

# Programa de cribado de hipoacusia neonatal: revisión sistemática de estudios de evaluación económica y análisis descriptivo de los programas de las CC.AA.

## Informes de Evaluación de Tecnologías Sanitarias

INFORMES, ESTUDIOS E INVESTIGACIÓN



# Programa de cribado de hipoacusia neonatal: revisión sistemática de estudios de evaluación económica y análisis descriptivo de los programas de las CC.AA.

## Informes de Evaluación de Tecnologías Sanitarias

**INFORMES, ESTUDIOS E INVESTIGACIÓN**



MINISTERIO  
DE SANIDAD



RED ESPAÑOLA DE AGENCIAS DE EVALUACIÓN  
DE TECNOLOGÍAS Y PRÁCTICAS DEL SISTEMA NACIONAL DE SALUD



**EUSKO JAURLARITZA**  
**GOBIERNO VASCO**

OSASUN SAILA  
DEPARTAMENTO DE SALUD

**Eusko Jaurlaritzaren Argitalpen Zerbitzu Nagusia**

Servicio Central de Publicaciones del Gobierno Vasco

Vitoria-Gasteiz, 2020

Un registro bibliográfico de esta obra puede consultarse en el catálogo de la Red Bibliotekak del Gobierno Vasco: <http://www.bibliotekak.euskadi.eus/webOpac>

Edición: 1.ª, junio 2020

Internet: [www.euskadi.eus/publicaciones](http://www.euskadi.eus/publicaciones)

Edita: Ministerio de Sanidad  
Eusko Jaurlaritzaren Argitalpen Zerbitzu Nagusia  
Servicio Central de Publicaciones del Gobierno Vasco  
c/ Donostia-San Sebastián, 1 - 01010 Vitoria-Gasteiz

Fotocomposición: Ipar, S. Coop.  
Zurbaran, 2-4 (bajo) — 48007 Bilbao

NIPO: 731-19-066-4 (Ministerio de Sanidad)

Programa de cribado de hipoacusia neonatal: revisión sistemática de estudios de evaluación económica y análisis descriptivo de los programas de las CC.AA. Juan Carlos Bayón Yusta, Asun Gutiérrez Iglesias, Eva Reviriego Rodrigo, Lorea Galnares-Cordero. Vitoria-Gasteiz. Ministerio de Sanidad/ Jaurilaritzaren Argitalpen Zerbitzu Nagusia, Servicio Central de Publicaciones del Gobierno Vasco; 2020.

1 archivo pdf; (Informes, Estudios e Investigación)

NIPO: 731-19-066-4 (Ministerio de Sanidad)

Este documento ha sido realizado por OSTEBA, en el marco de la financiación del Ministerio de Sanidad, Consumo y Bienestar Social para el desarrollo de actividades del *Plan anual de trabajo de la Red Española de Agencias de Evaluación de Tecnologías y Prestaciones del SNS*, aprobado en el Pleno del Consejo Interterritorial del SNS de 15 de noviembre de 2018 (conforme al Acuerdo del Consejo de Ministros de 7 de diciembre de 2018).

Para citar este informe:

**Bayón Yusta JC, Gutiérrez Iglesias A, Reviriego Rodrigo E, Galnares-Cordero L.** Programa de cribado de hipoacusia neonatal: revisión sistemática de estudios de evaluación económica y análisis descriptivo de los programas de las CC.AA. Ministerio de Sanidad. Servicio de Evaluación de Tecnologías Sanitarias del País Vasco; 2020. **Informes de Evaluación de Tecnologías Sanitarias: OSTEBA.**

## Índice de autores

**Bayón-Yusta Juan Carlos.** Fundación Vasca de Innovación e Investigación Sanitarias, Dirección de Innovación Organizativa y de Gestión, Osteba, Barakaldo, España.

**Gutiérrez-Iglesias Asun.** Departamento de Salud del Gobierno Vasco, Dirección de Planificación, Ordenación y Evaluación Sanitarias, Osteba, Vitoria-Gasteiz, España.

**Reviriego-Rodrigo Eva.** Fundación Vasca de Innovación e Investigación Sanitarias, Dirección de Innovación Organizativa y de Gestión, Osteba, Barakaldo, España.

**Galnares-Cordero Lorea.** Fundación Vasca de Innovación e Investigación Sanitarias, Dirección de Innovación Organizativa y de Gestión, Osteba, Barakaldo, España.

## Revisión del Informe

**Galan-Cuesta Manuel.** Dirección General de Salud Pública de Cantabria, España.

**Martínez-Basterra Zuriñe.** Osakidetza, OSI Donostia, Hospital Universitario Donostia, Gipuzkoa, España.

## Agradecimientos

**Labrador Cañadas Maria Vicenta.** Unidad de Programas de Cribado. Dirección de Salud Pública, Calidad e Innovación. Ministerio de Sanidad, Consumo y Bienestar Social, Madrid, España.

**Miembros de la Ponencia de cribado poblacional de la Comisión de Salud Pública.**

## Declaración de conflicto de intereses

Los/as autores/as declaran no tener ningún conflicto de intereses en relación con este informe de evaluación.

## Desarrollo del proyecto

**Desarrollo científico y coordinación técnica:** Bayón-Yusta Juan Carlos, Gutiérrez-Iglesias Asun, Reviriego-Rodrigo Eva (Osteba).

**Documentación** Galnares-Cordero Lorea (Osteba).

**Edición y difusión:** Gutiérrez-Iglesias Asun, Borja-Morala Eneko, Reviriego-Rodrigo Eva y Galnares-Cordero Lorea (Osteba).

## Autor para correspondencia:

**Juan Carlos Bayón Yusta.** [jcbayon@bioef.org](mailto:jcbayon@bioef.org)

# Índice

<b>Abreviaturas</b>	9
<b>Resumen estructurado</b>	10
<b>Laburpen egituratua</b>	13
<b>Structured summary</b>	16
<b>I. Introducción</b>	19
I.1. Definición	19
I.2. Prevalencia e incidencia	20
I.3. Cribado de hipoacusia neonatal	21
I.4. Situación de los programas de cribado de hipoacusia neonatal en España	22
<b>II. Objetivos</b>	23
II.1. Objetivo general	23
II.2. Objetivos específicos	23
<b>III. Metodología</b>	24
III.1. Revisión de la evidencia económica	24
III.1.1. Fuentes de información y estrategia de búsqueda	24
III.1.2. Criterios de selección de los estudios	25
III.1.3. Selección de estudios	26
III.1.4. Extracción y síntesis de los datos	26
III.1.5. Valoración de la calidad de los estudios	27
III.2. Análisis de los programas empleados para el cribado de hipoacusia neonatal en las Comunidades y Ciudades Autónomas	27
III.2.1. Estrategia de búsqueda	27
III.2.2. Extracción y síntesis de los datos	28
<b>IV. Resultados</b>	29
IV.1. Revisión de la evidencia económica	29
IV.1.1. Calidad de los estudios de evaluación económica	30
IV.1.2. Características de los estudios de evaluación económica seleccionados	31

IV.1.3. Evidencia sobre el coste-efectividad	33
IV.1.4. Análisis de sensibilidad	34
IV.2. Análisis de los programas empleados para el cribado de hipoacusia neonatal en las Comunidades y Ciudades Autónomas	42
IV.2.1. Detección	42
IV.2.2. Diagnóstico	47
<b>V. Discusión</b>	51
<b>VI. Conclusiones</b>	57
<b>VII. Referencias</b>	58
<b>VIII. Anexos</b>	61
Anexo VIII.1. Estrategias de búsqueda	61
Anexo VIII.2. Características programas de cribado auditivo neonatal de las CC.AA.	70
Anexo VIII.3. Estudios excluidos	79

# Abreviaturas

<b>AETSA:</b>	Agencia de Evaluación de Tecnologías Sanitarias de Andalucía.
<b>AVAC:</b>	Años de Vida Ajustados por Calidad.
<b>CC.AA.:</b>	Comunidades Autónomas.
<b>CiA:</b>	Ciudades Autónomas.
<b>CISNS:</b>	Consejo Interterritorial del Sistema Nacional de Salud.
<b>CMV:</b>	Citomegalovirus.
<b>CODEPEH:</b>	Comisión para la Detección de Hipoacusias en Recién Nacidos.
<b>CHEERS:</b>	Consolidated Health Economic Evaluation Reporting Standards.
<b>dB:</b>	Decibelios.
<b>FLC:</b>	Ficha de lectura crítica.
<b>IACS:</b>	Instituto Aragonés de Ciencias de la Salud.
<b>OEA:</b>	Otoemisiones Acústicas.
<b>OMS:</b>	Organización Mundial de la Salud.
<b>ORL:</b>	Otorrinolaringología.
<b>PCR:</b>	Cadena de Polimerasa.
<b>PEAee:</b>	Potenciales Evocados Auditivos de estado estable.
<b>PEATC:</b>	Potenciales Evocados Auditivos del Tronco Cerebral.
<b>PEATCa:</b>	Potenciales Evocados Auditivos del Tronco Cerebral automatizados.
<b>PICO:</b>	Población, Intervención, Comparación y Outcome-resultados.
<b>RCEI:</b>	Ratio Coste Efectividad Incremental.

