

CONSEJERÍA DE SALUD

Agencia de Evaluación de Tecnologías
Sanitarias de Andalucía (AETSA)

Cribado neonatal de hipoacusia

Informe de respuesta breve.

Avda. de la Innovación s/n. Edificio ARENA 1. Planta baja

CONSEJERÍA DE SALUD

41020 Sevilla - España (Spain)

Tlf.: +34 955 006 309 - Fax: +34 955 006 328

<http://www.aetsa.org>

e-mail: aetsa.csalud@juntadeandalucia.es



2017

Cribado neonatal de hipoacusia

Informe de respuesta breve.

Agencia de Evaluación de Tecnologías Sanitarias de Andalucía

CONSEJERÍA DE SALUD

JUNTA DE ANDALUCÍA

Autores: Elena Baños-Álvarez y María Piedad Rosario-Lozano.

Fecha: junio de 2017.



Conflicto de interés

Las autoras declaran que no tienen intereses que puedan competir con el interés primario y los objetivos de este documento, ni influir en su juicio profesional al respecto.



Índice

Contexto y antecedentes.....	5
Objetivo	11
Metodología.....	12
Búsqueda.....	13
Criterios de selección de los artículos recuperados	13
Extracción de los datos.....	13
Evaluación de la calidad metodológica	14
Resultados.....	15
Resultados de la búsqueda	15
Beneficios y riesgos del cribado	15
Conclusiones	20
Referencias bibliográficas	21
Anexos.....	22
Anexo 1: Criterios para la toma de decisiones estratégicas respecto a los programas de cribado poblacional del informe del IACS	22
Anexo 2. Factores de riesgo asociados a hipoacusia adquirida o progresiva	27
Anexo 3. Estrategias de búsqueda.....	28
Anexo 4: Tablas de síntesis de la evidencia encontrada en las evaluaciones económicas ...	33

Contexto y antecedentes

Entre 1 y 3 de cada 1.000 recién nacidos tienen deficiencias auditivas importantes, cifra que asciende a 2 – 4 % en neonatos de alto riesgo de hipoacusia¹.

Entre los principales factores de riesgo de hipoacusia identificados se encuentran los siguientes (ver tabla 1):

Tabla 1. Factores de riesgo de hipoacusia².

- | |
|--|
| <ol style="list-style-type: none"> 1. Historia familiar de hipoacusia 2. Infecciones congénitas 3. Anomalías craneofaciales 4. Bajo peso al nacer (< 1.500 gramos) 5. Niveles séricos de hiperbilirrubinemia que requieren exanguinotransfusión 6. Fármacos ototóxicos 7. Meningitis bacteriana 8. Puntuación baja en el test de apgar (0-4 a 1 minuto o 0-6 a 5 minutos) 9. Ventilación mecánica durante al menos 5 días 10. Presencia de síndromes asociados a hipoacusia congénita |
|--|

La hipoacusia permanente bilateral de intensidad moderada a profunda es un problema de salud grave que interfiere con la adquisición del lenguaje y la comunicación. También tiene un impacto negativo considerable en el desarrollo emocional y social del niño¹. En la actualidad se admite universalmente que la hipoacusia permanente debe detectarse y tratarse lo antes posible¹. Para ello, las técnicas más utilizadas para su detección a través de cribado neonatal poblacional son:

1. Otoemisiones acústicas.
2. Potenciales evocados auditivos troncoencefálicos automáticos.

Ambas técnicas son procedimientos no invasivos, sencillos de realizar en neonatos, que muestran una elevada correlación con el grado de sensibilidad auditiva periférica^{1,2}.

En la tabla 2 se muestra la comparación entre ambas técnicas al ser utilizadas como método de cribado neonatal poblacional.

Tabla 2. Comparación de técnicas utilizadas en el cribado neonatal poblacional de hipoacusias².		
	Otoemisiones acústicas (OEA)	Potenciales evocados auditivos troncoencefálicos automáticos (PEATCa)
Procedimientos	Se coloca una pequeña sonda en el canal auditivo que emite estímulos sonoros	Los electrodos de superficie se colocan en la cabeza del bebé
	Los estímulos sonoros son transmitidos al oído interno a través del oído medio	A través de unos auriculares colocados sobre ambas orejas recibe el estímulo "click"
	Las células ciliadas externas de la cóclea producen una respuesta activa (emisión)	Los PEATCa son una medida directa de la respuesta neural al sonido generado a lo largo del sistema auditivo (desde el nivel coclear, a través del nervio VIII y el tronco cerebral)
	Esas emisiones son recogidas mediante la sonda y analizadas	En la pantalla de la unidad se muestra una respuesta automática: "pasa" o "se refiere"
	La pantalla de la unidad muestra una respuesta automática: "pasa" o "se refiere"	
Resultado negativo: PASA LA PRUEBA	Función coclear y del oído medio normal	Función coclear y del nervio auditivo normal
Resultado positivo: NO PASA LA PRUEBA; SE REFIERE	Alteración de la función coclear asociada a pérdida auditiva permanente	Patología coclear o neurosensorial, por ejemplo, neuropatía auditiva
Resultado FALSO POSITIVO	Trastornos de oído medio: otitis media con efusión	Bloqueo del canal auditivo (menos susceptible a falsos positivos que las OEA)
	Bloqueo del canal auditivo (cerumen impactado)	La presencia de inmadurez del sistema neurológico afecta a la forma de las ondas de los PEATCa
	Mayor tasa de falsos positivos que los PEATCa	

Tabla 2. Comparación de técnicas utilizadas en el cribado neonatal poblacional de hipoacusias². Continuación.		
	Otoemisiones acústicas (OEA)	Potenciales evocados auditivos troncoencefálicos automáticos (PEATCa)
Beneficios de la técnica	Rápido, método fácil de manejar	Se evalúa más ampliamente el sistema auditivo que con las OEA
	Coste efectiva- fungibles menos costosos que los utilizados con PEATCa	Permite la detección de una afectación neurológica
Limitaciones de la técnica	Pueden no permitir la obtención de mediciones fiables la presencia de ruido del micrófono, ruido fisiológico (respiración y flujo sanguíneo), o bien el ruido acústico externo	Pueden no ser detectadas las pérdidas auditivas de aparición tardía, la hipoacusia leve o ante determinadas frecuencias
	No detecta pérdidas de audición neurosensorial	
	Pueden no ser detectadas las pérdidas auditivas de aparición tardía, la hipoacusia leve o ante determinadas frecuencias	
	Mayor tasa de resultados positivos de la prueba en comparación con los PEATCa. En estos casos se aconseja repetir la prueba de cribado	

SITUACIÓN DEL CRIBADO POBLACIONAL NEONATAL DE HIPOACUSIAS

Según la literatura científica consultada², los protocolos de cribado de hipoacusias pueden clasificarse en 4 tipos:

1. Aquellos que se llevan a cabo mediante el uso aislado de PEATCa.
2. Los que sólo utilizan OEA.
3. Los que se desarrollan con OEA seguido de PEATCa en caso de que falle la primera prueba.
4. Y los que emplean ambas pruebas, siendo necesario pasar los dos test para considerar que no existe ningún riesgo de hipoacusia en el neonato (de lo contrario es referido para realización de otras pruebas diagnósticas).

A continuación se muestran los protocolos de cribado poblacional empleados en diferentes países (ver tabla 3).

Tabla 3. Programas de cribado neonatal poblacional de hipoacusia en diferentes países².			
País	Inicio del programa	Momento de realización del cribado	Prueba utilizada para el cribado
Austria	1995; 2003- recogida de datos	Día 2-3	OEA + PEATCa
España	1998	Día 2-3	Dos pasos: OEA / OEA+PEATCa si existen factores de riesgo
Finlandia	2000	Antes del alta hospitalaria	OEA o PEATCa
Omán	2001	Día 2-3	OEA
Polonia	2002	Día 2-3	OEA
Croacia	2002	Antes del alta hospitalaria	OEA
Países Bajos	2003	< 2 semanas	2 OEA + PEATCa
Nigeria	2005	Día 2-3	OEA + PEATCa
Dinamarca	2005	Día 4-10	OEA
Reino Unido	2006	Después del 2º día	OEA + PEATCa
Noruega	2006	Día 2-3	OEA
India	2006	No descrito	OEA
Suecia	2007	Día 2-3	OEA
Bélgica (área francófona)	2007	Día 2-3 Repetición día 3-4	OEA
Brasil	2007	Antes del alta hospitalaria	OEA
Rusia	2008	No descrito	OEA
Alemania	2009	Día 2-3	OEA + PEATCa PEATCa si existen factores de riesgo
Filipinas	2009	Antes del alta hospitalaria	OEA o bien PEATCa
Italia (Umbría)	2010	Antes del alta hospitalaria	OEA + PEATCa
EEUU	No descrito	Después del 2º día	OEA + PEATCa o bien PEATCa
China	No descrito	Varios protocolos	OEA en recién nacidos sanos PEATCa en UCI.
OEA + PEATCa: todos los niños son sometidos a ambas pruebas.			

