFBD978D6D77393EFD943.tpdila13v_2?idArticle=LEGIARTI000031930722&cidTexte=LEGITEXT000006072665&dateTexte=20170123.
70. Loi n° 2016-41 du 26 janvier 2016 de modernisation de notre système de santé. 2016-41 janv 26, 2016.
71. Groupe européen d'enseignants de Médecine Générale dit « De Leeuwenhorst ». The General Practitioner in Europe, a description of the work of General Practitioner, Bruxelles, 1974.
72. Rapport de Gerard de Pouvourville en 2006 (de Pouvourville G. Développer la recherche en médecine générale et en soins primaires en France : Propositions. 2006.
73. Druais P-L. La place et le rôle de la Médecine générale dans le système de santé [Internet]. 2015 mars [cité 21 nov 2023]. Disponible sur: <http://socialsante.gouv.fr/ministere/documentation-et-publicationsofficielles/rapports/sante/article/la-place-et-le-role-de-la-medecine-generale-dans-lesysteme-de-sante>.
74. Ministère des Affaires Sociales et de la Santé. Feuille de route de la Stratégie nationale de Santé [Internet]. 2013 sept. Disponible sur : <http://socialsante.gouv.fr/IMG/pdf/SNSversion-longue.pdf>.
75. Ministre des Affaires Sociales et de la Santé. INSTRUCTION N° DGOS/PF4/2016/382 du 9 décembre 2016 relative aux programmes de recherche sur les soins et l'offre de soins pour l'année 2017. [Internet]. déc 9, 2016. Disponible sur:

<http://circulaires.legifrance.gouv.fr/index.php?action=afficherCirculaire&hit=1&retourAccueil=1&r=41600>.

76. Hummers-Pradier E, Beyer M, Chevallier P, Cos X, Eilat-Tsanani S, Fink W, et al. Programme de recherche pour la médecine générale/médecine de famille et les soins primaires en Europe. *exercer, la revue francophone de Médecine Générale*. 2011;96:36-9.
77. Freeman AC, Sweeney K. Why general practitioners do not implement evidence: qualitative study. *BMJ* 2001;323:1–5.
78. Communiqué de Presse du CNGE du 26 juin 2023.
79. Les communautés professionnelles territoriales de santé [Internet]. 2023 [cité 4 mai 2023]. Disponible sur: <https://www.ars.sante.fr/les-communautes-professionnelles-territoriales-de-sante>.
80. Communauté Professionnelle Territoriale de Santé (CPTS) [Internet]. 2023 [cité 4 mai 2023]. Disponible sur: <https://www.lareunion.ars.sante.fr/communaute-professionnelle-territoriale-de-sante-cpts-2>.
81. REF Arrêté du 18 octobre 2017 fixant les modalités de fonctionnement, d'organisation et d'évaluation des centres de santé pluriprofessionnels universitaires et des maisons de santé pluriprofessionnelles universitaires NOR : SSAH1727000A ELI : <https://www.legifrance.gouv.fr/eli/arrete/2017/10/18/SSAH1727000A/jo/texte> **JORF n°0250 du 25 octobre 2017)**
82. Allard-Poesi, F., & Perret, V. (2003). *La recherche-action. Conduire un projet de recherche, une perspective qualitative*, pp-85.
83. ARS La Réunion. *Evaluation du processus du Plan d'action de prévention et de prise en charge de l'ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foetale à La Réunion - Rapport final d'évaluation*. 2020 Février.),
84. Taschini E, Urdapilleta I, Verlhiac J-F, Tavani J-L. Représentations sociales de l'alcoolisme féminin et masculin en fonction des pratiques de consommation d'alcool. *Cah Int Psychol Soc.* (2015) 107:435–61. doi: 10.3917/cips.107.0435).