# Resumen estructurado

**Título:** Programa de cribado de hipoacusia neonatal: revisión sistemática de estudios de evaluación económica y análisis descriptivo de los programas de las CC.AA.

**Autores:** Bayón Yusta JC, Gutiérrez Iglesias A, Reviriego Rodrigo E, Galnares-Cordero L

**Palabras clave:** pérdida auditiva, hipoacusia, cribado neonatal, costes

**Fecha:** marzo 2020

**Páginas:** 79

**Referencias:** 20

**Lenguaje:** Castellano, y resumen en castellano, euskera e inglés.

## Introducción

Según la Organización Mundial de la Salud (OMS), se estima que de 1 a 3 por 1.000 niños recién nacidos vivos están afectados por hipoacusias congénitas permanentes, bilaterales y de intensidad moderada a profunda. Si se incluyen las hipoacusias leves y las unilaterales la prevalencia es de 3-5 por 1.000 niños recién nacidos. La hipoacusia en la primera infancia constituye un importante problema de salud debido a que limita los estímulos auditivos y afecta significativamente al desarrollo del lenguaje y el habla, restringiendo el aprendizaje y la comunicación y repercutiendo en su desarrollo emocional, social y académico. La detección, el diagnóstico y el tratamiento precoz de la hipoacusia pueden mejorar los resultados en el desarrollo del lenguaje y el habla de los niños que la padecen.

De acuerdo con los contenidos mínimos y básicos comunes establecidos en el Programa de Detección Precoz de la Hipoacusia en Recién Nacidos aprobado en 2003 por el Consejo Interterritorial del Sistema Nacional de Salud (CISNS), mediante el cribado de hipoacusia neonatal se busca cribar a todos los recién nacidos durante el primer mes de vida mediante cribado poblacional, que el acceso a la fase de diagnóstico sea a los tres meses o antes, que el tratamiento quede instaurado a los seis meses y que se realice un seguimiento de todos los casos detectados.

En la actualidad todas las Comunidades y Ciudades Autónomas (CC.AA. y CiA) han desarrollado programas de detección precoz de la hipoacusia neonatal. Al no detallarse en la cartera de servicios los criterios de acceso a esta atención, se pueden estar aplicando criterios distintos en las diferentes CC.AA. y CiA dentro de los programas establecidos por

cada servicio de salud en relación con las necesidades de salud de la población a la que atienden.

Para avanzar en la concreción y homogeneización del programa de cribado neonatal de hipoacusia entre las CC.AA. y CiA, desde la Dirección General de Salud Pública, Calidad e Innovación del Ministerio de Sanidad, Servicios Sociales e Igualdad se ha solicitado la realización de este informe.

## **Objetivo**

El objetivo de este documento es proporcionar la información necesaria para la toma de decisiones de cara a avanzar en la concreción y homogeneización del programa de cribado de hipoacusia neonatal.

Los objetivos específicos son:

1. Revisar la evidencia económica de las diferentes estrategias utilizadas para la detección de la hipoacusia neonatal en el cribado poblacional de hipoacusia neonatal.
2. Analizar los distintos protocolos de cribado de hipoacusia neonatal existentes en las Comunidades y Ciudades Autónomas.

## **Metodología**

A partir de una aproximación al tema en la que se consultó las páginas web de las principales agencias de evaluación de tecnologías sanitarias para la identificación de informes sobre el tema objeto del estudio, se realizó una revisión sistemática de estudios de evaluación económica mediante una búsqueda estructurada en bases de datos de literatura económica y médica.

Además, se llevó a cabo una búsqueda en las páginas web de las Consejerías o Departamentos de Sanidad o Salud de las CC.AA. y CiA para identificar los programas de cribado poblacional de hipoacusia neonatal empleados en las mismas. A partir de los datos de los programas localizados en la búsqueda, se consultó con la persona responsable de la Unidad de Programas de Cribado de la Subdirección General de Promoción de la Salud y Vigilancia en Salud Pública del Ministerio de Sanidad, Consumo y Bienestar Social para su verificación con las personas responsables de los programas en cada CC.AA. y CiA. Una vez verificados los datos, se realizó un análisis descriptivo de cada programa, describiéndose su diseño general y sus características organizativas.

**Análisis económico:**  SÍ  NO **Opinión de expertos:**  SÍ  NO

## **Resultados**

Como resultado de la búsqueda sistemática se recuperaron dos artículos de evaluación económica para su análisis de acuerdo con los crite-

rios de inclusión considerados. La lectura crítica de los mismos indicó que eran estudios de calidad media debido principalmente a debilidades identificadas en su validez interna y externa y en el apartado conflicto de intereses. De los dos estudios se extrae que, a largo plazo, el cribado poblacional de la hipoacusia neonatal tanto con Potenciales Evocados Auditivos del Tronco Cerebral automatizados (PEATCa) como con Otoemisiones Acústicas (OEA) es dominante (más barato y más efectivo) frente a no cribado (RCEI = -4.545,45 \$/AVAC y RCEI = -6.309,52 \$/AVAC, para PEATCa y OEA respectivamente) y que el cribado poblacional de la hipoacusia neonatal con PEATCa frente a cribado poblacional de la hipoacusia neonatal con OEA es coste efectivo (RCEI = 3.393 \$/AVAC para una disponibilidad a pagar igual a 20.000 \$/AVAC), y que a corto plazo, el cribado poblacional de la hipoacusia neonatal con PEATCa frente al cribado poblacional de la hipoacusia neonatal con OEA es dominante (coste incremental = 103.100 \$ y efectividad incremental = 3.850 recién nacidos detectados con pérdida auditiva).

Del análisis descriptivo de los programas de detección precoz de la hipoacusia se infiere que en las 17 CC.AA. y las dos ciudades autónomas la detección precoz de la hipoacusia neonatal se lleva a cabo mediante cribado poblacional. Además, nueve CC.AA. cuentan con protocolos diferenciados para el cribado selectivo en recién nacidos con factores de riesgo, siendo las pruebas utilizadas OEA, PEATCa y PEATC y el número de fases exploratorias de una, dos o tres, antes de referir a los recién nacidos con sospecha de hipoacusia a diagnóstico. En cuanto a las características organizativas, se observan tres elementos comunes a la mayoría de los programas de cribado de hipoacusia neonatal: las pruebas de detección precoz de la hipoacusia se realizan antes del alta hospitalaria, en las unidades de maternidad del centro hospitalario, y principalmente por personal de enfermería de neonatología.

## **Conclusión**

Las evaluaciones económicas incluidas en la revisión sistemática sugieren que el cribado poblacional de hipoacusia neonatal es coste-efectivo frente a no cribado y que realizar este con PEATCa es más coste efectivo que con OEA.

El análisis descriptivo de los programas de cribado auditivo neonatal de las CC.AA. no permite establecer entre ellos elementos comunes en cuanto al diseño general y características organizativas, dada la heterogeneidad observada en los mismos. La información que facilitan los diferentes programas es variable y no contiene información suficiente para la toma de decisiones informada.

# Laburpen egituratua

**Izenburua:** Jaioberriaren hipoakusia bahetzeko programa: autonomia-erkidegoen programen ebaluazio ekonomikoari eta analisi deskribatzaileari buruzko ikerlanen berrikuspen sistematikoa

**Egileak:** Bayón Yusta JC, Gutiérrez Iglesias A, Reviriego Rodrigo E, Galnares-Cordero L

**Hitz gakoak:** entzumen-galera, hipoakusia, jaioberrien baheketa, kostuak

**Data:** 2020ko martxoa

**Orrialde kopurua:** 79

**Erreferentziak:** 20

**Hizkuntza:** gaztelania, eta laburpena gaztelaniaz, euskaraz eta ingelesez.

## Sarrera

Osasunaren Mundu Erakundearen (OME) arabera, bizirik jaiotako 1.000 umetatik 1-3k sortzetiko hipoakusia iraunkorra dute, alde bikoia eta intentsitate ertain edo handikoa. Hipoakusia arinak eta alde bakarrekoak kontuan hartuta, 1.000 jaioberritan 3-5ekoa da prebalentzia. Lehen haurtzaroko hipoakusia osasun-arazo handia da, entzunezko estimulua mugatzen dituelako eta hizkuntzaren zein mintzamenaren garapenean eragin nabarmena duelako: ikaskuntza eta komunikazioa murrizten ditu, eta eragina du garapen emozional, sozial eta akademikoan. Hipoakusia garaiz detektatu, diagnostikatu eta tratatzeak emaitza hobekarigarriak ekar ditzake gaixotasuna duten haurren hizkuntza- eta mintzamen-garapenean.

