

# La sensibilité à la douleur dans les troubles du spectre autistique : Ses liens avec l'auto-gressivité

## Sensitivity to pain in autistic spectrum disorders: Its links with self-gressivity

Soumeyya Halayem<sup>1</sup>, Nadia Charfi<sup>1</sup>, Maissa Touati<sup>1</sup>, Ali Mrabet<sup>2</sup>, Asma Bouden<sup>1</sup>

1-Service de pédopsychiatrie -Hôpital Razi / Faculté de médecine de Tunis,

2-Laboratoire de médecine préventive / Faculté de médecine de Tunis

### R É S U M É

**Objectifs:** Etudier l'association entre sensibilité à la douleur dans les troubles du spectre autistique (TSA) avec les conduites auto-agressives.

**Méthodes :** Il s'agit d'une étude transversale réalisée auprès de 50 enfants présentant un TSA (DSM 5) dont le diagnostic a été confirmé avec l'Autism Diagnostic Interview-Revised et la sévérité déterminée par la Childhood Autism Rating Scale (CARS). La sensibilité à la douleur a été évaluée avec l'item IX de cette échelle, les comportements auto-agressifs par le Behavior Problems Inventory. Le profil psycho-éducatif révisé (PEP-R) a évalué l'âge de développement et la perception.

**Résultats :** La sensibilité à la douleur était abaissée chez 40% et élevée chez 4% des patients. A l'analyse univariée, aucune association statistiquement significative n'a été retrouvée entre une sensibilité normale ou une hypersensibilité à la douleur et la présence d'une auto-agressivité. Une association significative a été retrouvée entre la présence d'une hyposensibilité à la douleur et les variables suivantes: présence d'auto-agressivité ( $p=0,007$ ; OR=5,8 ; IC95%=1,5-21,8), fréquence de l'auto-agressivité ( $p=0,001$ ), intensité de l'auto-agressivité ( $p=0,05$ ), localisation de l'auto-agressivité au niveau de la tête et des mains ( $p=0,007$ ; OR=7,6 ; IC95%=1,8-14), score plus élevé à la CARS et score de perception plus bas au PEP-R ( $p=0,012$ ). L'analyse multivariée a identifié les facteurs de risque de l'hyposensibilité à la douleur: score de perception plus bas ( $p=0,003$  ; OR ajusté=4,3 ; IC95%=1,9-54) et localisation de l'auto-agressivité au niveau de la tête et des mains ( $p=0,001$ ; OR ajusté= 1,09; IC95%=1,02-1,09).

**Conclusions :** Ces constatations incitent au développement d'outils permettant une évaluation fine et précise de la sensation douloureuse.

### M o t s - c l é s

Autisme, auto-agressivité, sensibilité à la douleur, facteurs de risque

### S U M M A R Y

**Objectives:** To investigate the link between pain sensitivity in autism spectrum disorders (ASD) and self-aggressive behavior.

**Methods:** we performed a cross-sectional study which involved 50 children fulfilling DSM-V criteria for ASD; confirmed by the Autism Diagnostic Interview Revised. The severity of autism was determined using the Childhood Autism Rating Scale (CARS). The psycho-educational profile (PEP-R) was used to assess the age of development and perception. Sensitivity to pain was assessed with item IX of the CARS. Self-aggressive behavior was assessed by the Behavior Problems Inventory.

**Results:** Pain sensitivity was lowered in 40% and elevated in 4% of children. In the univariate analysis, no statistically significant association was found between normal sensitivity or hyper sensitivity to pain and the presence of auto-aggressiveness. A significant association was found between the presence of hypo-sensitivity to pain and the following variables: auto-aggression ( $p = 0.007$ , OR = 5.8, 95% CI = 1.5-21), frequency of self-aggression ( $p = 0.001$ ), intensity of self-aggression ( $p = 0.05$ ), location of auto-aggressiveness at head and ( $P = 0.007$ , OR = 7.6, 95% CI = 1.8-14), higher score at CARS, and lower perception score at PEP-R ( $p = 0.012$ ). Multiple-varied analysis identified risk factors for hypo-sensitivity to pain: lower perceptual score ( $p = 0.003$ , adjusted OR = 4.3, 95% CI = 1.9-54) and location of self-aggression at head and hands ( $p = 0.001$ , adjusted OR = 1.09, 95% CI = 1.02-1.09).

**Conclusion:** It would be interesting to develop tools allowing a fine and precise evaluation of the painful sensation.

### Key - words

Autism, self-injurious behavior, pain sensitivity, risk factors

Le seuil de la douleur dans l'autisme suscite depuis longtemps l'intérêt de la communauté scientifique. Ce sujet a connu un regain d'intérêt depuis l'apparition de « l'hyper ou l'hypo réactivité à des stimuli sensoriels » dans les nouveaux critères des troubles du spectre autistique (TSA) du DSM-5.