85. Brown JM, Bland R, Jonsson E, Greenshaw AJ. The Standardization of Diagnostic Criteria for Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD): Implications for Research, Clinical Practice and Population Health. *Can J Psychiatry*. 2019;64(3):169–76.
86. Kable JA, O'Connor MJ, Olson HC, Paley B, Mattson SN, Anderson SM, et al. Neurobehavioral Disorder Associated with Prenatal Alcohol Exposure (ND-PAE): Proposed DSM-5 Diagnosis. *Child Psychiatry Hum Dev*. 2016;47(2):335–46.
87. ICD-10 Version: 2019. Available from: <https://icd.who.int/brows/e10/2019/en#/Q86.0>. Accessed 23 Nov 2022.
88. Peadon E, O'Leary C, Bower C, Elliott E. Impacts of alcohol use in pregnancy—the role of the GP. *Aust Fam Physician*. 2007;36(11):935–9.
89. Crawford-Williams F, Steen M, Esterman A, Fielder A, Mikocka-Walus A. “If you can have one glass of wine now and then, why are you denying that to a woman with no evidence”: Knowledge and practices of health professionals concerning alcohol consumption during pregnancy. *Women Birth*. 2015;28(4):329–35.
90. Chudley AE, Conry J, Cook JL, Looock C, Rosales T, LeBlanc N. Ensemble des troubles causés par l'alcoolisation foetale: lignes directrices canadiennes concernant le diagnostic. *CMAJ Can Med Assoc J*. 2005;172(5 Suppl):SF1-21.
91. Looock C, Conry J, Cook JL, Chudley AE, Rosales T. Identifying fetal alcohol spectrum disorder in primary care. *CMAJ Can Med Assoc J*. 2005;172(5):628–30.
92. Sheldrick, R. C., Merchant, S., & Perrin, E. C. (2011). Identification of developmental-behavioral problems in primary care: a systematic review. *Pediatrics*, 128(2), 356-363.
93. McLachlan K, McNeil A, Pei J, Brain U, Andrew G, Oberlander TF. Prevalence and characteristics of adults with fetal alcohol spectrum disorder in corrections: a Canadian case ascertainment study. *BMC Public Health*. 2019;19(1):43. <https://doi.org/10.1186/s12889-018-6292-x>.
94. Popova S, Lange S, Shield K, Burd L, Rehm J. Prevalence of fetal alcohol spectrum disorder among special subpopulations: a systematic review and meta-analysis. *Addiction*. 2019;114(7):1150–72.

95. Temple VK, Ives J, Lindsay A. Diagnosing FASD in adults: the development and operation of an adult FASD clinic in Ontario Canada. *J Popul Ther Clin Pharmacol.* 2015;22(1):e96-105.
96. Howlett H, Mackenzie S, Strehle EM, Rankin J, Gray WK. A Survey of Health Care Professionals' Knowledge and Experience of Fetal Alcohol Spectrum Disorder and Alcohol Use in Pregnancy. *Clin Med Insights Reprod Health.* 2019;13:1179558119838872.
97. Floyd RL, Ebrahim SH, Boyle CA. Observations from the CDC: Preventing Alcohol-Exposed Pregnancies among Women of Childbearing Age: The Necessity of a Preconceptional Approach. *J Womens Health Gend Based Med.* 1999;8(6):733–6.
98. Masotti P, Szala-Meneok K, Selby P, Ranford J, Van Koughnett A. Urban FASD interventions: bridging the cultural gap between Aboriginal women and primary care physicians. *J FAS Int.* 2003;1(17):1–8.
99. Zoorob R, Snell H, Kihlberg C, Senturias Y. Screening and Brief Intervention for Risky Alcohol Use. *Curr Probl Pediatr Adolesc Health Care.* 2014;44(4):82–7.
100. Clarren SK, Astley SJ. Identification of children with Fetal Alcohol Syndrome and opportunity for referral of their mothers for primary prevention--Washington, 1993-1997. *MMWR: Morbidity & Mortality Weekly Report.* 1998;47(40):861–64.
101. Rasmussen C, Kully-Martens K, Denys K, Badry D, Henneveld D, Wyper K, et al. The Effectiveness of a Community-Based Intervention Program for Women At-Risk for Giving Birth to a Child with Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD). *Community Ment Health J.* 2012;48(1):12–21).
102. Paradis S, Ego A, Bosson J-L. Preconception care among low-risk mothers in a French perinatal network: frequency of utilization and factors associated. *J Gynecol Obstet Hum Reprod.* (2017) 46:591–6. doi: 10.1016/j.jogoh.2017.05.002.
103. Chaput H, Monziols M, Fressard L, Verger P, Ventelou B, Zaytseva A. Deux tiers des médecins généralistes libéraux déclarent travailler au moins 50 heures par semaine. *DREES Études et Résultats.* 2019;1113:1–2.
104. Andler R, Cogordan C, Pasquereau A, Buyck J-F, Nguyen-Thanh V. The practices of French general practitioners regarding screening and counselling pregnant women for