Jaioberriei hipoakusia garaiz detektatzeko programak ezarri zituen gutxieneko eta oinarrizko eduki erkideen arabera, Espainiako Osasun Sistemaren Lurraldearteko Kontseiluak onartu baitzuen 2003an, jaioberri-tako hipoakusiaren baheketaren bitartez lortu nahi dena da jaioberri guztiei baheketa egitea bizitzako lehenengo hilabetean —populazio baheketa, beraz—, diagnostiko-fasera umeak hiru hilabete edo gutxiago dituenean iristea, tratamendua sei hilabeterekin finkatuta izatea, eta detektaturiko kasu guztiei jarraipena egitea.

Gaur egun, autonomia-erkidego eta hiri autonomo guztiek garatu dituzte jaioberrietan hipoakusia garaiz detektatzeko programak. Zerbitzu-zorroan ez direnez zehaztu aipatu arreta jasotzeko irizpideak, litekeena da autonomia-erkidegoak eta hiri autonomoak nor bere irizpideak aplikatzea, osasun-zerbitzu bakoitzak xedeko biztanleen beharren arabera ezarri duen programaren barnean.

Jaioberrietan hipoakusia bahetzeko programa areago zehaztu eta autonomia-erkidegoen zein hiri autonomoen artean homogeneizatzeko, Osasun, Gizarte Zerbitzu eta Berdintasun Ministerioko Osasun Publiko, Kalitate eta Berrikuntza Zuzendaritza Nagusiak txosten hau eskatu du.

## Helburuak

Dokumentu horren bitartez, behar den informazioa eman nahi da jaioberriei hipoakusia bahetzeko programa areago zehazteari eta homogeneizatzeari begira.

Helburu zehatzak:

1. Jaioberrien entzumen-galera hautemateko erabilitako estrategien ebidentzia ekonomikoa berrikustea jaioberrien entzumen-galaren populazio-baheketan.
2. Aztertzea zer protokolo dagoen indarrean autonomia-erkidegoetan eta hiri autonomoetan, jaioberriei hipoakusia bahetzeari dagokionez.

## Metodologia

Gaiari ekiteko, teknologia sanitarioen ebaluazio-agentzia nagusien webguneak kontsultatu ziren aztergaiari buruzko txostenen bila. Ebaluazio ekonomikoari buruzko ikerlanen berrikuspen sistematikoa egin zen, literatura ekonomikoko eta medikoko datu-baseetan bilaketa egituratua eginda.

Gainera, bilaketak egin ziren autonomia-erkidegoen eta hiri autonomoen osasun-sailen edo —departamentuen webguneetan, jaioberriei hipoakusia— populazio baheketa egiteko zer programa erabili duten identifikatzeko. Bilaketan aurkitutako programen datuetan oinarrituta, kontsulta egin zitzaion Osasun, Kontsumo eta Gizarte-ongizate Ministerioko Osasuna sustatzeko eta Osasun publikoa zaintzeko Zuzendariordetza Nagusiko Baheketa-programen unitateburuari, datuak egiazta zitzan autonomia-erkidegoetako eta hiri autonomoetako programa-arduradunekin. Datuak egiaztatuta, programa bakoitzaren analisi deskribatzailea egin zen; diseinu orokorra eta antolamendu-ezaugarriak deskribatu ziren.

**Analisi ekonomikoa:** (BAI) EZ **Adituen iritzia:** (BAI) EZ

## Emaitzak

Bilaketa sistematikoari esker, ebaluazio ekonomikoari buruzko bi artikulu berreskuratu ziren, aipatu sarbide-irizpideen arabera aztertzeko. Irakurketa kritikoa eginda, ikusi zen kalitate ertaineko lanak zirela, ahultasunak baitzituzten barne- eta kanpo-baliozkotasunean eta interes-ga-

tazken arloan. Bi azterlanon arabera, epe luzean, jaioberrien entzumen galeraren- populazio baheketa, hala garun-enborreko entzumen-potenzial ebokatu automatizatuekin (GEEPEA) nola otoemisia akustikoekin (OEA), nagusitzen zaio (merkeagoa eta eraginkorragoa da) baheketa-ezari (KERI = -4.545,45 \$/KAEB eta KERI = -6.309,52 \$/KAEB, GEEPEA eta OEArako, hurrenez hurren). Halaber, GEEPEAren bitartezko entzumen-populazio baheketa OEAREN bitartezko entzumen populazio-baheketaren aurrean kostu efektiboa dela (KERI = 3,393 \$/KAEB, 20.000 \$/KAEB ordaintzeko prestasunarekin). Epe laburrean, GEEPEAREN bitartezko entzumen- galeraren populazio-baheketa nagusitzen zaio OEAREN bitartezko entzumen- populazio baheketari (kostu inkrementala = 103.100 \$ eta eraginkortasun inkrementala = entzumen-galera detektatu zaien 3.850 jaioberri).

Hipoakusia garaiz detektatzeko programen analisi deskribatzailearen arabera, jaioberrietan hipoakusia garaiz detektatzeko, populazio baheketa egiten da 17 autonomia-erkidegoetan eta bi hiri autonomoetan.. Gainera, 9tan, baheketa selektiboa egiten zaie arrisku-faktoreak dituzten jaioberriei; OEA, GEEPEA eta GEEPE probak erabiltzen dira, eta esplorazio-faseen kopurua bat, bi ala hiru izan daiteke, hipoakusia izateko susmopean dauden jaioberriak diagnostikora igorri aurretik. Antolamendu-ezaugarriei dagokienez, jaioberrien entzumen- populazio baheketa egiten dutenetan, hiru elementu komun daude gehienentzat: hipoakusia garaiz detektatzeko probak ospitaleko alta eman baino lehen egiten dira, ospitaleko amatasun-unitateetan, eta batik bat neonatologiako erizainek egiten dituzte.

## **Ondorioak**

Berrikuspen sistematikoan sartutako ebaluazio ekonomikoek iradokitzen dute jaioberrien entzumen-galeraren populazio-baheketa kostu/efektiboa dela baheketa ezaren aurrean, eta hori PEATCarekin egitea kostu efektibo handiagoa dela AEREkin egitea baino.

Autonomia erkidegoek jaioberriei hipoakusia bahetzeko baliatzen dituzten programen analisi deskribatzaileak ez du biderik ematen programen arteko elementu komunik ezartzeko, diseinu orokorrari eta antolamendu-ezaugarriei dagokienez, programa heterogeneoak baitira. Programek ematen duten informazioa aldakorra da, eta ez da nahikoa erabakiak jakinaren gainean hartu ahal izateko.

# Structured summary

**Title:** Neonatal hearing screening programmes: A systematic review of economic evaluation studies and descriptive analysis of Spanish regional programmes

**Authors:** Bayón Yusta JC, Gutiérrez Iglesias A, Reviriego Rodrigo E, Galnares-Cordero L

**Keywords:** Hearing loss, hypoacusis, neonatal screening, costs

**Date:** March 2020

**Pages:** 79

**References:** 20

**Languages:** Spanish, with the abstract in Spanish, Basque and English.

## Introduction

According to the World Health Organization, between 1 and 3 per 1,000 healthy neonates have bilateral permanent moderate-to-severe congenital hearing loss. If we include mild and unilateral cases, the prevalence lies between 3 and 5 per 1,000 neonates. In early childhood, hearing loss is an important health problem, as it means that the child has less auditory stimulation and, in turn, this has a significant effect on language and speech development, restricting learning and communication and having an impact on emotional, social and academic development. The detection, diagnosis and early treatment of hearing loss may improve outcomes in terms of language and speech development of affected children.

In accordance with the common minimum basic content established in the Programme for the Early Detection of Hypoacusis in neonates approved in 2003 by the Inter-regional Council of the Spanish National Health System, through neonatal hypoacusis screening, the goals are to test all infants within their first month of life through population screening, to have access to the diagnostic stage within 3 months and to start treatment within 6 months, with follow-up of all the cases identified.

Currently, all autonomous regions and cities across Spain have developed early detection screening programmes. Given that the portfolio of services does not specify the criteria for eligibility for this type of care, different criteria may be applied in each region within the programmes established by each health service in relation to the needs of their target population.

Seeking to advance in the specification and standardisation of neonatal hearing screening programmes across Spanish autonomous

regions and cities, and in the light of the lack of data for assessing the efficacy and outcomes of ongoing programmes, the General Management of Public Health, Quality and Innovation of the Spanish Ministry of Health, Consumer Affairs and Social Welfare, requested this report.

## **Objective**

The aim of this document is to provide the information necessary for decision making to advance in the specification and standardisation of neonatal hearing screening programmes in Spain.

The specific objectives are:

1. to review the economic evidence of the different strategies used for the detection of neonatal hearing in the population screening of neonatal hearing.
2. to analyse the various different protocols used in neonatal hearing screening programmes in autonomous regions and cities in Spain.

## **Methods**

First, the websites of the main agencies for healthcare technology assessment were consulted seeking to identify reports on the subject of interest. Secondly, starting from this base of information, a systematic review was conducted of economic assessment studies, searching databases of economic and medical literature.