Programa de actividades de detección precoz de problemas de salud entre los 0 y 14 años: Efectividad, seguridad y evaluación económica de las diferentes alternativas existentes en la detección precoz de la hipoacusia en la edad pediátrica

En 2016, la Red Española de Agencias de Evaluación de Tecnologías Sanitarias (agencia coordinadora del proyecto: Instituto Aragonés de Ciencias de la Salud, IACS) publicó un informe¹ con el objetivo general de llevar a cabo una revisión sistemática de la literatura científica sobre la efectividad, seguridad y eficiencia de las diferentes alternativas de detección precoz de hipoacusia en recién nacidos. El título del mismo fue:

“Programa de actividades de detección precoz de problemas de salud entre los 0 y 14 años: Efectividad, seguridad y evaluación económica de las diferentes alternativas existentes en la detección precoz de la hipoacusia en la edad pediátrica.”

En él se daba respuesta a los 18 criterios que figuran en el “Documento Marco sobre Cribado Poblacional” aprobado por la Comisión de Salud Pública del Consejo Interterritorial del SNS para la toma de decisiones estratégicas a la hora de implantar programas de cribado poblacional (ver anexo 1) y además establecía las siguientes recomendaciones:

“En base a la evidencia científica encontrada y a la opinión de los expertos:

1. Se recomienda el cribado auditivo neonatal universal en el marco de un programa de detección precoz de la hipoacusia neonatal que garantice la intervención antes de los 6 meses de edad de todos los casos con sordera congénita permanente bilateral y de intensidad moderada a profunda.
2. Se recomienda el control periódico de la audición mediante su valoración subjetiva (lenguaje expresivo, respuesta al sonido, desarrollo psicosocial) hasta los 3 años de edad. Además, es imprescindible identificar a aquellos niños con factores de riesgo asociados a hipoacusia neurosensorial o de conducción (ver anexo 2) para que sean sometidos a una prueba de audición objetiva.”

Objetivo

Este documento es una respuesta breve que tiene 2 objetivos:

- Localizar las evidencias científicas disponibles relacionadas con el cribado de hipoacusias en recién nacidos.
- Y dada la reciente publicación del informe del IACS¹, cuya pregunta de investigación da respuesta al anterior objetivo, actualizar la información contenida en el mismo.



Metodología

La metodología de investigación consistió en una búsqueda bibliográfica estructurada en bases prefijadas y posterior síntesis cualitativa de los resultados obtenidos.

Antes de comenzar con la búsqueda bibliográfica estructurada se realizó una aproximación del tema consultando las principales agencias y organismos de evaluación de tecnologías sanitarias. Entre ellas destacar la Red Española de Evaluación de Tecnologías Sanitarias, así como las páginas web de cada uno de sus miembros (Agencia de Evaluación de Tecnologías Sanitarias del Instituto de Salud Carlos III, AETS-ISCIII, Agencia de Calidad y Evaluación Sanitarias de Cataluña, AQuAS, Unidad de Asesoramiento Científico-técnico, avalia-t, Unidad de Evaluación de Tecnologías Sanitarias de Madrid, UETS, Servicio de Evaluación y Planificación Canario, SECS, Servicio de Evaluación de Tecnologías Sanitarias del País Vasco, OSTEBA y el Instituto Aragonés de Ciencias de la Salud, IACS), *Health Technology Assessment* (INAHTA) a través de la base de datos del *Center for Reviews and Dissemination* (CRD), además de otros sitios WEB de agencias no incluidas en INAHTA y de instituciones nacionales e internacionales como la Comisión para la detección precoz de la hipoacusia, la Organización Mundial de la Salud (OMS), los *Centers for Disease Control and Prevention* (CDC), *National Institute for Health and Care Excellence* (NICE), la Canadian Agency for Drugs and Technologies in Health y la Agency for Healthcare Research and Quality de Estados Unidos.

Como ya se ha comentado previamente, en esta primera aproximación se identificó un informe de evaluación de tecnologías sanitarias publicado en 2016 y elaborado por la Red Española de Agencias de Evaluación de Tecnologías Sanitarias (IACS) titulado¹:

“Programa de actividades de detección precoz de problemas de salud entre los 0 y 14 años: Efectividad, seguridad y evaluación económica de las diferentes alternativas existentes en la detección precoz de la hipoacusia en la edad pediátrica.”

El objetivo general de este informe fue el de llevar a cabo una revisión sistemática de la literatura científica sobre la efectividad, seguridad y eficiencia de las diferentes alternativas de detección precoz de hipoacusia en recién nacidos. Entre sus objetivos específicos se encontraban:

- Analizar la efectividad y eficiencia de las diferentes alternativas de detección precoz de hipoacusia en recién nacidos.
- Identificar el tramo de edad óptimo para realizar el cribado de hipoacusia.
- Determinar con qué frecuencia se debe realizar el cribado de hipoacusia.
- Establecer recomendaciones de uso de las diferentes alternativas de cribado en base a la revisión sistemática realizada.

Para conseguir estos objetivos, las preguntas de investigación elaboradas fueron:

1. El cribado de hipoacusia en recién nacidos, ¿mejora el pronóstico de los casos diagnosticados precozmente?
2. ¿Cuál es la estrategia más eficiente para identificar a los niños con hipoacusia?

Las preguntas de investigación responden al objetivo de la presente consulta, de forma que dada la fecha de la búsqueda bibliográfica del informe del IACS (diciembre de 2013) y la calidad de la metodología empleada en su elaboración, se consideró oportuna la actualización de la información contenida en el mismo para dar respuesta a nuestro objetivo.

Búsqueda

Las siguientes bases de datos fueron consultadas, estableciendo el límite temporal entre enero 2014 y junio 2017: EMBASE, MEDLINE a través de OVID, WOS, Cochrane Library y CINAHL. La búsqueda bibliográfica no estuvo limitada por idioma. Posteriormente se realizó una búsqueda secundaria a partir de las referencias incluidas en las revisiones e informes seleccionados.

La estrategia de búsqueda se encuentra en el Anexo 3.

Criterios de selección de los artículos recuperados

Criterios de inclusión

Los criterios de inclusión de los artículos recuperados quedan determinados en la pregunta de investigación construida en formato PICOd (Población, Intervención, Comparador, Outcomes / resultados y diseños de los estudios a incluir), la cual se muestra a continuación en la tabla 4.

Tabla 4. Pregunta de investigación en formato PICOd	
Población	Recién nacidos hasta 1 mes de vida
Intervención	Potenciales evocados auditivos troncoencefálicos
Comparador	Otoemisiones acústicas
Resultados	Efectividad, seguridad y evaluación económica
Diseños incluidos	Revisiones sistemáticas, ensayos clínicos y estudios observacionales con comparador. Evaluaciones económicas completas, es decir, aquellas en las que se evalúan al menos dos alternativas (aunque una de ellas sea una alternativa sin tratamiento activo), midiendo tanto los costes como los efectos resultantes de su aplicación. Se considerará cualquier tipo de evaluación económica –análisis coste-utilidad, análisis coste-efectividad, análisis coste-beneficio, análisis de minimización de costes- en cualquier ámbito desde cualquier perspectiva Opinión de expertos

Criterios de exclusión

- Estudios no originales: revisiones narrativas, cartas al director, editoriales, notas.
- Abstracts de congresos.
- Literatura gris.

Extracción de los datos

Toda la información fue extraída de los documentos seleccionados por un revisor. Para ello se utilizó la hoja de extracción de datos del informe del IACS¹ y que se muestra a continuación:

1. Características de cada estudio:

- Autores.
- Año de publicación.
- País/países de referencia.
- Tipo de estudio.
- Características de la población seleccionada (edad y factores de riesgo).

2. Variables relacionadas con la efectividad de la prueba:

- Alteración del desarrollo.
- Rendimiento académico.