- tobacco smoking and alcohol drinking. *Int J Public Health*. (2018) 63:631–40. doi: 10.1007/s00038-018-1103-9).
105. Djengué A, Pham A-D, Kowalski V, Burri C. L'alcoologie et les futurs médecins généralistes français: Évaluation des connaissances, des pratiques et de la formation reçue en fin d'internat. *Psychotropes*. (2017) 23:89–109. doi: 10.3917/psyt.231.0089).
106. Al-Elq AH. Simulation-based medical teaching and learning. *J Fam Community Med*. (2010) 17:35–40. doi: 10.4103/1319-1683.68787.
107. Hanlon-Dearman A, Green CR, Andrew G, LeBlanc N, Cook JL. Anticipatory Guidance For Children And Adolescents With Fetal Alcohol Spectrum Disorder (Fasd): Practice Points For Primary Health Care Providers. *J Popul Ther Clin Pharmacol*. 2015;22(1):e22–56.
108. Looock C. Identifying fetal alcohol spectrum disorder in primary care. *Can Med Assoc J*. 2005;172(5):628–30.
109. (Floyd RL, Sobell M, Velasquez MM, Ingersoll K, Nettleman M, Sobell L, et al. Preventing Alcohol-Exposed Pregnancies. *Am J Prev Med*. 2007;32(1):1–10).
110. Russell M. New Assessment Tools for Risk Drinking During Pregnancy: T-ACE, TWEAK, and Others. *Alcohol Health Res World*. 1994;18(1):55–61).
111. La Plateforme de Coordination et d'Orientation - Fondation Père Favron. Available from: [https:// www. favron. org/ la- plate forme- de- coordinationet-dorientation/](https://www.favron.org/la-plate-forme-de-coordinationet-dorientation/). Accessed 5 Dec 2022.
112. Centre Ressources ETCAF – Un centre pour aider les familles et les professionnels. Available from: [https:// etcaf3. favron. org/](https://etcaf3.favron.org/). Accessed 5 Dec 2023.
113. Brahic J, Thomas O, Dany L. Alcool et grossesse: une recherche qualitative auprès de femmes enceintes. *Cah Int Psychol Soc*. (2015) 107:403–34. doi: 10.3917/cips.107.0403.
114. Cogordan C. (2017). Alcool et grossesse : connaissances et perception des risques, visibilité du pictogramme. Santé Publique France.
115. Haute Autorité de Santé (2010). Projet de grossesse: informations, messages de prévention, examens à proposer-fiche de synthèse. Paris: HAS. Available at:

https://www.has-sante.fr/jcms/c_1360649/fr/projet-de-grossesse-informations-messages-de-prevention-examens-a-proposer (Accessed May 18 2023).

116. Malone M, Koren G. Alcohol-induced behavioural problems in fetal alcohol spectrum disorders versus confounding behavioural problems. *J Popul Ther Clin Pharmacol.* (2012) 19:e32–40.
117. Fernandez S. (2017). Prevention of alcohol consumption during pregnancy in general practice: A feasibility study. *Medicine thesis: University of Réunion Island*.
118. Holmberg, C., Sarganas, G., Mittring, N., Braun, V., Dini, L., Heintze, C., ... & Müller-Nordhorn, J. (2014). Primary prevention in general practice—views of German general practitioners: a mixed-methods study. *BMC family practice*, 15, 1-10.
119. Sonderlund, A. L., Thilsing, T., Korevaar, J., Hollander, M., Lionis, C., Schellevis, F., ... & Sondergaard, J. (2019). An evidence-based toolbox for the design and implementation of selective-prevention primary-care initiatives targeting cardio-metabolic disease. *Preventive Medicine Reports*, 16, 100979.
120. Lipkin, P. H., Macias, M. M., Norwood, K. W., Brei, T. J., Davidson, L. F., Davis, B. E., ... & Voigt, R. G. (2020). Promoting optimal development: identifying infants and young children with developmental disorders through developmental surveillance and screening. *Pediatrics*, 145(1).
121. Michels, N. R., Maagaard, R., Švab, I., & Scherpbier, N. (2021). Teaching and learning core values in general practice/family medicine: A narrative review. *Frontiers in medicine*, 8, 647223.
122. Bröning, S., Kumpfer, K., Kruse, K., Sack, P. M., Schaunig-Busch, I., Ruths, S., ... & Thomasius, R. (2012). Selective prevention programs for children from substance-affected families: a comprehensive systematic review. *Substance Abuse Treatment, Prevention, and Policy*, 7, 1-17.
123. Vaiva G., Walter M., Al Arab A. S., Courtet P., Bellivier F., Demarty A.-L. et al. ALGOS: the development of a randomized controlled trial testing a case management algorithm designed to reduce suicide risk among suicide attempters. *BMC Psychiatry*, 2011, vol. 11, no 1 : 7 p. En ligne :