In addition, a search was conducted through the websites of the councils or departments of healthcare or health in each of the regions seeking to identify the universal neonatal hearing screening programmes implemented there. The head of the Screening Programme Unit at the Subdirectorate General for Health Promotion and Vigilance, in the Public Health section of the Ministry of Health, Consumer affairs and Social wellbeing was contacted for the data retrieved in the aforementioned search to be checked by people responsible for the programmes in each region/city.

Once the data had been checked, a descriptive analysis of each programme was conducted, considering its general design and also how it is organised.

**Economic analysis:**

**YES**

NO

**Expert opinion:**

**YES**

NO

## Results

The systematic search retrieved two papers on economic assessments for analysis according to the established inclusion criteria. Critical reading of these papers concluded that they were of moderate quality, mainly due to weaknesses identified in terms of internal and external validity and in the section regarding conflicts of interest. These two studies indicate that, in the long term, population neonatal hearing screening both using automated auditory brainstem responses (AABRs) and otoacoustic emissions (OAEs) is dominant (less expensive and more effective) than not screening (ICER =  $-\$4,545.45/\text{QALY}$  and ICER =  $-\$6,309.52/\text{QALY}$ , for AABRs and OAEs, respectively) and that population neonatal hearing screening is more cost effective using AABRs than using OAEs (ICER =  $\$3,393/\text{QALY}$  assuming a willingness to pay threshold of  $\$20,000/\text{QALY}$ ). Further, in the short term, population neonatal hearing screening using AABRs is dominant over population hearing screening using OAEs (incremental cost =  $\$103,100$  and incremental effectiveness = hearing loss detected in 3,850 neonates).

From the descriptive analysis of the early detection programmes for hypoacusis, we are able to deduce that in the 17 autonomous regions and the two autonomous cities early detection of neonatal hearing loss is performed through population screening, and that in 9 cases, there is selective screening of neonates with high-risk factors, using OAE, AABR and auditory brainstem response testing, and one, two or three exploratory phases, before referring neonates with suspected hearing loss for diagnosis. In terms of the organisational characteristics, there are three elements that are common to most regions that carry out universal neonatal hearing screening: early detection tests for hearing loss is carried out before hospital discharge, in the maternity units of the hospitals and mainly by the neonatal nursing staff.

## Conclusion

The economic evaluations included in the systematic review suggest that population screening for neonatal hearing is cost-effective versus non-screening and whether population neonatal hearing screening using AABRs is more cost-effective than that using OAEs.

The descriptive analysis of the neonatal screening programmes of the autonomous regions does not allow us to establish common elements in terms of the general design or organisational characteristics, given the heterogeneity observed. The information provided by the different programmes is variable and it does not provide sufficient data for informed decision making.

# I. Introducción

La hipoacusia en los primeros años de vida del niño constituye un importante problema de salud al limitar los estímulos auditivos lo que condiciona el desarrollo del lenguaje y habla, limitando el aprendizaje y la comunicación, y repercutiendo en su desarrollo emocional y social.

La hipoacusia, incluso la profunda, es una incapacidad tratable. Los cambios funcionales y estructurales que tienen lugar en la vía auditiva son parcialmente reversibles. La elección del tratamiento y sus resultados, en términos de adquisición del lenguaje e incorporación a la sociedad por parte de los niños afectados, dependen de la precocidad del diagnóstico y de la etiología de la hipoacusia.

La detección y tratamiento precoz de la hipoacusia puede mejorar los resultados lingüísticos y escolares de los niños que la padecen. Una intervención temprana produce mejores resultados ya que se considera que existe un periodo crítico o sensible para el desarrollo del lenguaje oral del niño (1).

Los programas de cribado de la hipoacusia neonatal permiten la identificación de las hipoacusias al poco de nacer y el inicio del tratamiento tan pronto como es posible, lo que proporciona la obtención de mejores resultados a lo largo del tiempo.

## I.1. Definición

La hipoacusia, que es la alteración neurosensorial más frecuente del ser humano, se define como la disminución de la percepción auditiva (2) o como la incapacidad para oír tan bien como lo hacen las personas con audición normal, cuyo umbral auditivo en ambos oídos es de 0 a 25 decibelios (dB) (1).

El *Bureau International d'Audiophonologie* (BIAP), en función del grado de pérdida de decibelios y de la relación entre audición y lenguaje, califica la deficiencia auditiva como leve, moderada, severa, profunda y total. Se dice que una deficiencia auditiva es leve cuando la pérdida es de 21 a 40 dB y el sujeto percibe el habla si la voz es normal pero tiene dificultades para oír la voz baja o distante y percibe la mayoría de los ruidos familiares; es moderada cuando la pérdida es de 41 a 70 dB y hay que elevar la intensidad de la voz para el que sujeto perciba las palabras, percibiendo al-

gunos sonidos familiares; es severa cuando la pérdida auditiva es de 71 a 90 dB y el individuo solo percibe la voz fuerte cerca del oído y los ruidos fuertes; es profunda cuando la pérdida auditiva es de 91 a 119 dB y el sujeto no percibe el habla solo los ruidos muy fuertes y es total por encima de los 120 dB y hay pérdida total de audición (3).

Las hipoacusias además de por el grado de intensidad en decibelios, también se clasifican según la localización de la lesión o el momento de adquisición. Según la localización, la hipoacusia conductiva o de transmisión está causada por enfermedades u obstrucciones en el oído externo o medio, en la hipoacusia neurosensorial o de percepción es el oído interno o el nervio auditivo el que se encuentran dañados, mientras que en la hipoacusia mixta existen aspectos de pérdidas conductivas y sensoriales por problemas tanto en el oído externo o medio como en el interno. En la hipoacusia central las lesiones se localizan en los centros auditivos del cerebro (4,5). De acuerdo con el momento de adquisición, en la sordera prelocutiva la pérdida auditiva está presente antes de que se haya desarrollado el lenguaje y en la sordera postlocutiva la pérdida aparece cuando ya existe el lenguaje (6).

## I.2. Prevalencia e incidencia

La prevalencia de la hipoacusia en el recién nacido se estima entre 1,5 y 6 casos por 1.000 niños nacidos vivos (estimación de la OMS según grado de hipoacusia). En cuanto a la incidencia, se estima de 1 a 3 por 1.000 niños recién nacidos vivos para las hipoacusias congénitas permanentes, bilaterales y de intensidad moderada a profunda (2). Si se incluyen las hipoacusias leves y las unilaterales, la cifra aumenta al 3-5 por 1.000 niños (1). En recién nacidos con factores de riesgo, definidos en la monografía del cribado de hipoacusia realizado por PreInfad (1) o en las «Recomendaciones de la Comisión para la Detección Precoz de Hipoacusias (CODEPEH) para 2010 (7), la incidencia de hipoacusia neosensorial de moderada a profunda es de 10 a 20 veces mayor que en la población general (1).

En España se disponen de pocos datos sobre prevalencia e incidencia. En un estudio realizado en base a los resultados de los dos primeros años del cribado poblacional en Cantabria se obtuvo que la incidencia de todas las formas de hipoacusia congénita fue de 8,5 por 1.000 recién nacidos, y de hipoacusia neurosensorial y/o de transmisión grave y permanente de 1,38 por 1.000 recién nacidos (25,6 por 1.000 recién nacidos para el grupo de riesgo y de 0,5 por 1.000 recién nacidos para el grupo sin riesgo) (8).

### I.3. Cribado de hipoacusia neonatal

En 2007 el *Joint Committee of Infant Hearing (JCIH)* actualizó la declaración de posición realizada en el 2000 sobre los principios que proporcionan una base efectiva para la detección e intervención auditiva temprana. Recomiendan que todos los recién nacidos deben tener acceso al cribado auditivo mediante una prueba auditiva objetiva antes del mes de vida, que aquellos que no pasen el cribado inicial deben tener una evaluación audiológica y médica apropiada para el diagnóstico de la hipoacusia antes del tercer mes de vida y que todos los recién nacidos con hipoacusia permanente confirmada deben recibir servicios de intervención temprana tan pronto como sea posible después del diagnóstico antes de los seis meses de vida (8).

Se necesitan equipos multidisciplinares de profesionales, incluidos otorrinolaringólogos, pediatras, y personal de enfermería, para establecer los distintos componentes de los programas para el cribado de la hipoacusia neonatal para la detección e intervención auditiva temprana (9).

Como pruebas para el cribado de hipoacusia en neonatos y lactantes, se utilizan las otoemisiones acústicas transitorias (OEA) y los potenciales evocados auditivos del tronco cerebral automáticos (PEATCa) al ser altamente sensibles en la detección precoz de la hipoacusia. Ambas tecnologías registran de manera no invasiva la actividad fisiológica que subyace en la función auditiva normal y son fáciles de realizar. Sin embargo, hay una importante diferencia entre ambas, las OEA reflejan el estado del sistema auditivo periférico hasta las células ciliadas cocleares, mientras que los PEATCa además de verificar la integridad de las células ciliadas externas cocleares, refleja también la integridad del octavo nervio y la vía auditiva del tronco cerebral (9).