- Calidad de vida.
- 3. Variables relacionadas con las alternativas en comparación y las medidas de efectividad:**
- Perspectiva del análisis: paciente, sistema sanitario, tercer pagador, social.
 - Horizonte temporal.
 - Modelo utilizado en la comparación de alternativas.
 - Alternativas en comparación. Aunque en el informe del IACS se consideraban 3 tipos de aproximaciones, para esta actualización sólo se consideró la siguiente: estudios con aproximación a cribado universal en el que se compraban las técnicas existentes (OEA frente a PEATC o algún tipo de combinación de estas técnicas).
- 4. Variables relacionadas con las medidas de resultados (efectividad) y costes considerados en las evaluaciones económicas:**
- Medidas de efectividad: 1) coste por caso cribado, 2) coste por caso detectado y 3) otras (coste por año de vida ajustado a discapacidad, coste incremental en función de un indicador específico de calidad).
 - Fuentes utilizadas para valorar la medida de la efectividad: ensayos clínicos, revisiones, datos propios, otras.
 - Costes considerados: medicación, gastos de hospitalización, gasto en atención primaria, costes indirectos.
 - Moneda y año.
 - Fuente de datos de costes: se consideró primaria en los casos de ensayos clínicos con evaluación económica que midieron directamente los costes y secundarias cuando se obtuvieron de otras fuentes.
- 5. Variables relacionadas con las características técnicas de las evaluaciones económicas:**
- Análisis de sensibilidad.
 - Descuento de costes y beneficios.
- 6. Variables relacionadas con la recomendación de las evaluaciones económicas y dominancia cualitativa de la recomendación:**
- Conclusión cualitativa del estudio.
 - Dominancia cualitativa de una alternativa.

Evaluación de la calidad metodológica

Para la evaluación de la calidad metodológica se utilizaron los criterios definidos en la herramienta para revisiones sistemáticas *Assessment of Multiple Systematic Reviews (AMSTAR)*.

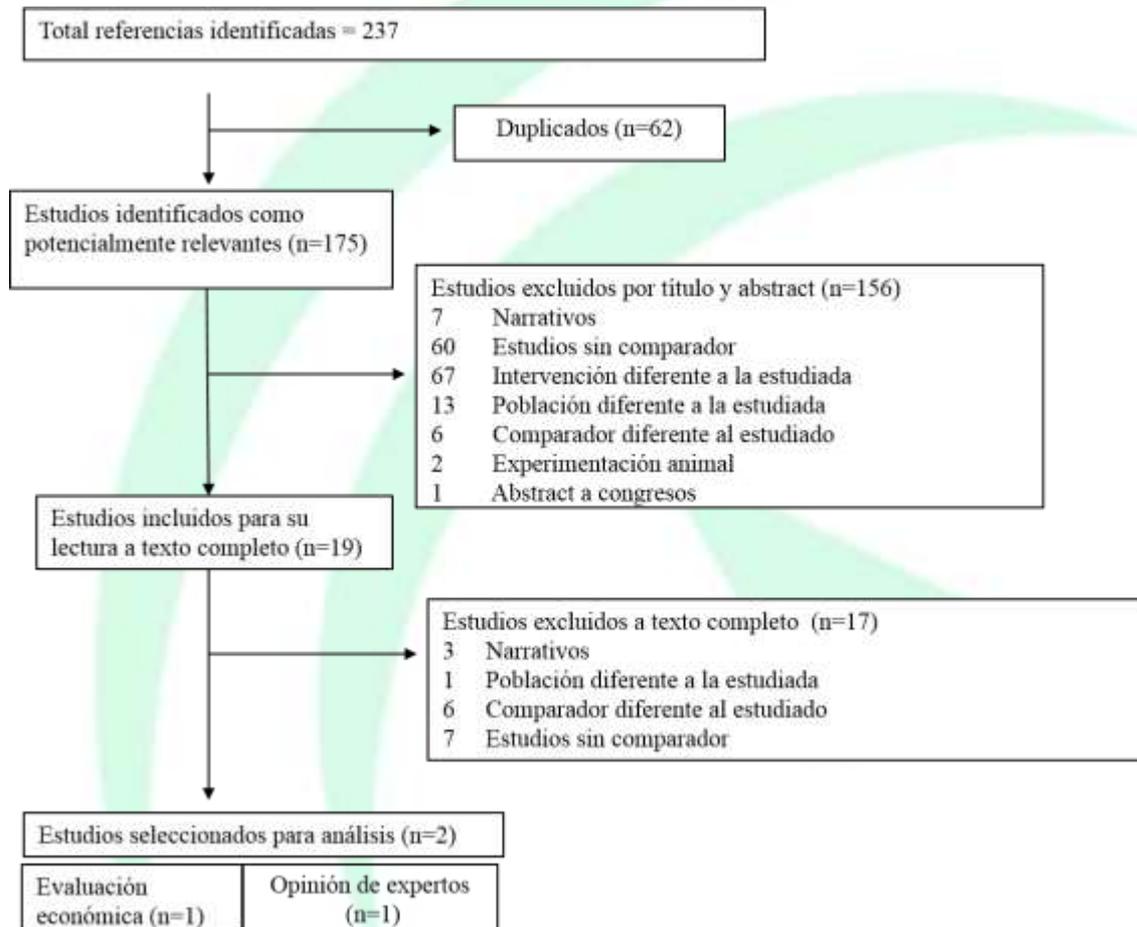
Resultados

Resultados de la búsqueda

De 237 documentos encontrados, se localizaron 175 sin duplicados. Tras realizar una primera selección sobre título y resumen se descartaron 156 documentos por no cumplir el objetivo de estudio o por estar incluidos en revisiones posteriores.

Finalmente, de los 19 seleccionados para lectura completa se incluyeron 2 documentos en el presente informe (una evaluación económica³ y un documento de recomendaciones basadas en opinión de expertos⁴). El diagrama de flujo se detalla en la siguiente figura (figura 1).

Figura 1. Diagrama de flujo.



Beneficios y riesgos del cribado

En la presente actualización no se han identificado documentos que modifiquen las conclusiones del informe publicado por el IACS en relación a este punto, por lo que se transcriben literalmente como resultados¹:

1. La evidencia científica sugiere que el **cribado universal de hipoacusia neonatal se asocia con beneficios en el desarrollo del habla y del lenguaje oral, la calidad de vida y el desarrollo general de los niños con hipoacusia permanente, bilateral y de intensidad**

moderada a profunda. Sin embargo, son necesarios más estudios que confirmen estos hallazgos y evalúen los programas de cribado actuales, sus potenciales riesgos y otras variables resultado como el rendimiento académico y social.

2. El cribado universal de hipoacusias neonatal reduce el retraso en el diagnóstico y el tratamiento de la pérdida auditiva permanente.
3. Existe un **acuerdo unánime en que debe realizar cribado universal de hipoacusias en neonatos.** Para reducir el impacto de la hipoacusia permanente durante la infancia, los expertos recomiendan diagnosticar la pérdida auditiva permanente en los primeros 3 meses e iniciar la intervención antes de los 6 meses de edad.
4. No se dispone de evidencia científica para determinar el balance de beneficios y riesgos del cribado de la hipoacusia después de superar el cribado neonatal y durante el periodo crítico de desarrollo del lenguaje en la infancia. Los expertos recomiendan controlar periódicamente la audición de todos los lactantes y preescolares, e individualizar la frecuencia y número de controles si presentan algún factor de riesgo de hipoacusia neurosensorial o de conducción.

Estrategia más eficiente

El informe elaborado por el IACS¹ establecía la siguiente conclusión en relación a este punto:

- No se dispone de evidencia de calidad que determine el coste-efectividad del cribado universal de hipoacusia neonatal frente a otras estrategias de diagnóstico de la pérdida auditiva permanente en la infancia. La evidencia sugiere que la técnica de cribado universal más eficiente desde la perspectiva del sistema sanitario es la técnica de otoemisiones acústicas (OEA). En la población de riesgo la opción más eficiente es la unión de OEA-PEATC.

En este sentido, se identificó una publicación del *International Pediatric Otolaryngology Group* de 2016 en la que se recogía la opinión de expertos sobre el cribado neonatal, el diagnóstico y posterior estudio de la hipoacusia sensorineural, conductiva o mixta⁴. En este documento no se especifica la metodología seguida para la elaboración de estas recomendaciones.

Como protocolo de trabajo, los expertos sugieren separar el cribado de neonatos de bajo riesgo de hipoacusia de los de alto riesgo, considerando como factores de alto riesgo los siguientes:

- Infecciones congénitas (*TORCH* toxoplasmosis, rubeola, citomegalovirus, herpes simple y VIH).
- Bajo peso al nacer (< 1.500 gramos).
- Niveles séricos de hiperbilirrubinemia que requieren exanguinotransfusión.
- Consumo de fármacos ototóxicos durante más de 5 días.
- Meningitis bacteriana.
- Ventilación mecánica durante más de 5 días.
- Trauma craneal.
- Anomalía neurodegenerativa.
- Estancia en UCI neonatal mayor a 5 días.
- Historia familiar de hipoacusia.