- <https://bmcp psychiatry.biomedcentral.com/track/pdf/10.1186/1471-244X-11-1>
124. <https://sante.gouv.fr/prevention-en-sante/sante-mentale/la-prevention-du-suicide/article/le-dispositif-de-recontact-vigilans>.
125. Delbecq AL, Van de Ven AH, Gustafson DH, editors. Group techniques for program planning: A guide to nominal group and Delphi processes. Glenview: Scott, Foresman; 1975.
126. Van de Ven A, Delbecq A. Nominal versus interacting group processes for committee decision making effectiveness. *Acad Manag J* 1971;14:203–11.
127. Van de Ven AH, Delbecq A. The effectiveness on nominal, Delphi and interacting group decision making processes. *Acad Manag J* 1974;17: 605–21.
128. Riggs WE. The Delphi technique: An experimental evaluation. *Technol Forecasting Soc Change* 1983;23:89–94.
129. Chen LF, Vander Weg MW, Hofmann DA, Reisinger HS. The Hawthorne Effect in Infection Prevention and Epidemiology. *Infection Control & Hospital Epidemiology*. 2015;36(12):1444-1450. doi:10.1017/ice.2015.216.
130. Hervouet L (2020). Police et justice face au troubles du spectre de l'alcoolisation foetale, Vivre avec le SAF. Paris. Available at: <https://www.vivreaveclesaf.fr/wp-content/uploads/2020/12/Rapport-TSAF-et-justice-Final.pdf> (Accessed June 18 2023).
131. Howell, M. P., Jones, C. W., Herman, C. A., Mayne, C. V., Fernandez, C., Theall, K. P., ... & Drury, S. S. (2022). Impact of prenatal tobacco smoking on infant telomere length trajectory and ADHD symptoms at 18 months: A longitudinal cohort study. *BMC medicine*, 20(1), 153.
132. He, Y., Chen, J., Zhu, L. H., Hua, L. L., & Ke, F. F. (2020). Maternal smoking during pregnancy and ADHD: results from a systematic review and meta-analysis of prospective cohort studies. *Journal of attention disorders*, 24(12), 1637-1647.

7. Travaux ancillaires

A partir des premiers résultats de cette recherche action, plusieurs travaux ancillaires ont été mis en place à la suite ou en parallèle.

7.1. Le tabou de l'alcool au féminin

Un travail exploratoire a été réalisé en miroir à propos du tabou de l'alcool au féminin. Ce travail réalisé dans le cadre de thèses d'exercice par Alizée Lesquerré et Léna Arhel sous la direction du Dr Michel Spodenkiewicz et moi-même a permis d'interviewer les femmes en âge de procréer et les médecins généralistes sur leurs représentations autour de l'alcool au féminin.

Les premiers résultats étaient que l'exploration des troubles liés à l'alcool chez les femmes restait peu systématisée en médecine générale. Les études scientifiques menées sur l'alcool au féminin étaient rares alors que l'alcoolisation des femmes en cours de la grossesse peut avoir des conséquences irréversibles sur l'enfant à naître.

Il était donc pertinent d'explorer les processus du tabou de l'alcool au féminin. L'objectif de l'étude était d'explorer les représentations des médecins généralistes à propos de la consommation d'alcool au féminin. L'étude a été réalisée en miroir d'une autre étude portant sur l'exploration des représentations des femmes à propos de l'alcool en médecine générale.

L'étude qualitative adoptait une approche par théorisation ancrée. Le recueil de données a été menée par entretiens individuels semi-dirigés chez des médecins généralistes recrutés aléatoirement et des femmes. Les médecins généralistes considéraient l'abord systématique et les points d'appel comme des opportunités à aborder la consommation d'alcool. Son intégration au cours de la consultation restait sensible. L'existence d'une relation de confiance médecin-patiente était considérée comme nécessaire pour aborder sereinement l'alcool du point de vue des MG et des femmes.