Dichas pruebas no son excluyentes entre ellas, sino complementarias. El uso de ambas pruebas evitará la aparición de falsos negativos, aunque su aplicación conjunta debe limitarse a aquellos casos concretos en los que se presenten factores de riesgo de hipoacusia retrococlear o que se sospeche la existencia de neuropatía auditiva. Los demás recién nacidos podrán ser analizados con cualquiera de ambas técnicas. En el caso de no superar el cribado con PEATCa no será necesaria una segunda prueba y podrán ser derivados a la confirmación diagnóstica. Por otro lado, si se usan OEA, han de repetirse al menos una vez antes de derivarlos a la fase diagnóstica (7).

Los criterios interpretativos para los resultados de aprobación/fallo deben reflejar una lógica científica clara y deben estar basados en la

evidencia. Actualmente, no existen estándares de calibración en OEA y PEATCa, aspecto que se ve agravado por la falta de estándares de desempeño uniformes. Ante esta falta de estándares, se deben obtener datos normativos para los instrumentos y protocolos que se utilicen (9).

De acuerdo con la CODEPEH, los programas de detección precoz de la hipoacusia en recién nacidos deben detectar todas las hipoacusias superiores a 40dB en el mejor oído al final de sus niveles y antes de remitir al diagnóstico, se deben someter al mismo al menos al 95 % de los recién nacidos vivos, el porcentaje de falsos positivos no debe ser inferior al 3 %, no se debe remitir a la fase de diagnóstico más de un 4 % de los explorados de forma poblacional y la proporción de falsos negativos debe tender al 0 % (10).

## I.4. Situación de los programas de cribado de hipoacusia neonatal en España

En abril 2003 el CISNS, gracias al consenso alcanzado entre el Ministerio de Sanidad, las CC.AA. y diferentes asociaciones como la Confederación Española de Familias de Personas Sordas (FIAPAS) y la CODEPEH aprobó el Programa de Detección Precoz de la Hipoacusia en Recién Nacidos, recomendando que se pusiera en marcha en todas las CC.AA. y CiA y estableciendo sus contenidos mínimos y básicos comunes: detección precoz durante el primer mes de vida mediante cribado poblacional, acceso a la fase de diagnóstico a los tres meses o antes, tratamiento instaurado a los seis meses y seguimiento de todos los casos detectados.

El Real Decreto 1030/2006, de 15 de septiembre, incluyó la detección de la hipoacusia dentro de la cartera de servicios comunes del Sistema Nacional de Salud dentro del apartado 6.1 «Servicios de atención a la infancia».

En la actualidad en todas las CC.AA. y CiA se ofertan programas de cribado de hipoacusia neonatal. Al no detallarse en la cartera de servicios los criterios de acceso a esta atención, se pueden estar aplicando criterios distintos en las diferentes CC.AA. y CiA dentro de los programas establecidos por cada servicio de salud en relación con las necesidades de salud de la población a la que atienden.

Para avanzar en la concreción y homogeneización del programa cribado de hipoacusia neonatal entre las CC.AA. y CiA, desde la Dirección General de Salud Pública, Calidad e Innovación del Ministerio de Sanidad, Consumo y Bienestar Social se ha solicitado la realización de este informe.

## II. Objetivos

### II.1. Objetivo general

El objetivo de este documento es proporcionar la información necesaria para la toma de decisiones de cara a avanzar en la concreción y homogeneización del programa de cribado de hipoacusia neonatal.

### II.2. Objetivos específicos

- Revisar la evidencia económica de las diferentes estrategias utilizadas para la detección de la hipoacusia neonatal en el cribado poblacional de hipoacusia neonatal.
- Analizar y comparar los distintos programas de cribado de hipoacusia neonatal existentes en las Comunidades y Ciudades Autónomas.

# III. Metodología

## III.1. Revisión de la evidencia económica

### III.1.1. Fuentes de información y estrategia de búsqueda

Para dar respuesta al objetivo de revisar la evidencia económica del cribado de hipoacusia neonatal, primeramente y antes de la realización de la búsqueda bibliográfica estructurada, se realizó una aproximación al tema consultando las páginas web de las principales agencias y organismos de evaluación de tecnologías sanitarias. Entre ellas se consultó la web de la Red Española de Evaluación de Tecnologías Sanitarias (RedETS), así como la de cada uno de sus miembros, la del Centre for Reviews and Dissemination (que incluye Database of Abstracts of Reviews of Effects-DARE, NHS Economic Evaluation Database-NHSEED y HTA Database), y las de otras agencias e instituciones nacionales e internacionales.

Gracias a esta aproximación se identificaron dos informes de evaluación de tecnologías sanitarias: uno publicado en 2016 por el Instituto Aragonés de Ciencias de la Salud (IACS) (2) y otro publicado en 2017 por la Agencia de Evaluación de Tecnologías Sanitarias de Andalucía (AETSA) (11). A partir de estos informes se estableció la estrategia de búsqueda para localizar estudios de evaluación económica la cual se aplicó a las siguientes bases de datos de literatura económica y médica:

- Bases de datos de estudios económicos: Cost-Effectiveness Analysis Registry (CEA).
- Bases de datos especializadas en revisiones sistemáticas: Cochrane Library (Wiley) y Centre for Reviews and Dissemination (CRD) Databases que incluye HTA (Health Technology Assessment), DARE (Database of Abstracts of Reviews of Effectiveness) y NHS EED (NHS Economic Evaluation Database).
- Bases de datos generales: Medline (PubMed) y Embase (OVID), mediante el empleo de términos y filtros económicos.

La estrategia de búsqueda, que se ejecutó en julio de 2018, incluyó los siguientes términos en lenguaje libre y controlado: *Hearing loss, hypoacusis, neonatal screening, costs*; y se adaptó a cada una de las bases de datos mencionadas siguiendo la estructura especificada en el Anexo VIII.1.

Además, se realizó una búsqueda en bases de datos seleccionadas como Scopus o Web of Science y se procedió a la revisión manual de las referencias bibliográficas de los artículos seleccionados.

Por último, para recuperar los últimos estudios publicados se crearon alertas semanales en las diferentes bases de datos consultadas y hasta la fecha de edición del documento,

### III.1.2. Criterios de selección de los estudios

La pregunta de investigación planteada se expresó como: ¿Cuál es el coste-efectividad del cribado de hipoacusia neonatal?

Para facilitar la búsqueda bibliográfica la pregunta de investigación se desgregó en los elementos del formato PICO (población, intervención, comparación y resultados). Ver tabla 1.

**Tabla 1. Formulación de pregunta PICO**

¿Cuál es el coste-efectividad del cribado de hipoacusia neonatal?	
<b>Descripción</b>	Alcance
<b>Población</b>	Neonatos vivos.
<b>Intervención</b>	Cribado de hipoacusia neonatal.
<b>Comparación</b>	No cribado.
<b>Resultados</b>	El ratio coste-efectividad incremental (RCEI) expresado en coste por caso detectado o coste por años de vida ganados ajustados por calidad (AVAC).
<b>Diseño de estudios</b>	Evaluaciones económicas completas.

Fuente: elaboración propia.

#### *Diseño o tipo de estudio*

Evaluaciones económicas completas, considerándose cualquier tipo de evaluación económica: análisis coste-efectividad, coste-utilidad, coste-beneficio y minimización de costes.

Los artículos de revisión, los estudios que fueron considerados metodológicamente erróneos, que no informaban con suficiente detalle para poder extraer sus costes y beneficios estimados o que no eran evaluaciones económicas completas (por ejemplo, análisis de costes), fueron excluidos.

### *Idioma de la publicación*

Artículos publicados en inglés o en español.

### *Filtro de búsqueda temporal*

La búsqueda se filtró desde enero de 2014 hasta julio de 2018 (fecha de realización de la búsqueda), al haberse encontrado un informe de evaluación de tecnologías sanitarias de 2016 (2) en el que se realizó una revisión bibliográfica de estudios de evaluación económica hasta diciembre de 2013 similar en objetivos y metodología a la realizada en el presente informe.

### **III.1.3. Selección de estudios**

De forma independiente dos economistas expertos en evaluación económica revisaron el título y el resumen de las referencias localizadas mediante la búsqueda bibliográfica. Seleccionados los artículos potencialmente relevantes, se realizó la lectura a texto completo de los mismos, excluyéndose aquellos que no cumplieron con los criterios de inclusión y exclusión predeterminados. En caso de dudas y de discrepancias entre los investigadores, los artículos se analizaron conjuntamente y estas se resolvieron por consenso.

### **III.1.4. Extracción y síntesis de los datos**

Seleccionados los estudios, dos investigadores extrajeron la información relevante de manera independiente, verificándose los datos extraídos en una reunión de consenso. Los artículos escogidos fueron resumidos de acuerdo con los ítems incluidos en la lista de comprobación CHEERS (12) y se sintetizaron en tablas de evidencia específicas para estudios de evaluación económica incluidas en el Software FLC 2.0 desarrollado por el Servicio Vasco de Evaluación de Tecnologías Sanitarias (Osteba) (13).