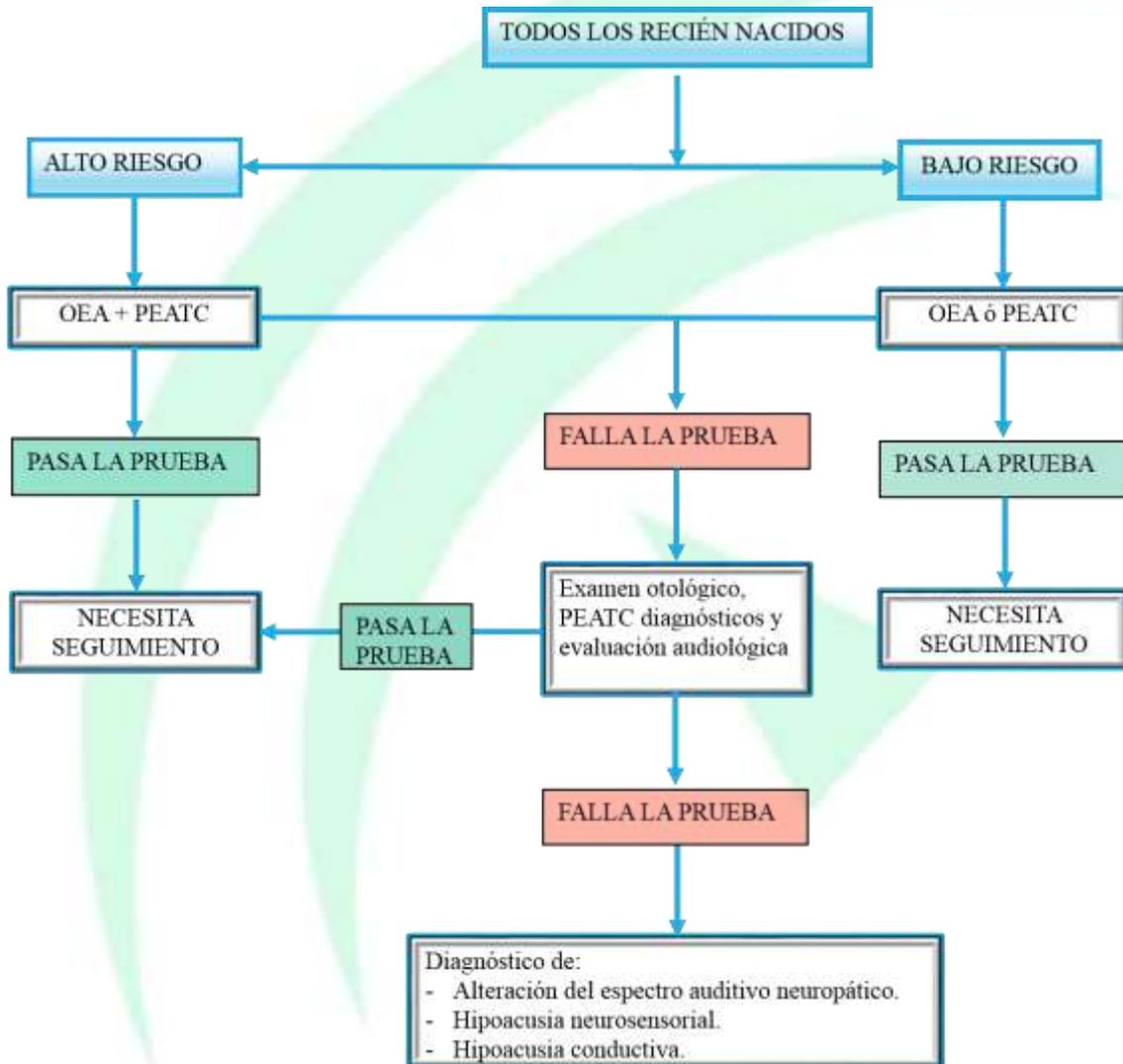
Para este caso, alto riesgo, sugieren la realización de ambas pruebas (OEA + PEATC).

Para el resto de neonatos, bajo riesgo, recomiendan la realización de alguna de ellas (OEA ó PEATC), sin especificar cuál de las dos es más coste-efectiva. En este sentido sólo hacen el

siguiente comentario: “Muchas instituciones utilizan los PEATC como prueba de cribado para todos los neonatos. Esta técnica les permite identificar alteraciones del espectro de la neuropatía auditiva no sindrómicas. Si es la OEA la prueba utilizada como técnica inicial del cribado, un resultado fallido en ella debe acompañarse de la realización de PEATC antes de pasar al siguiente nivel de atención del cribado (ver algoritmo)”.

Para mayor información se muestra a continuación el algoritmo de cribado propuesto por los expertos de este grupo (figura 2).

Figura 2. Cribado y estudio inicial según el International Pediatric Otolaryngology Group⁴.



Finalmente, además del consenso de expertos, se incluyó en este documento una evaluación económica³ con aproximación a cribado universal, que complementa a las 9 ya incluidas en el informe del IACS¹ (en el anexo 4 se aportan las referencias de las 9 evaluaciones económicas, así como su síntesis de la evidencia). Para su análisis se presenta la descripción de la misma siguiendo el mismo patrón utilizado por dicho informe¹.

Descripción de la evaluación económica

La evaluación económica³ realizada en Taiwán (es la segunda identificada en este país, en el informe del IACS¹ se incluía una de 2007), fue publicada en una revista de especialidades (*International Journal of Audiology*) en el año 2017.

Por su tipología, se trata de un análisis de coste-utilidad, utilizando como medida de efectividad los años de vida ajustados por discapacidad (AVAD).

La población estudiada incluía recién nacidos, dividiéndolos en dos grupos iniciales: bebés sanos y bebés enfermos, sin especificar el tipo de enfermedad o la existencia de posibles factores de riesgo asociados a hipoacusia.

Respecto a la perspectiva del análisis empleada, el estudio adoptó la del conjunto de la sociedad, sin especificar de forma explícita el horizonte temporal utilizado, aunque parece tener en cuenta toda la vida.

El modelo empleado fue un análisis de Markov en el que consideraron las siguientes intervenciones comparadas:

- Cribado universal con OEA.
- Cribado universal con PEATC
- No cribar.

La fuente de información utilizada para obtener los datos empleados fueron la literatura y fuentes primarias de información (datos de utilización de servicios propios y precio de los mismos). Con estos datos se contabilizaron los costes directos sanitarios de la técnica analizada (cribado, equipamiento, atención ambulatoria o especializada...), utilizando como unidad monetaria el dólar de EEUU (\$). La tasa de descuento aplicada fue del 3 %, haciendo mención específica de aplicación al descuento de costes y de efectividad.

Además, los autores realizaron un análisis de sensibilidad determinístico y probabilístico con resultado similar en ambos, utilizando como parámetro las variaciones en la efectividad de los programas de cribado.

Respecto a sus resultados, los autores presentaron tanto el cribado universal con OEA como con PEATC como intervenciones coste-efectivas, siendo ambas opciones dominantes frente a la opción de no cribar.

En la alternativa de OEA, el coste total y la utilidad por niño cribado fueron de 1.130 \$ y 78,9880 AVAC. Esta opción reducía costes (15,9 \$) y aumentaba los AVAC (0,0036 AVAC) al ser comparada con la opción de no cribar.

En la alternativa de PEATC sucedía algo similar, resultando también dominante frente a no cribar. Comparada con la opción de OEA, los PEATC tenía un mayor coste (1,9 \$) pero mayor ganancia en AVAC (0,00056 AVAC), siendo el coeficiente coste-utilidad incremental de PEATC frente a OEA de 3.393.

Según este estudio, dada una disponibilidad a pagar de 20.000 \$, la probabilidad de los PEATC de ser una opción coste-efectiva, frente a la de OEA, es mayor del 90 %.

Los autores concluyeron que el cribado universal de hipoacusia con PEATC era la opción más económica desde una perspectiva social. En la tabla 5 se presentan los resultados de este estudio de forma detallada.

Tabla 5. Análisis de coste-utilidad para PEATC y OEA comparado con ausencia de cribado³.					Coste-utilidad incremental	
Estrategia	Coste	Coste incremental	AVAC	AVAC incremental	Frente a no cribar	Frente a OEA
PEATC	1.131,9	14,09	78,9886	-0,0031	-4545,45	3393
OEA	1.130	15,9	78,9880	-0,0025	-6309,52	-
No cribar	1.145,8		78,9855	-	-	-

Como ya se ha especificado antes, para mayor información de este punto se presentan en el anexo 4 las tablas de síntesis donde se resumen las características de las 10 evaluaciones económicas identificadas sobre cribado universal neonatal de hipoacusias en las que se sustentan las conclusiones del informe elaborado por el IACS¹ y de este documento.