Côté femmes, la consommation d'alcool est perçue comme un tabou, conséquence d'une société patriarcale qui les stigmatisent facilitant une consommation cachée et un déni de déclaration lors des consultations de soin.

La triangulation des données a été menée par les deux investigatrices. La suffisance des données a été recherchée par deux entretiens supplémentaires. Les investigatrices novices en recherche qualitative ont pu générer des biais d'investigation et d'interprétation.

Afin de pallier à l'effet tabou de ce repérage en médecine générale, il pourrait être pertinent d'évaluer l'efficacité du repérage précoce et de l'intervention brève à propos de l'alcool, à l'image du tabac ayant déjà fait ses preuves par une étude interventionnelle de type essai randomisé.

Un article est en cours d'écriture et sera soumis à la revue de médecine générale « exercer ».

7.2. Les représentations des couples en âge de procréer et des professionnels de santé à propos de la responsabilité masculine par rapport au TSAF

Au regard des avancées de l'épigénétique, il nous a semblé intéressant d'explorer les représentations des couples en âge de procréer et des professionnels de santé médecins généralistes, sages-femmes, pédiatres et gynécologues à propos de la consommation d'alcool masculine en période pré-conceptionnelle et de la responsabilité masculine TSAF.

Ce travail réalisé dans le cadre de thèses d'exercice par Roxane Houillon, Clémence Thuilot, Barbara Vangrevelinghe, Loïse Juhel, Gwendoline Thieblin, sous la direction du Dr Michel Spodenkiewicz et moi-même a permis d'interviewer des couples en âge de procréer, des médecins généralistes, des gynécologues, des sages-femmes et des pédiatres sur leurs représentations autour de la responsabilité masculine à transmettre les TSAF. Les recueils de données sont encore en cours.

7.3. Caractéristiques des pères d'enfants atteints de TSAF

Profitant de la cohorte des personnes suivies par le Centre ressources TSAF, nous avons voulu nous intéresser aux caractéristiques des pères d'enfants atteints de TSAF. Ce travail réalisé dans le cadre de thèses d'exercice par Vanille Auperin sous ma direction avec l'aide méthodologique du Dr Thierry Maillard, médecin généraliste et Président de l'association SAF Océan Indien est en cours.

7.4. Comment les médecins généralistes prennent-ils en soin les patients adultes atteints d'un trouble de l'alcoolisation fœtale ?

Le travail réalisé dans le cadre d'une thèse d'exercice par Mathilde Ille, s'intéresse quant à lui à explorer et comprendre les stratégies adoptées par les médecins généralistes de La Réunion dans la prise en soin des patients adultes présentant un trouble de l'alcoolisation fœtale. Une étude qualitative adoptant une approche par théorisation ancrée est en cours.

7.5. Neurofeedback et TSAF

Une revue narrative de la littérature est actuellement menée dans le cadre d'une thèse d'exercice par Gauthier Durieux sur l'efficacité du Neuro feed-back sur les personnes atteintes de TSAF avec Mme Var de l'association Vivre avec le SAF.

8. Valorisation des travaux TSAF

8.1. Communications orales congrès internationaux

1. Congrès TSAF Norvège sept 2022 : Communication affichée « Prévention et repérage TSAF » présentation par Thierry Maillard

8.2. Communications orales congrès nationaux

1. Congrès de recherche TSAF Paris le 20 mai 2022 : Communication affichée « Prévention et repérage TSAF », présentation Sébastien Leruste

2. 3° Congrès Santé Publique CoReSOI, La Réunion nov 2022 : Communication orale « Prévention et repérage TSAF », présentation Sébastien Leruste

3. 22° Congrès du CNGE Lille du 14 au 16 déc 2022
Communication orale TSAF présentation Sébastien Leruste

Poster commenté « Consensus actions TSAF », présentation Alice Pouillez Bax

4. 16° Congrès du CMGF du 23 au 25 mars 2023 : Communication orale « Consensus actions TSAF », présentation Sébastien Leruste

5. 23° Congrès CNGE Lyon du 29 nov au 1 déc 2023 : communication orale « Tabou de l'alcool au féminin », présentation Coralie Loubaresse.