Las tablas de evidencia incluyeron la referencia del estudio, datos sobre el estudio (tipo de evaluación, objetivo, nº de participantes, características de los participantes), fuentes de información (de datos de efectividad, de datos de costes), comparador, datos sobre el análisis realizado (perspectiva, horizonte temporal, tasa de descuento, modelo, análisis de sensibilidad), resultados (costes/beneficios, análisis incremental, análisis de sensibilidad), conclusiones, comentarios y calidad de la evaluación.

### **III.1.5. Valoración de la calidad de los estudios**

El análisis de la calidad de los estudios incluidos fue realizado por dos de los autores. En caso de dudas o desacuerdos, estas se resolvieron por consenso.

La calidad metodológica de los estudios incluidos se evaluó mediante el Software FLC 2.0 (fichas de lectura crítica 2.0) desarrollado por el Servicio Vasco de Evaluación de Tecnologías Sanitarias (Osteba) (13).

El software FLC 2.0 se ha modificado y la nueva versión FLC 3.0 se encuentra disponible en la Web <http://www.lecturacritica.com>, que está diseñado para trabajar la lectura crítica de distintos tipos de estudios epidemiológicos y económicos y permite valorar la calidad de la información aportada en ellos clasificándola como: alta, media o baja. Este instrumento ha pasado un proceso de revisión externa y validación, y está basada en checklist de reconocimiento internacional que valoran la calidad de diferentes tipos de estudios epidemiológicos (PRISMA; CONSORT; STROBE; NOS, etc.).

## **III.2. Análisis de los programas empleados para el cribado de hipoacusia neonatal en las Comunidades y Ciudades Autónomas**

### **III.2.1. Estrategia de búsqueda**

Para dar respuesta al objetivo de analizar los programas empleados para el cribado de hipoacusia neonatal en las CC.AA. y CiA se consultaron las páginas web correspondientes a las Consejerías o Departamentos de Sanidad o Salud de las mismas con el propósito de buscar los programas de cribado de hipoacusia neonatal vigentes en ellas a fecha del 2018. Los programas encontrados se compartieron con la persona responsable de la Unidad de Programas de Cribado de la Subdirección General de Promoción de la Salud y Vigilancia en Salud Pública del Ministerio de Sanidad, Consumo y Bienestar Social para que esta los pusiera en conocimiento de los responsables de los programas de cribado de cada CC.AA. y CiA para su confirmación o remisión de uno nuevo en caso de haberse producido modificaciones en los mismos.

### **III.2.2. Extracción y síntesis de los datos**

De cada uno de los programas de cribado vigentes en las distintas CC.AA. y CiA se extrajo la información relevante. Para tal fin se elaboró una tabla diseñada ex profeso (ver Anexo VIII.2) por los investigadores para la recogida de datos. En primera instancia uno de los autores reunió los datos y completó la tabla, la cual fue revisada con posterioridad por otros dos autores y verificada en una reunión de consenso.

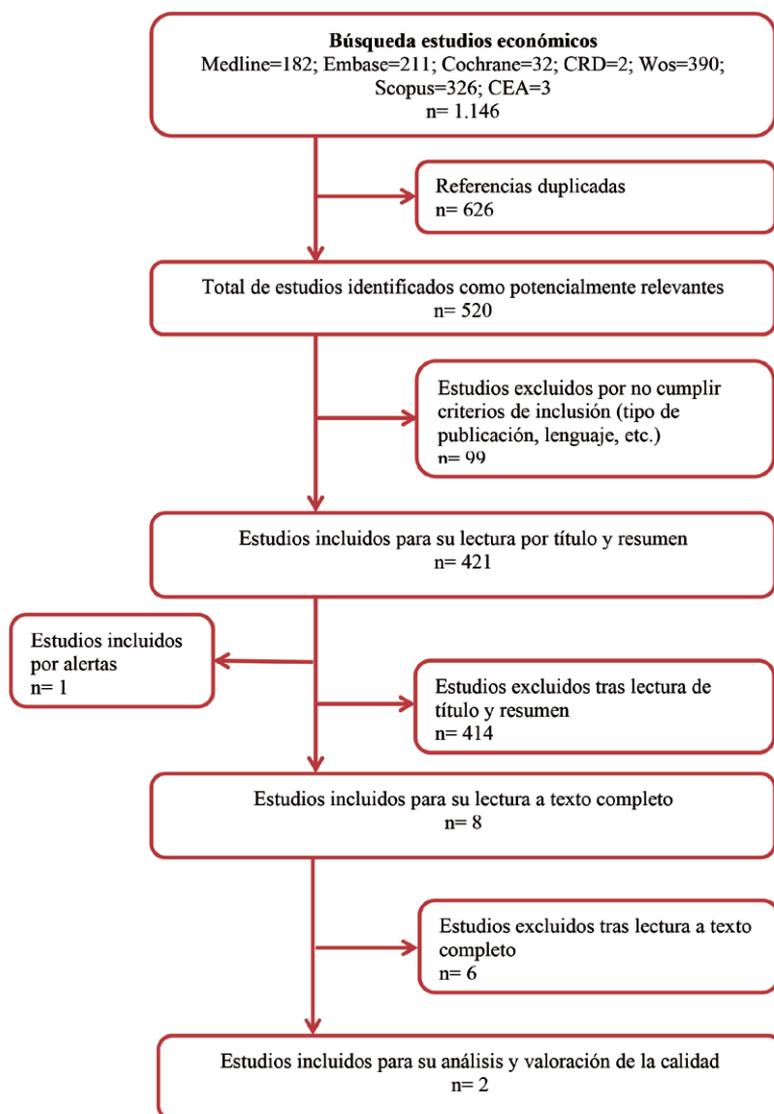
De cada programa de cribado se obtuvieron los siguientes ítems:

- Para el cribado poblacional de la hipoacusia neonatal: el número de fases del cribado y las técnicas de detección auditiva empleadas en cada una de ellas, el umbral de cribado, cuándo se realizan las pruebas, quién las realiza y dónde se realizan.
- Para el cribado auditivo a recién nacidos con factores de riesgo: el número de fases del cribado y las técnicas de detección auditiva empleadas en cada una de ellas, cuándo se realizan las pruebas, quién las realiza y dónde se realizan.
- Para el diagnóstico: técnicas de detección auditivas y pruebas complementarias empleadas, cuándo se realizan las pruebas, quién las realiza y dónde se realizan, y el umbral de diagnóstico.

Se realizó un análisis descriptivo de los datos obtenidos para cada ítem, presentándose la proporción para cada uno de ellos, y se resumieron las características organizativas de cada programa.

# IV. Resultados

## IV.1. Revisión de la evidencia económica



Fuente: elaboración propia.

**Figura 1. Diagrama de flujo de la búsqueda bibliográfica**

La búsqueda bibliográfica en las bases de datos electrónicas señaladas en el apartado metodología identificó un total de 1.146 referencias, que tras la eliminación de aquellas duplicadas y de las que no cumplían con los criterios de inclusión (tipo de publicación y lenguaje) se quedaron en 421 para la lectura de títulos y resúmenes, a los cuales se sumó un artículo más recuperado como resultado de las alertas creadas. De estos, tras lectura de su título y resumen, se seleccionaron ocho para su lectura a texto completo, descartándose seis y seleccionando dos para su análisis y valoración de la calidad (14, 15). El diagrama de flujo que resume el proceso de selección de documentos queda recogido en la figura 1.

En el Anexo VIII.3 se presenta una relación de los artículos excluidos en el cribado a texto completo y las razones principales para su exclusión.

### IV.1.1. Calidad de los estudios de evaluación económica

**Tabla 2. Valoración de la calidad**

Áreas	Chiou <i>et al.</i> 2017	Heidari <i>et al.</i> 2016
Pregunta de investigación		
El estudio se basa en una pregunta de investigación claramente definida.	Bien	Bien
Método-Validez interna		
La metodología empleada garantiza la validez interna del estudio.	Regular	Regular
Resultados		
Los resultados del estudio están claramente descritos.	Bien	Bien
Conclusiones		
Las conclusiones presentadas se basan en los resultados obtenidos y tienen en cuenta las posibles limitaciones del estudio.	Bien	Regular
Conflicto de intereses		
El conflicto de intereses no condiciona los resultados ni las conclusiones del estudio. ¿Se cumple este criterio?	Mal	Mal
Validez externa		
Los resultados del estudio son generalizables a la población y al contexto que interesa.	Regular	Regular
La calidad de la evidencia.	Media	Media

Fuente: elaboración propia.