Conclusiones

- En 2016, la Red Española de Agencias de Evaluación de Tecnologías Sanitarias (Instituto Aragonés de Ciencias de la Salud, IACS) publicó un informe sobre efectividad, seguridad y evaluación económica de las diferentes alternativas existentes en la detección precoz de la hipoacusia en la edad pediátrica. Entre los objetivos de este documento se encontraba el de establecer cuál es la estrategia más eficiente para identificar a los niños (recién nacidos) con hipoacusia. Para ello elaboraron una revisión sistemática con documentos publicados hasta diciembre de 2013.
- Según los autores de dicho documento, no se dispone de evidencia de calidad que determine el coste-efectividad del cribado universal de hipoacusia neonatal frente a otras estrategias de diagnóstico de la pérdida auditiva permanente en la infancia. La evidencia sugiere que **la técnica de cribado universal más eficiente desde la perspectiva del sistema sanitario es la técnica de OEA. En la población de riesgo la opción más eficiente es la unión de OEA-PEATC.**
- La documentación consultada describe el uso tanto de OEA como de PEATC de forma indiferente en los protocolos establecidos en distintos países y regiones. Cada protocolo se basa en las necesidades y particularidades del sistema que pone en marcha el cribado de hipoacusia pero no se han identificado evaluaciones de esos programas a largo plazo que permitan la comparación de ambas técnicas.
- La evaluación económica identificada en la actualización de este informe sugiere que la técnica de cribado más coste-efectiva desde la perspectiva social es la técnica de PEATC.
- **Los resultados de esta actualización son insuficientes para modificar la conclusión incluida en el informe del IACS.** No resultan comparables con nuestro sistema ya que se basan en datos propios de Taiwán. Sería necesaria la realización de una evaluación económica en la que se comparasen ambas técnicas utilizando datos autonómicos para poder establecer la dominancia de una sobre otra.

Referencias bibliográficas

1. Ridao Lopez M, Gavín Benavent P, Martín Sánchez JI, Bernal Delgado E. Programa de actividades de detección precoz de problemas de salud entre los 0 y 14 años. Efectividad, seguridad y evaluación económica de las diferentes alternativas existentes en la detección precoz de la hipoacusia en la edad pediátrica. Ministerio de Sanidad, Servicios Sociales e Igualdad. Instituto Aragonés de Ciencias de la Salud; 2016. Informes de Evaluación de Tecnologías Sanitarias: IACS.
2. Wroblewska-Seniuk KE, Dabrowski P, Szyfter W, Mazela J. Universal newborn hearing screening: methods and results, obstacles and benefits. *Pediatr Res.* 2017;81:415-22.
3. Chiou ST, Lung HL, Chen LS, Yen AMF, Fann JCY, Chiu SYH, et al. Economic evaluation of long-term impacts of universal newborn hearing screening. *Int J Audiol.* 2017;56:46-52.
4. Liming BJ, Carter J, Cheng A, Choo D, Curotta J, Carvalho D, et al. International pediatric otolaryngology group (IPOG) consensus recommendations: Hearing loss in the pediatric patient. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2016;90:251-8.

Las referencias de las evaluaciones económicas se encuentran en el anexo 4.

Anexos

Anexo 1: Criterios para la toma de decisiones estratégicas respecto a los programas de cribado poblacional del informe del IACS

Texto extraído del documento¹:

“Programa de actividades de detección precoz de problemas de salud entre los 0 y 14 años: Efectividad, seguridad y evaluación económica de las diferentes alternativas existentes en la detección precoz de la hipoacusia en la edad pediátrica.”

A continuación se da respuesta a los 18 criterios que figuran en el “Documento Marco sobre Cribado Poblacional”, aprobado por la Comisión de Salud Pública del Consejo Interterritorial del SNS para la toma de decisiones estratégicas a la hora de implantar programas de cribado poblacional.

El objetivo fundamental del cribado de la hipoacusia es la detección, diagnóstico y tratamiento, precoces, de la hipoacusias congénitas permanentes, bilaterales y de intensidad moderada a profunda, es decir, aquellas que son importantes por su repercusión en el desarrollo del lenguaje.

Criterios relativos al problema de salud.

1. *¿Es la enfermedad a cribar un importante problema de salud?*

La hipoacusia neonatal es un problema de salud con graves consecuencias para la adquisición y desarrollo del lenguaje, el aprendizaje, el pensamiento, la comunicación y las relaciones sociales. Las personas afectadas tienen peores expectativas laborales y profesionales. Además, los niños con sordera congénita presentan con mayor frecuencia un desarrollo motor más lento y problemas emocionales y de conducta.

La incidencia de las hipoacusias congénitas permanentes, bilaterales y de intensidad moderada a profunda es elevada con una incidencia de 1 a 3 por cada 1.000 recién nacidos vivos. Según los datos del Instituto Nacional de Estadística del año 2008 en España nacieron 1.400 niños con deficiencia auditiva. Según los datos de la Comisión para la Detección Precoz de la Hipoacusia en recién nacidos (CODEPEH) del año 2000, el 80 % de las sorderas infantiles están presentes en el momento del nacimiento.

Cumplimiento criterio 1: Sí.

2. *¿La enfermedad tiene criterios diagnósticos bien definidos? ¿Se conoce bien la historia natural de la enfermedad?*

El diagnóstico de la deficiencia auditiva, incluye la determinación de los umbrales para las diferentes bandas frecuenciales en cada oído y la localización de la lesión que genera dicha hipoacusia. Los métodos diagnósticos deben ser apropiados a la edad mental y a las características del comportamiento del sujeto. La hipoacusia se clasifica en leve, moderada, grave y profunda en función de la pérdida tonal media en conducción aérea en las frecuencias de 500, 1.000 y 2.000 Hz sobre el mejor oído. En caso de hipoacusia moderada (41 a 70 dB), se aprecian dificultades con la voz normal lo que genera problemas en la adquisición del lenguaje. En casos de pérdida auditiva severa (71 a 90 dB) o profunda (> 90 dB) la palabra no se percibe.

El proceso de adquisición del lenguaje se produce en un periodo crítico que va desde el nacimiento hasta el cuarto año de vida. En este periodo se establecen las características morfológicas y funcionales definitivas de las áreas corticales del lenguaje y audición que no se desarrollaran de forma adecuada si existe privación sensorial. La maduración (sinaptogénesis y mielogénesis) de la vía auditiva pretalámica se completa al final del primer año y la postalámica al final del tercer año. Los cambios estructurales y funcionales que tienen lugar en la vía auditiva debido a la hipoacusia son parcialmente reversibles si se realiza una intervención lo suficientemente temprana. Este efecto no se produce si no se interviene a tiempo lo que indica que es necesario tratar lo antes posible a los niños con pérdida auditiva permanente.

Cumplimiento criterio 2: Sí.

3. ¿Existe un periodo de latencia detectable presente en más del 80 % de los casos y lo suficientemente largo como para que el programa de cribado pueda alcanzar el beneficio esperado con la intervención?

La hipoacusia congénita ya está presente en el momento en que se realiza la prueba de cribado; en este caso no es apropiado hablar de periodo de latencia. No obstante, es fundamental tener en cuenta que el tratamiento ha de llevarse a cabo lo antes posible, cuando la plasticidad de la vía auditiva es mayor. Iniciar el tratamiento en los primeros seis meses es especialmente crítico para lograr el máximo beneficio sobre la adquisición y desarrollo del lenguaje.

4. ¿Cuáles son las medidas de prevención y control de la enfermedad que están implantadas, y en qué grado?

En la actualidad no hay implementadas medidas de prevención primaria de la enfermedad. En el momento actual todas las CCAA han implantado un programa universal de detección precoz de la hipoacusia en recién nacidos.

Cumplimiento criterio 4: Sí.

5. ¿Existe una prueba inicial de cribado simple y segura?

El cribado de la hipoacusia neonatal implica el uso de medidas fisiológicas objetivas. En la actualidad las pruebas aceptadas internacionalmente para la realización del cribado auditivo son las otoemisiones acústicas (OEA) y los potenciales evocados auditivos troncoencefálicos automáticos (PEATCa). Las OEA es una prueba rápida (2 — 3 minutos por oído), sencilla de realizar y fácil de interpretar. Su desventaja es que no detectan las hipoacusias retrococleares. Los PEATCa evalúan la actividad de la vía auditiva desde el extremo distal del nervio auditivo hasta el mesencéfalo. Son tan rápidos y sencillos como los OEA. Ambas técnicas son procedimientos no invasivos que muestran una elevada correlación con el grado de sensibilidad auditiva periférica.