Les travaux sur la question ont permis d'écarter les hypothèses longtemps persistantes d'une insensibilité à la douleur chez les enfants avec autisme. Néanmoins, jusqu'à ce jour, la sensibilité à la douleur dans l'autisme est loin de faire l'unanimité et demeure un sujet de controverses dans la littérature [1,3].

Plusieurs études s'accordent sur la relation entre sensibilité à la douleur et auto-agressivité mais ce lien n'est pas encore clairement établi, certains considèrent la douleur comme cause, d'autres comme conséquence des automutilations [2].

C'est dans cette perspective que s'inscrit notre travail qui avait pour objectif d'étudier la sensibilité à la douleur dans les TSA et de rechercher une éventuelle association avec les conduites auto-agressives.

---

#### METHODES

---

Il s'agit d'une étude transversale réalisée auprès de 50 enfants âgés entre 2 et 12 ans, répondants aux critères du DSM-5 des TSA et dont le diagnostic a été confirmé grâce à l'Autism Diagnostic Interview-revised (ADI-R). Ont été inclus les enfants souffrant de trouble du spectre autistique consultant au service de pédopsychiatrie de l'hôpital Razi et dont les parents acceptaient de participer au travail. Ont été exclus les enfants avec TSA qui présentaient des pathologies pouvant entraîner des troubles surajoutés du comportement tels qu'une épilepsie mal équilibrée ou un syndrome de Lesh Nyhan. Les outils d'évaluation utilisés étaient : l'ADI-R, la Childhood Autism Rating Scale (CARS), le Behavior Problems Inventory (BPI-01), le Profil Psycho-Educatif Révisé (PEP-R) et une fiche pré établie.

L'ADI-R a permis d'évaluer les domaines de l'interaction sociale (ADI-B), la communication verbale et non verbale (ADI-C), les comportements répétitifs et patterns stéréotypés (ADI-D). La sévérité de l'autisme a été déterminée au moyen de la CARS.

La sensibilité à la douleur a été évaluée grâce à l'item IX de la CARS. Pour une meilleure catégorisation, nous avons reformulé les sous-scores en : légèrement (a) et sévèrement (b). L'évaluation de l'agressivité s'est faite grâce au BPI-01 traduit et validé en arabe (l'étude de validation est soumise pour publication). C'est un entretien structuré qui comprend trois sous échelles: «automutilations», «comportements hétéro-agressifs et destructeurs» et «stéréotypies» réparties sur 52 items. Le BPI-01 évalue la fréquence et l'intensité des comportements problématiques existant durant les deux mois précédant la passation [7].

Le PEP-R a permis de déterminer l'âge de développement et les différentes compétences, en l'occurrence la perception. Une fiche préétablie a étudié le siège de l'auto-agressivité.

#### Analyse statistique :

Afin d'étudier les différents facteurs associés à la sensibilité à la douleur, nous avons procédé à une analyse uni variée suivie d'une analyse multi variée. La régression logistique a permis de calculer pour chaque facteur directement lié à l'événement un Odds ratio ajusté, faisant ressortir le rôle propre du facteur.

---

#### RESULTATS

---

##### Caractéristiques de la population d'étude :

Notre population était constituée de 50 enfants, dont le sex-ratio était de 4,5. Les patients avaient un âge moyen de 6 ans avec un écart type égal à 2 et des extrêmes allant de 2 à 12 ans. Parmi nos patients 28% avaient une utilisation fonctionnelle du langage (n=14). 80% (n=40) des enfants présentaient un retard mental associé versus 20% (n=10) qui avaient une intelligence normale. 38% (n=19) des patients avaient un score à la CARS  $\geq 37$ , 48% (n=24) avaient un score entre 30 et 36,5. Chez 7 enfants (14%), le score au moment de l'évaluation était  $<30$ . Le score moyen de perception était de  $8,5 \pm 2$ .

##### Caractéristiques de l'auto-agressivité:

La prévalence de l'auto-agressivité était de 46% (n=23) et celle de l'hétéro-agressivité de 60% (n=30). L'intensité de l'auto-agressivité était légère chez 66% (n=32), modérée chez 17% (n=9) et sévère chez 17% (n=9) des patients. Les parties du corps les plus fréquemment ciblées étaient: les mains chez 34,8 % des patients (n=8) et la tête dans 34,8% des cas (n=8) suivies par les membres dans 13% des cas (n=3). Le siège était variable dans les autres cas (17,4%).

##### Sensibilité à la douleur :

La sensibilité à la douleur était, selon les parents, normale chez 56% des enfants (n=28), légèrement abaissée chez 16% (n=8), sévèrement abaissée chez 24% (n=12) et légèrement élevée chez 4% d'entre eux (n=2).