En la tabla se muestra el nivel de cumplimiento de los artículos para cada una de las áreas de la lista de comprobación desarrollada en las FLC 2.0 y la valoración final de la calidad de la evidencia. En base a las valoraciones realizadas para cada área, se concluyó que la calidad de la evidencia fue calificada como media para los dos artículos seleccionados. Las principales debilidades identificadas en los dos estudios están relacionadas principalmente con el método-validez interna de los mismos, su validez externa (calificados ambos como regular) y el conflicto de intereses (calificado como mal).

#### **IV.1.2. Características de los estudios de evaluación económica seleccionados**

Las características de los estudios seleccionados quedan recogidas en las tablas de evidencia correspondientes (Tabla 3).

De los dos estudios seleccionados uno de ellos fue un análisis coste-utilidad llevado a cabo en Taiwan (14) y el otro un análisis coste-efectividad realizado en Irán (15). En ambos la población objeto de análisis fueron bebés recién nacidos bajo la cobertura de los respectivos sistemas nacionales de salud a los que se realizó cribado poblacional de hipoacusia neonatal a las 24 horas de su nacimiento.

Desde una perspectiva social, Chiou y cols. (14) evaluaron el coste-utilidad de un programa de cribado poblacional de hipoacusia neonatal mediante la comparación de dos estrategias de cribado: 1) OEA o PEATCa frente a no cribado y 2) PEATCa frente a OEA. Por otro lado, desde una perspectiva del sistema de cuidados de salud, Heidari y cols. (15) analizaron el coste-efectividad de utilizar PEATCa frente a OEA como pruebas de cribado en un programa de cribado poblacional de la hipoacusia neonatal.

Para evaluar las estrategias señaladas, Chiou y cols. desarrollaron un modelo analítico de decisión de Markov para un horizonte temporal a largo plazo (expectativa de vida de la población, 78 años), mientras que Heidari y cols. utilizaron un modelo de árbol de decisión para un horizonte temporal de un año. Como primer paso para la construcción del modelo de Markov, Chiou y cols. construyeron un árbol de decisión para cada estrategia. Para cada una de ellas la cohorte de recién nacidos (200.000 bebés) se dividió en niños normales o con pérdida auditiva, los cuales como consecuencia de la imperfecta sensibilidad y especificidad de las pruebas podían dividirse en casos cribados detectados (verdaderos positivos) y no detectados (falsos negativos). La cohorte con pérdida au-

ditiva, independientemente de si fue detectada o no mediante el cribado se dividió en tratados antes o después de los 12 meses de edad. Los cuatro nódulos de tratamiento después de cribado resultantes, se dividieron en cuatro niveles de discapacidad auditiva: buen funcionamiento (normal), leve, moderado y severo/profundo. Para los niveles de pérdida auditiva normal y leve, se determinaron los costes y consecuencias para un horizonte temporal igual a la expectativa de vida de la población. Para la pérdida auditiva normal y leve, la progresión de la enfermedad a diferente estado (normal, leve, moderado y severo/profundo) cambia con el tiempo. Para representar este cambio anual dinámico del estado de la enfermedad y asignar los correspondientes costes y efectividad de acuerdo con los diferentes estados de pérdida auditiva se utilizó un nodo Markov en el que los ciclos fueron de un año.

En el otro estudio, el modelo de árbol de decisión realizado por Heidari y cols. para una cohorte poblacional estimada de un millón de recién nacidos, identificaba a los recién nacidos cribados mediante cualquiera de las dos técnicas a estudio como normales o con pérdida auditiva. La detección de hipoacusia, definida como pérdida auditiva permanente congénita bilateral superior a 35 dB, podía ser verdadera o falsa, dependiendo esto de la prevalencia de la pérdida auditiva y de la sensibilidad y especificidad de las técnicas. Los recién nacidos detectados como positivos mediante potenciales evocados auditivos (prueba gold standard) se consideraron como definitivamente diagnosticados, mientras que los recién nacidos con resultados negativos fueron dados de alta y no seguidos. En el primer estudio (14) el desenlace sanitario se midió en años de vida ajustados por calidad (AVAC), mientras que en el segundo (15) la medida de efectividad fue casos detectados con pérdida auditiva.

En el estudio de Chiou y cols. se aplicó una tasa de descuento del 3 % tanto para costes como para beneficios, mientras que en el de Heidari y cols. no se tuvo en consideración ninguna tasa de descuento al ser su horizonte temporal igual a un año.

Para ambos estudios los datos de efectividad (AVACs, prevalencia de la enfermedad, sensibilidad y especificidad de las técnicas de cribado, tasas de transición del modelo de Markov) se obtuvieron de la literatura publicada. En el caso de Heidari y cols. la prevalencia de la pérdida auditiva y la sensibilidad y especificidad de las OEA de estudios publicados en Irán, mientras que la sensibilidad y especificidad de los PEATCa de estudios de metaanálisis realizados en otros países. Para el estudio de Chiou y cols., a excepción del dato de prevalencia de la pérdida auditiva que se obtuvo de un estudio realizado en Taiwan, tanto los datos para el cálculo de AVACs como las tasas de transición y

las sensibilidad y especificidad de las pruebas se extrajeron cada uno de ellos de un único estudio.

En el estudio de Chiou se consideraron los costes directos sanitarios ocasionados por las pruebas de cribado (OEA y PEATCa), por el programa especial para la rehabilitación del lenguaje y por los audífonos, así como el coste indirecto de la pérdida de productividad causada por la pérdida auditiva. Los costes directos fueron proporcionados por el Ministerio de Salud y Bienestar de Taiwan, mientras que los indirectos se obtuvieron de la revisión de la literatura. En el estudio de Heidari, solamente se tuvieron en cuenta los costes directos ocasionados por los dispositivos de cribado (OEA y PEATCa): precio de venta de los dispositivos, reparación y mantenimiento anual de los mismos, su depreciación anual, los productos sanitarios consumidos y el salario mensual del personal sanitario implicado (audiólogo, técnico, secretaria). El precio de venta, reparación y mantenimiento y depreciación de los dispositivos se obtuvo de los fabricantes, mientras que las fuentes de coste restantes se diseñaron en forma de cuestionario al que se aplicó un método Delphi para analizar y resumir dichos costes. La unidad monetaria utilizada para el cálculo de los costes en ambos estudios fue el dólar estadounidense, ahora bien, en el estudio de Heidari para convertir los costes calculados en un principio en la moneda de Irán en dólares de EE.UU., se utilizó una tasa de cambio de 36,350 Rial iraní.

Los dos estudios llevaron a cabo análisis de sensibilidad para valorar la incertidumbre. En ambos de llevaron a cabo análisis de sensibilidad determinísticos (análisis de sensibilidad univariantes), y además en el de Chiou y cols. se realizó un análisis de sensibilidad probabilístico.

### **IV.1.3. Evidencia sobre el coste-efectividad**

De los resultados de los estudios analizados se concluye que, a largo plazo, el cribado de hipoacusia neonatal tanto con PEATCa como con OEA es dominante (más barato y más efectivo) frente a no cribado (14) y que el cribado de hipoacusia neonatal con PEATCa frente a cribado de hipoacusia neonatal con OEA es coste efectivo a largo plazo (14) o dominante a corto plazo (15).

Chiou y cols. estimaron que, a largo plazo, el coste del cribado de hipoacusia neonatal con PEATCa por recién nacido fue de 1.131,90 \$ y su efectividad de 78,9886 AVAC, que el coste del cribado de hipoacusia neonatal con OEA por recién nacido fue de 1.130,00 \$ y su efectividad de 78,9880 AVAC y que el coste de la estrategia de no cribado por recién na-

cido fue de 1.145,90 \$ con una efectividad de 78,9855 AVAC. La comparación de las distintas estrategias dio como resultado que: 1) para el cribado de hipoacusia neonatal con PEATCa frente a no cribado el ratio coste efectividad incremental (RCEI) fue igual a  $-4.545,45$  \$/AVAC ganado, es decir, el cribado con PEATCa fue una estrategia dominante frente a no cribado, 2) para el cribado de hipoacusia neonatal con OEA frente a no cribado el RCEI fue igual a  $-6.309,52$  \$/AVAC ganado, es decir, el cribado con OEA fue una estrategia dominante frente a no cribado, y 3) para el cribado de hipoacusia neonatal con PEATCa frente a cribado auditivo neonatal universal con OEA el RCEI fue igual a  $3.393$  \$/AVAC ganado, es decir, el cribado con PEATCa fue una estrategia coste efectiva frente a cribado con OEA para una disponibilidad a pagar igual a 20.000 \$/AVAC ganado.

En el estudio de Heidari y cols. se indicó que, a corto plazo, el coste del cribado de hipoacusia neonatal con PEATCa fue igual a 3.310.700 \$ y su efectividad de 4.650 casos de recién nacidos detectados con pérdida auditiva, y que el coste del cribado de hipoacusia neonatal con OEA fue igual a 3.414.100 \$ y su efectividad de 3.850 casos de recién nacidos detectados con pérdida auditiva. Comparando ambas estrategias se obtuvo como resultado que el coste del cribado de hipoacusia neonatal con PEATCa frente a cribado de hipoacusia neonatal con OEA fue de  $-103.400$  \$ y el número de recién nacidos detectados con pérdida auditiva de 800 casos más, es decir, el cribado con PEATCa fue más barato y más efectivo (dominante) que el cribado con OEA.