Cumplimiento criterio 5: Sí.

6. ¿Es la prueba válida, fiable y eficiente?

Los programas de cribado universal de la hipoacusia neonatal con frecuencia aplican las dos pruebas de forma secuencial para mejorar el rendimiento, utilizando OEA seguido de PEATC en aquellos que fallan la primera prueba. Un ensayo de gran tamaño muestral calculó para esta

estrategia una sensibilidad del 92 % y una especificidad del 98 %.

Cumplimiento criterio 6: Sí.

7. ¿Existen datos preliminares sobre la aceptabilidad de la prueba de cribado en la población diana (estudios piloto)?

Uno de los objetivos comunes a todos los programas que se llevan a cabo en las CCAA es informar a los padres de las características de la prueba y registrar, en su caso, la aceptación o la negativa. El programa gallego consigue una tasa de participación superior al 99 % entre 2004 y 2007. En Cantabria el índice de participación en 2009 también fue superior al 99 %. Estos datos sugieren que la aceptación de la prueba de cribado es elevada.

Cumplimiento criterio 7: Sí.

8. ¿Son los criterios para seleccionar las mutaciones a cribar explícitos?

Este criterio no es aplicable al cribado de la hipoacusia en el recién nacido.

Criterios relativos al diagnóstico de confirmación y al tratamiento

9. ¿Existe acuerdo basado en la evidencia científica sobre el proceso diagnóstico y el tratamiento subsiguiente?

El *European Consensus Development Conference on Neonatal Hearing Screening* en 1998, el *Joint Committee on Infant Hearing* en 2007 y la CODEPEH en 2010, recomiendan que el diagnóstico se confirme antes de los 3 meses y que la intervención se inicie antes de los 6 meses de edad.

La CODEPEH elaboró un documento con las recomendaciones de mínimos que debieran incluirse en los programas (detección, diagnóstico e intervención precoz). La fase de diagnóstico debe realizarse en unidades con el equipamiento suficiente y personas con la experiencia adecuada. El médico otorrinolaringólogo de la unidad realizará el diagnóstico y prescribirá el tratamiento quirúrgico y/o audióprotésico adecuado en cada caso. La fase de intervención debe incluir a todos los profesionales que participan en el control sanitario, educativo y social del niño con hipoacusia (otorrinolaringólogos, pediatras audiólogos logopedas, audioprotesistas, educadores, psiquiatras, psicólogos, etc.).

Cumplimiento criterio 9: Sí.

10. ¿Existe una intervención terapéutica o preventiva efectiva que suponga una mejora del pronóstico de la enfermedad, en cuanto a supervivencia y/o la calidad de vida, y que sea más efectivo si se aplica en fase de latencia que en fase sintomática?

La evidencia sugiere que la intervención (protésica, quirúrgica, logopédica, etc.) antes de los seis meses de edad mejora significativamente el desarrollo del vocabulario, lenguaje receptivo, lenguaje expresivo, sintaxis, expresión oral y desarrollo social y emocional. En ausencia de cribado auditivo universal la edad media de diagnóstico tanto en Europa como en los Estados Unidos es superior a un año.

Cumplimiento criterio 10: Sí.

11. *¿Cuál es la atención sanitaria habitual que se ofrece a este problema de salud?*

El 80 % de las hipoacusias moderadas a profundas son congénitas y, previsiblemente se detectan en el marco de los programas de las CCAA. Los programas de detección precoz de la hipoacusia de las distintas CCAA constan de unos contenidos mínimos y básicos comunes a todos ellos, que se enumeran a continuación: 1) Detección precoz durante el primer mes de vida mediante cribado universal; 2) Acceso a la fase de diagnóstico a los tres meses o antes; 3) Tratamiento instaurado a los seis meses; 4) Seguimiento de todos los casos detectados.

[Cumplimiento criterio 11](#): Sí.

Criterios relativos al programa

12. *¿Existe evidencia científica de suficiente calidad sobre la eficacia del cribado en cuanto a reducción de la mortalidad o la morbilidad?*

Los resultados de todos los estudios incluidos en la presente revisión apuntan en el mismo sentido, los programas de cribado de la hipoacusia parecen tener un efecto beneficioso sobre el lenguaje y el desarrollo en general de los niños con sordera congénita permanente, bilateral y de moderada a profunda. Son necesarios estudios poblacionales a gran escala de mayor calidad metodológica que confirmen estos hallazgos.

[Cumplimiento criterio 12](#): Parcialmente (evidencia insuficiente).

13. *¿Los beneficios previstos superan los potenciales riesgos?*

Los riesgos potenciales del cribado universal de hipoacusias en neonatos no se han estudiado con precisión, aunque la evidencia sugiere que son leves y transitorios. La reacción habitual de los padres después de un resultado inicial positivo es de preocupación y ansiedad. En la mayoría de los casos estas emociones negativas se resuelven cuando el resultado de la prueba de confirmación es normal. Según 3 estudios de cohortes de baja calidad, los falsos positivos causan ansiedad significativa o de larga duración en el 3,5 % al 14 % de los padres.

[Cumplimiento criterio 13](#): Parcialmente (evidencia insuficiente).

14. *¿Cuál es la población diana definida?*

La población diana son todos los recién nacidos en maternidades públicas y privadas.

[Cumplimiento criterio 14](#): Sí.

15. *¿Existe una evaluación económica del programa metodológicamente adecuada?*

Las evaluaciones económicas incluidas en la presente revisión no cumplen unos requisitos mínimos de calidad, en la mayoría el periodo de estudio es de corto plazo y las medidas de efectividad finales son intermedias (casos cribados o bien casos detectados). En ninguna evaluación se analizan los años de vida ajustados por calidad de vida (AVAC). El único estudio sobre el coste-efectividad a

largo plazo del cribado universal de hipoacusias en neonatos, comparado con el cribado en población de riesgo, encuentra que el cribado universal podría ser coste-efectivo si la intervención precoz se traduce en una reducción de los futuros costes derivados del tratamiento y de la futura pérdida de productividad. El problema estriba en que este resultado responde a una serie de asunciones favorables respecto a la efectividad del cribado en términos de desarrollo del lenguaje y rendimiento académico que no han sido demostrados de forma concluyente en estudios poblacionales a gran escala.

[Cumplimiento criterio 15:](#) No.

16. El programa completo ¿es aceptable desde un punto de vista sanitario, social y ético?

De momento no se dispone de estudios de base poblacional sobre la aceptabilidad del cribado universal de hipoacusias en neonatos. No obstante, los datos disponibles de participación superior al 99 % sugieren que los programas de cribado universal de hipoacusias en neonatos cuentan con la aprobación social, clínica y ética, tanto por parte de los profesionales sanitarios como de la población general.

Las consideraciones éticas, como el equilibrio entre beneficios y riesgos del programa completo, la equidad en el acceso, el respeto a la autonomía, y el derecho a la intimidad y la confidencialidad, son importantes. En un programa de cribado los derechos del niño y la familia se garantizan en la elección informada, en la toma de decisión y en el consentimiento informado. Por el momento, no se dispone de valoraciones de buena calidad sobre los efectos secundarios que pudiera tener el programa de cribado universal de hipoacusias neonatales en términos de etiquetado, pruebas innecesarias, ansiedad, estigmatización del niño o trastornos que no fueron diagnosticados.

[Cumplimiento criterio 16:](#) Parcialmente.

17. ¿Los resultados finales del programa están definidos y son medibles?

Los resultados finales de los programas de detección precoz de la hipoacusia en el recién nacido son los concernientes al desarrollo del lenguaje, desarrollo social y desarrollo emocional de los casos con deficiencia auditiva permanente. Se han definido indicadores de calidad (cobertura, proceso y resultado) comunes a todos los programas implantados en España pero los resultados finales del programa no están definidos, no existen estándares, luego no pueden medirse.

[Cumplimiento criterio 17:](#) No.

18. ¿Es el programa factible dentro del SNS?

En la actualidad, en todas las CCAA se llevan a cabo programas universales de detección precoz de la hipoacusia neonatal.