##### Associations statistiques :

L'analyse uni variée, n'a retrouvé aucune association statistiquement significative entre sensibilité normale ou hyper sensibilité à la douleur et présence d'une auto-agressivité (p=NS). Une association statistiquement significative a été retrouvée entre la présence d'une hypo sensibilité à la douleur et les variables suivantes : la présence d'une auto-agressivité (p=0,007; OR=5,8 ; IC95%=1,5-21,8), la fréquence de l'auto-agressivité (p=0,001), l'intensité de l'auto-agressivité (p=0,05), la

localisation de l'auto-agressivité au niveau de la tête et des mains ( $p=0,007$  ;  $OR=7,6$  ;  $IC95\%=1,8-14$ ) , un score de sévérité plus élevé à la CARS et un score de perception plus bas au PEP-R ( $p=0,012$ ). Nous n'avons pas retrouvé d'association statistique entre un seuil de douleur élevé et les variables suivantes: l'âge, le genre, la prise de traitement, l'hétéro-agressivité, les scores de l'ADI notamment l'ADI-C (verbal et non verbal) et le niveau global du langage.

L'analyse multi variée a permis d'identifier les facteurs de risque de l'hypo sensibilité à la douleur : le score de perception plus bas ( $p=0,003$  ;  $OR$  ajusté=4,3 ;  $IC95\%=1,9-54$ ) et la localisation de l'auto-agressivité au niveau de la tête et des mains ( $p=0,001$  ;  $OR$  ajusté= 1,09;  $IC95\%=1,02-1,09$ ).

## DISCUSSION

Au travers de cette étude transversale de 50 enfants avec TSA, nous avons trouvé que la sensibilité à la douleur était abaissée chez 40% et élevée chez 4% des patients. A l'analyse univariée, aucune association statistiquement significative n'a été retrouvée entre une sensibilité normale ou une hypersensibilité à la douleur et la présence d'une auto-agressivité. Une association significative a été retrouvée entre la présence d'une hyposensibilité à la douleur et les variables suivantes: présence d'auto-agressivité ( $p=0,007$ ;  $OR=5,8$  ;  $IC95\%=1,5-21,8$ ), fréquence de l'auto-agressivité ( $p=0,001$ ), intensité de l'auto-agressivité ( $p=0,05$ ), localisation de l'auto-agressivité au niveau de la tête et des mains ( $p=0,007$  ;  $OR=7,6$  ;  $IC95\%=1,8-14$ ), score plus élevé à la CARS et score de perception plus bas au PEP-R ( $p=0,012$ ). L'analyse multivariée a identifié les facteurs de risque de l'hyposensibilité à la douleur: score de perception plus bas ( $p=0,003$  ;  $OR$  ajusté=4,3 ;  $IC95\%=1,9-54$ ) et localisation de l'auto-agressivité au niveau de la tête et des mains ( $p=0,001$ ;  $OR$  ajusté= 1,09;  $IC95\%=1,02-1,09$ ).

Dans notre étude, le seuil de sensibilité à la douleur était normal (56%), élevé (40%) et abaissé dans 4% des cas. Le seuil de la douleur dans les TSA est très variable selon les études : certaines stipulent qu'il existerait une hypo sensibilité à la douleur, d'autres plaident en faveur d'une hypersensibilité, d'autres enfin remettent en question la présence d'un trouble de la sensibilité [1,3]. Cette divergence des résultats tient essentiellement à l'hétérogénéité des méthodes d'évaluation (évaluation parentale, expérimentale, auto-évaluation). La majorité des études basées sur des observations parentales rapportent, à l'instar de notre travail, une moindre sensibilité à la douleur.

Plusieurs hypothèses ont été proposées afin d'expliquer les particularités de la sensibilité à la douleur dans l'autisme et l'association entre le seuil de la douleur élevé et l'auto-agressivité dans l'autisme, parmi

lesquelles le mode particulier d'expression de la douleur, les particularités du fonctionnement sensoriel et l'hypothèse opioïde.

La première hypothèse suggère un mode particulier d'expression de la douleur dans les TSA. En effet, l'hypothèse d'une insensibilité à la douleur est de plus en plus remise en question et les travaux postulent davantage pour un problème d'expression de la douleur et non pas de perception. Des études expérimentales ont ainsi objectivé une réactivité motrice et faciale importante à la suite d'une douleur aiguë, signaux souvent non détectés par l'entourage [1, 3,5]. D'autres travaux ont mis l'accent sur les difficultés de l'expression de la douleur en présence des troubles de la communication verbale et non verbale [10]. L'auto-agressivité s'installe dans ce cas comme un mode de communication alternatif intervenant dans les lacunes des autres modes de communication. Cette association avec les troubles de la communication n'a pas été retrouvée dans notre étude. Ce qui pourrait s'expliquer par la proportion faible des patients avec langage communicatif.