Les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale, prévention et repérage en médecine générale : une recherche action

Résumé

Contexte : les troubles du spectre de l'alcoolisation fœtale (TSAF) sont la première cause évitable de déficience intellectuelle d'origine non génétique. Le médecin généraliste (MG) est en première ligne de la prévention et du repérage des TSAF. Alors que la prévalence des TSAF y serait la plus élevée en France, des insuffisances dans le repérage des consommations d'alcool notamment chez les femmes enceintes, une faible adhésion des MG aux formations proposées sur les TSAF ont été soulevés par l'Agence régionale de santé.

Objectif : l'objectif était de comprendre les leviers et les barrières des MG à la prévention et au repérage des TSAF et de mettre en place des actions pour renforcer ces pratiques.

Méthode : une recherche action a été construite. Pour sa 1^{ère} étape d'état des lieux, une revue narrative de la littérature a été réalisée, complétée par deux études qualitatives adoptant une approche par théorisation ancrée auprès des MG de La Réunion. La modélisation issue de ces études a permis de passer à la 2^{ème} étape, l'élaboration des actions par une méthode de consensus par ronde Delphi. La mise en place des actions est en cours et leurs évaluations seront la prochaine étape.

Résultats : l'état des lieux a permis d'identifier 23 actions ayant bénéficié d'une évaluation fondée sur les preuves portant sur la prévention, le repérage, le dépistage, le diagnostic d'un TSAF. Le malaise des MG face à l'abord de l'alcool, en particulier chez la femme, était un frein à prévenir et à repérer les TSAF. Ils se sentaient par contre aptes à repérer les troubles du neurodéveloppement. Ces éléments ont permis l'élaboration des actions de prévention et de repérage par consensus à partir de 24 actions potentielles aboutissant à 11 actions consensuelles. Quatre actions ont pu être mises en place.

Le retour vers les participants, dernière étape de la recherche action a commencé par une communication auprès des experts du panel de la ronde Delphi.

Discussion : cette recherche action a un rôle de modèle de recherche ancrée dans le terrain visant à répondre à une problématique locale prioritaire de santé publique. Cette méthode est transférable aux problématiques de repérage et de prévention d'autres problématiques de santé publique à la médecine générale. D'autres recherches actions similaires devraient être menées en soins primaires en lien avec les problématiques locales de santé. Elles seraient complémentaires à un essai randomisé en grappe autour de la formation des médecins généralistes à la prévention et le repérage.

Discipline : Médecine générale

Mots-clés : Médecine générale, Troubles causés par l'alcoolisation fœtale, Prévention, repérage, Île de la Réunion, Recherche Action

Fetal alcohol spectrum disorders, prevention and identification in general practice: action research

Abstract

Background: Fetal Alcohol Spectrum Disorder (FASD) is the leading preventable cause of non-genetic mental retardation. General practitioners (GPs) are at the forefront of prevention and detection of FASD. While the prevalence of FASD in the region is said to be the highest in France, the regional health agency has pointed to shortcomings in the detection of alcohol consumption, particularly among pregnant women, and low participation of general practitioners in training courses on FASD.

Objective: The aim was to understand the levers and barriers GPs face in preventing and identifying FASD, and to take action to strengthen these practices.

Method: An action research project was carried out. For its 1st stage, a narrative review of the literature was carried out, supplemented by two qualitative studies adopting a grounded theorizing approach with GPs. The modeling resulting from these studies enabled us to move on to the 2nd stage, the development of actions using a Delphi round consensus method. The actions are currently being implemented.

Results: The review identified 23 scientifically evaluated actions in the fields of prevention, detection, screening and diagnosis of FASD. GPs' discomfort in dealing with alcohol, particularly in women, was an obstacle to preventing and identifying FASD. They felt able to identify neurodevelopmental disorders. These factors led to the development of prevention and detection actions by consensus on 24 actions, resulting in 11 consensual actions.

Four actions have been implemented.

Feedback to the participants, the final stage of the action research, began with a communication to the experts on the Delphi round panel.

Discussion: This action research project serves as a model for field-based research aimed at responding to a priority local public health issue. This method is transferable to the identification and prevention of other public health issues to general practice. Similar action research should be carried out in other local public health issues in primary care. They would be complementary to a cluster randomized trial focusing on training GPs in prevention and detection.

Discipline: General Medicine

Keywords : General medicine, Fetal Alcohol Spectrum Disorder, Prevention, Screening, Reunion Island.

Research action.