Anexo 2. Factores de riesgo asociados a hipoacusia adquirida o progresiva

Según el *Joint Committee on Infant Hearing*, los factores de riesgo que se asocian con aparición de hipoacusia neurosensorial adquirida o progresiva son los siguientes¹:

- Preocupación de los padres o cuidadores porque sospechan que el niño o niña pueda presentar alteraciones en la audición, el habla, el lenguaje o un retraso en el desarrollo.
- Antecedentes familiares de pérdida permanente de la audición durante la infancia.
- Haber sido tratado con oxigenación con membrana extracorpórea (ECMO).
- Infección por citomegalovirus.
- Síndromes asociados con pérdida auditiva progresiva como neurofibromatosis, osteopetrosis y síndrome de Usher.
- Síndromes neurodegenerativos como el síndrome de Hunter.
- Infecciones postnatales con confirmación microbiológica asociadas con pérdida auditiva neurosensorial, incluidas las meningitis bacterianas y virales (sobre todos virus herpes y varicela) confirmadas.
- Traumatismo de la base del cráneo o del hueso temporal que requiera hospitalización.
- Quimioterapia.

Anexo 3. Estrategias de búsqueda

EMBASE

- #1. 'hearing impairment'/exp OR 'congenital deafness'/exp OR 'bilateral hearing loss'/exp OR 'conduction deafness'/exp OR 'functional hearing loss'/exp OR 'high frequency hearing loss'/exp OR 'perception deafness'/exp OR 'central hearing loss'/exp OR 'noise injury'/exp OR 'presbycusis'/exp OR 'usher syndrome'/exp OR 'sudden deafness'/exp
- #2. pchi:ti,ab OR deaf*:ti,ab OR 'auditory neuropathy':ti,ab
- #3. (hearing NEAR/3 (loss OR impair* OR disorder*)):ti,ab
- #4. #1 OR #2 OR #
- #5. 'unilateral hearing loss'/exp AND 'mass screening'/exp
- #6. 'newborn screening'/exp
- #7. screen*:ti,ab OR detect*:ti,ab OR diagnos*:ti,ab OR test*:ti,ab OR identif*:ti,ab
- #8. 'early diagnosis'/exp
- #9. (earl* NEAR/3 (diagnos* OR detec*)):ti,ab
- #10. #5 OR #6 OR #7 OR #8 OR #9
- #11. #4 AND #10
- #12. 'evoked brain stem auditory response'/exp OR 'spontaneous otoacoustic emission'/exp
- #13. 'auditory brainstem response':ti,ab OR abr:ti,ab OR aabr:ti,ab OR 'otoacoustic emission*':ti,ab OR oae:ti,ab OR aoae:ti,ab OR teoae:ti,ab OR dpoae:ti,ab
- #14. abr? OR aabr?
- #15. #12 OR #13 OR #14
- #16. #11 AND #15
- #17. 'conference abstract'/it OR 'conference paper'/it OR 'note'/it OR 'short survey'/it
- #18. #16 NOT #17
- #19. #18 AND [embase]/lim NOT [medline]/lim AND [2014-2017]/py AND [newborn]/lim

MEDLINE

- #1. hearing loss/ or deafness/ or hearing loss, bilateral/ or hearing loss, conductive/ or hearing loss, functional/ or hearing loss, high-frequency/ or hearing loss, mixed conductive-sensorineural/ or hearing loss, sensorineural/ or hearing loss, central/ or hearing loss, noise-induced/ or presbycusis/ or usher syndromes/ or hearing loss, sudden/ or hearing loss, unilateral/
- #2. (PCHI or deaf* or auditory neuropathy).tw.
- #3. (hearing adj3 (loss or impair\$ or disorder*)).tw.
- #4. 1 or 2 or 3
- #5. mass screening/ and Infant, Newborn/
- #6. neonatal screening/
- #7. (screen* or detect* or diagnos* or test* or identif*).ti,ab.
- #8. early diagnosis/
- #9. (earl* adj3 (diagnos* or detec*)).ti,ab.
- #10. 5 or 6 or 7 or 8 or 9
- #11. 4 and 10
- #12. exp Evoked Potentials, Auditory, Brain Stem/ or exp Otoacoustic Emissions, Spontaneous/
- #13. (auditory brainstem response or ABR or AABR or otoacoustic emission* or OAE or AOAE or TEOAE or DPOAE).tw.
- #14. (abr? or aabr?).tw.
- #15. 12 or 13 or 14
- #16. 11 and 15
- #17. (letter or "case report*" or "historical article*" or (comment or editorial or in vitro or news)).pt.
- #18. 16 not 17
- #19. animals/ not (animals/ and humans/)
- #20. 18 not 19
- #21. limit 20 to (yr="2014 -Current" and "newborn infant (birth to 1 month)" and (english or french or spanish))

WOS

- #1. TS= (hearing NEAR/3 (loss or impair* or disorder*))
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #2. TS=(PCHI or deaf* or auditory neuropathy)
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #3. TS=(neonatal screening)
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #4. TS=(screen* or diagnos*)
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #5. TS=(early diagnosis)
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #6. #2 OR #1
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #7. #5 OR #4 OR #3
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #8. #7 AND #6
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #9. TS=(Evoked Potential Auditory Brainstem)
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #10. TS=(auditory brainstem response or ABR or AABR or otoacoustic emission* or OAE or AOAE or TEOAE or DPOAE)
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #11. #10 OR #9
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #12. #11 AND #8
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #13. TS=(newborn*)
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017
- #14. #13 AND #12
Índices=SCI-EXPANDED Período de tiempo=2014-2017

COCHRANE

- #1. [mh "hearing loss"] or [mh deafness] or [mh "hearing loss bilateral"] or [mh "hearing loss conductive"] or [mh "hearing loss functional"] or [mh "hearing loss high-frequency"] or [mh "hearing loss mixed conductive-sensorineural"] or [mh "hearing loss sensorineural"] or [mh "hearing loss central"] or [mh "hearing loss noise-induced"] or [mh presbycusis] or [mh "usher syndromes"] or [mh "hearing loss sudden"] or [mh "hearing loss unilateral"]
- #2. (PCHI or deaf* or "auditory neuropathy"):ti,ab
- #3. (hearing near/3 (loss or impair* or disorder*)):ti,ab
- #4. #1 or #2 or #3
- #5. [mh "mass screening"] and [mh "Infant, Newborn"]
- #6. [mh "neonatal screening"]
- #7. (screen* or detect* or diagnos* or test* or identif*):ti,ab
- #8. [mh "early diagnosis"]
- #9. (earl* near/3 (diagnos* or detec*)):ti,ab
- #10. #5 or #6 or #7 or #8 or #9
- #11. #4 and #10
- #12. [mh "Evoked Potentials Auditory Brain Stem"] or [mh "Otoacoustic Emissions Spontaneous"]
- #13. ("auditory brainstem response" or ABR or AABR or "otoacoustic emission*" or OAE or AOAE or TEOAE or DPOAE):ti,ab
- #14. (abr? or aabr?):ti,ab
- #15. #12 or #13 or #14
- #16. #11 and #15
- #17. (newborn* or neonat* or birth):ti,ab
- #18. #16 and #17 Publication Year from 2014 to 2017

Cinahl

- S1.** (MH "Hearing Disorders") OR (MH "Deafness") OR (MH "Hearing Loss, Conductive") OR (MH "Hearing Loss, Functional") OR (MH "Hearing Loss, High-Frequency") OR (MH "Hearing Loss, Sensorineural") OR (MH "Hearing Loss, Noise-Induced") OR (MH "Hearing Loss, Central") OR (MH "Presbycusis") OR (MH "Usher's Syndrome") OR (MH "Hearing Loss, Partial")
- S2.** TI (PCHI or deaf* or auditory neuropathy) OR AB (PCHI or deaf* or auditory neuropathy)
- S3.** TI (hearing N3 (loss or impair\$ or disorder*) OR AB (hearing N3 (loss or impair\$ or disorder*))
- S4.** S1 OR S2 OR S3)
- S5.** (MH "Health Screening") AND (MH "Infant, Newborn")
- S6.** (MH "Neonatal Assessment")
- S7.** TI (screen* or detect* or diagnos* or test* or identif*) OR AB (screen* or detect* or diagnos* or test* or identif*)
- S8.** (MH "Early Diagnosis")
- S9.** TI (earl* N3 (diagnos* or detec*)) OR AB (earl* N3 (diagnos* or detec*))
- S10.** (S5 OR S6 OR S7 OR S8 OR S9)
- S11.** S4 AND S10
- S12.** (MH "Evoked Potentials, Auditory, Brainstem") OR (MH "Otoacoustic Emissions, Spontaneous")
- S13.** TI (auditory brainstem response or ABR or AABR or otoacoustic emission* or OAE or AOAE or TEOAE or DPOAE) OR AB (auditory brainstem response or ABR or AABR or otoacoustic emission* or OAE or AOAE or TEOAE or DPOAE)
- S14.** TI (abr? or aabr?) OR AB (abr? or aabr?)
- S15.** S12 OR S13 OR S14
- S16.** S11 AND S15 Fecha de publicación: 20140101-20170531; Excluir registros MEDLINE; Humano; Grupos de edad: Infant, Newborn: birth-1 month

Anexo 4: Tablas de síntesis de la evidencia encontrada en las evaluaciones económicas

En las siguientes tablas se recoge la evidencia de las evaluaciones económicas identificadas por el informe del IACS¹ y la presente actualización.