La deuxième hypothèse fait références à la présence de particularités sensorielle dans les TSA. Les études ont mis en évidence, dans cette population, des anomalies de toutes les modalités sensorielles (tactile, auditive, visuelle, olfactive et nociceptive) et à type d'hypo ou d'hyperréactivité sensorielle, de diminution du seuil de discrimination des stimuli et d'altération de la modulation de l'information sensorielle [6, 8,11]. Aux vues de l'association entre la

diminution du score de perception au PEP-R et la diminution de la sensibilité à la douleur, nos résultats qui sont les premiers à notre connaissance à quantifier ces compétences perceptives, soutiennent cette hypothèse. L'hypothèse opioïde enfin se base sur la présence d'un excès d'opioïdes endogènes dans l'autisme qui serait responsable d'une élévation du seuil de la douleur et des automutilations.

Cependant le sens de cette relation reste à définir : l'auto-agressivité serait-elle à l'origine de la décharge opioïde qui entrainerait à son tour une élévation du seuil de la douleur ou bien est-ce l'excès d'opioïde qui serait à l'origine à la fois des automutilations et du seuil de la douleur élevé [2,4]? En faveur de cette hypothèse, l'association significative entre le seuil de la douleur élevé et la présence d'une auto-agressivité, sa fréquence et son intensité élevée.

Dans ce même ordre d'idées, l'association significative entre l'hypo sensibilité à la douleur et la localisation de l'auto-agressivité au niveau de la tête et des mains, des hypothèses ont été émises selon lesquelles des douleurs chroniques pourraient être à l'origine d'automutilations qui ciblent des zones spécifiques, zones dont la stimulation produit une libération importante et immédiate d'opioïdes (mains et tête en particulier). Ces opioïdes provoquent aussi bien une élévation du seuil de la douleur qu'un apaisement [2,9].

Au regard de ces différentes hypothèses explicatives, un modèle intégré a été proposé. Ce modèle conceptualise l'expression de la douleur comme un modèle de communication de type émetteur, message et récepteur faisant intervenir des facteurs personnels (communication verbale, non verbale, altérations sensorielles, automutilations...) et environnementaux (capacité de l'observateur à décoder le message) dans la modulation de la sensibilité et de l'expression de la douleur [2,8].

## REFERENCES

1. Allely CS. Pain sensitivity and observer perception of pain in individuals with autistic spectrum disorder. *ScientificWorldJournal*. 2013;9:161-78.
2. Dubois A, Rattaz C, Pry R, Baghdadi A. Autism and pain a literature review. *Pain Res Manag*. 2010;15(4):245-53.
3. Moore DJ. Acute pain experience in individuals with autism spectrum disorders: a review. *Autism* 2015;19(4):387-99.
4. Panksepp J. A neurochemical theory of autism. *Trends Neurosci*. 1979;2:174-7.
5. Pernon E, Rattaz C. Les modes d'expression de la douleur chez l'enfant autiste : étude comparée. *Devenir*. 2003;15:263-77.
6. Rogers SJ, Ozonoff S. Annotation: What do we know about sensory dysfunction in autism? A critical review of the empirical evidence. *J Child Psychol Psychiatry*. 2005;46:1255-68.
7. Rojahn J, Matson JL, Lott D, Esbensen AJ, Smalls Y. The Behavior Problems Inventory: an instrument for the assessment of self-injury,

---

## CONCLUSION

---

Ce travail conforte une partie des hypothèses avancées dans la littérature en ce qui concerne les anomalies de l'expression de la douleur chez les enfants avec TSA, celle relevant des particularités perceptives de ces derniers, et de façon indirecte l'hypothèse opioïde. Il serait intéressant de développer des outils permettant une évaluation fine et précise de la sensation douloureuse.

- stereotyped behavior, and aggression/destruction in individuals with developmental disabilities. *J Autism Dev Disord*. 2001;31(6):577-88.
8. Sahnouna L, Saravane D. Autisme et douleur : état des connaissances et conséquence pratique. *Douleurs: Évaluation - Diagnostic -Traitement*. 2015;16: 21-5.
9. Symons FJ, Thompson T. Self-injurious behaviour and body site preference. *J Intellect Disabil Res*. 1997;41(6):456-68.
10. Tordjman S, Antoine C, Cohen DJ, Gauvain-Piquard A, Carlier M, Rouber-Toux P, et al. Study of the relationships between self-injurious behavior and pain reactivity in infantile autism. *Encephale* 1999;25:122-34.
11. Tomchek SD, Dunn W. Sensory processing in children with and without autism: A comparative study using the short sensory profile. *Am J Occup Ther* 2007;61:190-200.