Las referencias de estos estudios son las siguientes:

1. Granell J, Gavilanes J, Herrero J, Sánchez-Jara JL, Velasco MJ, Martín G. Cribado universal de la hipoacusia neonatal: ¿es más eficiente con potenciales evocados auditivos que con emisiones otoacústicas? *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2008;59:170-5.
2. Vohr BR, Oh W, Stewart EJ, Bentkover JD, Gabbard S, Lemons J, et al. Comparison of costs and referral rates of 3 universal newborn hearing screening protocols. *J Pediatr.* 2001;139:238-44.
3. Uus K, Bamford J, Taylor R. An analysis of the costs of implementing the National Newborn Hearing Screening Programme in England. *J Med Screen.* 2006;13:14-9.
4. Lemons J, Fanaroff A, Stewart EJ, Bentkover JD, Murray G, Diefendorf A. Newborn hearing screening: costs of establishing a program. *J Perinatol.* 2002;22:120-4.
5. Boshuizen HC, van der Lem GJ, Kauffman-de Boer MA, van Zanten GA, Oudesluys-Murphy AM, Verkerk PH. Costs of different strategies for neonatal hearing screening: a modelling approach. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed.* 2001;85:F177-F181.
6. Lin HC, Shu MT, Lee KS, Lin HY, Lin G. Reducing false positives in newborn hearing screening program: how and why. *Otol Neurotol.* 2007;28:788-92.
7. Kezirian EJ, White KR, Yueh B, Sullivan SD. Cost and cost-effectiveness of universal screening for hearing loss in newborns. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2001;124:359-67.
8. Olusanya BO, Emokpae A, Renner JK, Wirz SL. Costs and performance of early hearing detection programmes in Lagos, Nigeria. *Trans R Soc Trop Med Hyg.* 2009;103:179-86.
9. Uilenburg N, Kauffman-de BM, van der PK, Oudesluys-Murphy AM, Verkerk P. An implementation study of neonatal hearing screening in the Netherlands. *Int J Audiol.* 2009;48:108-16.
10. Chiou ST, Lung HL, Chen LS, Yen AMF, Fann JCY, Chiu SYH, et al. Economic evaluation of long-term impacts of universal newborn hearing screening. *Int J Audiol.* 2017;56:46-52.

Tabla 6. Tablas de síntesis de la evidencia (evaluaciones económicas)^{1,3}

Autor (año) País	Edad (población)	Perspectiva. Horizonte temporal. Modelo	Intervenciones comparadas	Medida de resultados. Fuente de información	Medida de coste (año) Fuente de información	Análisis de sensibilidad. Descuento	Resultados	Recomendación del artículo. Dominancia. Financiación
Vorh et al. (2001) EEUU	Recién nacidos (12.178)	Hospital 1 año Análisis de decisiones	OEA PEATC OEA-PEATC	Coste por niño explorado. Coste por caso detectado. Estudio propio	Costes directos (\$USA, 1998). Tarifas	Sí No	Coste por niño explorado: - OEA: 28,69 - PEATC: 31,81 - OEA-PEATC: 33 Coste por caso detectado: - OEA: 14.347 - PEATC: 16.405 - OEA-PEATC: 16.528	PEATC No No
Boshuizen et al. (2001) Holanda	Recién nacidos	Social No explícito Análisis de decisiones	PEATC en 2 ó 3 fases. OEA en 2 ó 3 fases.	Coste por caso detectado. Bibliografía.	Costes directos e indirectos (€). Tarifas	Sí No	PEATC en 2 ó 3 fases: 39.000 OEA en 2 ó 3 fases: 25.000	OEA Sí Sí
Kezirian et al. (2001) EEUU	Recién nacidos (1.000)	Hospital. No explícito. Análisis de decisiones	PEATC en 2 fases. PEATC, OEA en 2 fases. OEA-PEATC	Coste por niño explorado. Bibliografía.	Costes directos (\$USA, 1999) Tarifas	Sí No	PEATC en 2 fases: 20,48 PEATC: 25,17 OEA-PEATC: 20,19	OEA en 2 fases Sí No
Lemons et al. (2002) EEUU	Recién nacidos (2942)	Hospital. 1 año Análisis de decisiones	PEATC OEA	Coste por niño explorado. Bibliografía	Costes directos (\$USA, 1999). Tarifas	No No	PEATC: 45,85 OEA: 58,07	PEATC Sí No

Tabla 6. Tablas de síntesis de la evidencia (evaluaciones económicas)^{1,3}. Continuación 1

Autor (año) País	Edad (población)	Perspectiva. Horizonte temporal. Modelo.	Intervenciones comparadas	Medida de resultados. Fuente de información	Medida de coste (año) Fuente de información	Análisis de sensibilidad. Descuento	Resultados	Recomendación del artículo. Dominancia. Financiación.
Uus et al. (2006) Reino Unido.	Recién nacidos (1.000)	Social. 10 años. No explícito	OEA-PEATC Test distracción (IDTS)	Coste por caso detectado. Bibliografía	Costes directos e indirectos (£, 2003). Tarifas	Sí Sí	OEA-PEATC: 34.826 IDTS: 117.942	OEA-PEATC Sí Sí
Lin et al. (2007) Taiwán	Recién nacidos (25.588)	Hospital No explícito. No explícito	PEATC OEA-PEATC OEA	Coste por niño explorado. Estudio propio	Costes directos (\$USA, no explícito)	No No	PEATC: 7,32 OEA-PEATC: 10,04 OEA: 8,46	PEATC en 2 fases No No
Granell et al. (2008) España	Recién nacidos (3.162)	Sistema sanitario. 2 años. No explícito	OEA en 2 fases. PEATC en 2 fases	Coste por niño explorado. Estudio propio retrospectivo	Costes directos (\$USA, no explícito) Tarifas	No No	OEA en 2 fases: 10\$ PEATC en 2 fases: 15\$	OEA en 2 fases Sí No
Olusanya et al. (2009) Nigeria	Recién nacidos (3.333)	Sistema sanitario. 1 año. No explícito	OEA y PEATC en hospital. OEA y PEATC comunitario	Coste por niño explorado. Coste por caso detectado. Estudio propio	Costes directos (\$USA, no explícito). Tarifas	No No	Coste por niño explorado: OEA y PEATC en hospital: 7,62 — 12,27 OEA y PEATC comunitario: 13,3 — 73,24 Coste por caso detectado: OEA y PEATC en hospital: 602 — 714 OEA y PEATC comunitario: 2.764 — 4.631	OEA y PEATC comunitario. Sí Sí

Tabla 6. Tablas de síntesis de la evidencia (evaluaciones económicas)^{1,3}. Continuación 2

Autor (año) País	Edad (población)	Perspectiva. Horizonte temporal. Modelo	Intervenciones comparadas	Medida de resultados. Fuente de información	Medida de coste (año) Fuente de información	Análisis de sensibilidad. Descuento	Resultados	Recomendación del artículo. Dominancia. Financiación
Uilenburg et al. (2009) Holanda	Recién nacidos (3.137)	Sistema sanitario. 1 año. No explícito	OEA en 3 fases en clínica. OEA en 3 fases en casa – combinación enfermedades metabólicas. OEA en 3 fases en casa	Coste por caso detectado. Estudio propio	Costes directos (€). Bibliografía	No No	Coste por caso detectado: OEA en 3 fases en clínica: 35.000 OEA en 3 fases en casa – combinación enfermedades metabólicas: 41.500 OEA en 3 fases en casa: 61.800	OEA en 3 fases en casa – combinación enfermedades metabólicas. No Sí
Chiou et al. (2017) Taiwán	Recién nacidos	Social. No explícito. Modelo de Markov	OEA. PEATC No cribar	Coste por caso explorado. Bibliografía y datos propios	Costes directos (\$, no explícito) Tarifas	Sí Sí (3%)	OEA: 1.130 PEATC: 1.131,9 No cribar: 1.145,9	PEATC Sí No explícita