#### **IV.1.4. Análisis de sensibilidad**

El análisis de sensibilidad determinístico realizado en el estudio de Chiou y cols. señaló que análisis de sensibilidad univariante en algunos parámetros como tasa de cumplimiento de la intervención, sensibilidad de las técnicas y coste del cribado produjo variaciones en los resultados. Así cuando la tasa de cumplimiento de la intervención de la ortodoxia auditiva fue  $<0,3$  el cribado con OEA y PEATCa no fue coste efectivo en comparación con el no cribado y cuando fue  $>0,8$  el cribado con OEA y el no cribado fue dominado por cribado con PEATCa. Cuando la sensibilidad de OEA fue  $<0,75$ , el cribado con OEA no fue una estrategia coste-efectiva, así mismo cuando la sensibilidad de PEATCa fue  $<0,8$ , el cribado con PEATCa no fue una estrategia coste efectiva. Por último, cuando el coste de cribado fue  $<27,8$  \$ por niño, el cribado con OEA fue dominado por el cribado con PEATCa y cuando fue  $<39,33$  \$ por niño, el beneficio monetario neto fue mayor para el cribado con PEATCa, mientras que cuando fue  $>39,33$  \$ fue mayor para el cribado con OEA.

En el estudio de Heidari y cols. el análisis determinístico univariante realizado sobre variaciones en los parámetros tasa de prevalencia de pérdida auditiva (2 u 8 por cada 1.000 recién nacidos vivos) y coste de los dispositivos (coste mínimo y máximo de 19,2 \$ y de 22 \$) no ocasionó variaciones significativas en los resultados obtenidos en el modelo base. Por el contrario, cuando el coste mínimo del cribado con OEA fue de 1,6 \$ y el coste máximo de cribado con PEATCa fue de 2,9 \$, la diferencia entre los costes de los dos dispositivos fue favorable al cribado con OEA, aunque continuó detectando menos casos de hipoacusia que el cribado con PEATCa.

El análisis de sensibilidad probabilístico realizado en el estudio de Chiou, señaló que para una disponibilidad a pagar igual a 20.000 \$/AVAC ganado, la probabilidad de que el cribado con OEA fuese coste-efectivo frente a no cribado era de 96.80 %, la probabilidad de que el cribado con PEATCa fuese coste-efectivo frente a no cribado era de 99,82 % y la probabilidad de que el cribado con PEATCa frente a cribado con OEA fuese coste-efectivo era de 90,44 \$.

**Tabla 3. Tablas de evidencia**

Referencia	Estudio	Fuentes de información	Intervención comparación	Análisis	Resultados	Conclusiones	Comentarios	Calidad de la evidencia
<b>Cita abreviada:</b> Chiou 2017	<p><b>Tipo de evaluación:</b> Análisis coste-utilidad.</p> <p><b>Objetivos:</b> Proponer un modelo de decisión analítico de Markov para realizar un análisis coste-utilidad probabilístico del programa de cribado poblacional de hipoacusia neonatal mediante la comparación de dos estrategias de cribado: omoisiones acústicas (OEA) o potenciales evocados auditivos de tronco cerebral automatizados (PEATCa) frente a no cribado y PEATCa frente a OEA, todo ello bajo el escenario Taiwanes.</p>	<p><b>Fuente de los datos de efectividad:</b> Las puntuaciones de utilidad a partir de las AVACS se obtuvieron de la literatura publicada, en concreto de un estudio realizado con 88 individuos con pérdida auditiva congénita de 7-8 años de edad. También se extrajeron de la literatura publicada a tasa de prevalencia de pérdida auditiva (de un estudio realizado en Taiwan) así como la sensibilidad y especificidad de las pruebas de cribado (OEA y PEATCa). Las tasas de transición aplicadas en el modelo de Markov, se obtuvieron de un único estudio publicado.</p>	<p>— Cribado poblacional de hipoacusia neonatal con OEA.</p> <p>— Cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa.</p> <p>— No cribado.</p>	<p><b>Perspectiva del análisis:</b> Social.</p> <p><b>Horizonte temporal:</b> La expectativa de vida de la población, 79 años.</p> <p><b>Tasa descuento costes y beneficios:</b> 3 % para ambas.</p> <p><b>Modelo:</b> Modelo analítico de decisión de Markov.</p> <p><b>Análisis de sensibilidad:</b> Univariante y probabilístico.</p>	<p><b>Costes/beneficios/ síntesis de costes y beneficios:</b> Para el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa, por recién nacido Coste = 1.131,90 \$, AVAC = 78,9886. Para el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con OEA: por recién nacido Coste = 1.130,00 \$, AVAC = 78,9880. Para la estrategia no cribado por recién nacido: Coste = 1.145,90 \$, AVAC = 78,9855.</p> <p><b>Análisis incremental:</b> Para el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa frente a no cribado: RCUJ = -4.545,45 \$/AVAC (dominante). Para el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con OEA frente a no cribado: RCUJ = -6.309,52 \$/AVAC (dominante). Para el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa frente a OEA: RCUJ = 3.393 \$/AVAC.</p>	<p>Los resultados de evaluación económica corroboran que el cribado poblacional de hipoacusia neonatal es una estrategia ahorradora (menos coste y más efectividad (utilidad) en comparación con el no cribado). La probabilidad de que el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa frente a OEA sea coste-efectivo es de hasta el 90 % dada una disposición a pagar razonable.</p>		Media

.../...

.../....

Referencia	Estudio	Fuentes de información	Intervención comparación	Análisis	Resultados	Conclusiones	Comentarios	Calidad de la evidencia
	<p><b>Periodo de realización:</b> No consta.</p> <p><b>Número de participantes / grupo:</b> 200.000 bebés recién nacidos.</p> <p><b>Características de los participantes:</b> Bebés recién nacidos bajo la cobertura del sistema de aseguramiento de salud Taiwanese.</p>	<p><b>Fuente de los datos de costos:</b> Los costes directos de las pruebas de cribado (OEA y PEATCa), del programa especial para la rehabilitación del lenguaje y de los audífonos fueron proporcionados por el Ministerio de Salud y Bienestar de Taiwan. El coste indirecto de la pérdida de productividad causado por la pérdida auditiva se obtuvo de la revisión de la literatura.</p>			<p><b>Análisis de sensibilidad:</b> <i>El análisis de sensibilidad univariante señala que:</i> Para una tasa de cumplimiento de la ortodoxia &lt;0,3, OEA y PEATCa no son coste-efectivas. Cuando es &gt;0,6 el no cribado es dominado por OEA y PEATCa. Cuando es &gt;0,8 o &lt;0,2 OAE y no cribado son dominados por PEATCa. Cuando la sensibilidad de OEA &lt;0,75 OEA no es coste-efectivo. Cuando es &lt;0,889 el beneficio monetario neto es mayor para PEATCa, cuando es &gt;0,889 el beneficio neto monetario es mayor para OEA. PEATCa no es coste-efectivo cuando su sensibilidad es &lt;0,8. Cuando el coste de cribado es &lt; 27,8 \$ por niño, OEA es dominada por PEATCa. Cuando es &lt;39,33 \$ por niño el beneficio monetario neto es mayor para PEATCa, cuando es &gt;39,33 el beneficio neto monetario es mayor para OEA.</p>			

.../....

.../...

Referencia	Estudio	Fuentes de información	Intervención comparación	Análisis	Resultados	Conclusiones	Comentarios	Calidad de la evidencia	
					<p>El análisis de sensibilidad probabilístico (para una disponibilidad a pagar de 20.000 \$/AVAC) señala que: La probabilidad de que OEA sea coste-efectivo frente a no cribado es del 96,80 %.</p> <p>La probabilidad de que PEATCa sea coste-efectivo frente a no cribado es del 99,82 %.</p> <p>La probabilidad de que PEATCa sea coste-efectivo frente OEA es del 90,44 %.</p>				

.../...

.../...

Referencia	Estudio	Fuentes de información	Intervención comparación	Análisis	Resultados	Conclusiones	Comentarios	Calidad de la evidencia
<b>Cita abreviada:</b> Heidari, 2017	<b>Tipo de evaluación:</b> Análisis coste-efectividad.  <b>Objetivos:</b> Realizar un análisis coste-efectividad con el objetivo de comparar la utilización de los Potenciales Auditivos de tronco cerebral automatizados (PEATCa) frente a las Otoemisiones Acústicas (OEA) como pruebas de cribado en un programa para el cribado poblacional de hipoacusia neonatal.  <b>Periodo de realización:</b> No consta.	<b>Fuente de los datos de efectividad:</b> La prevalencia de la pérdida auditiva se extrajo de estudios actualizados y con una gran muestra realizados en Irán. La sensibilidad y especificidad de las OEA se obtuvieron de revisiones sistemáticas y metaanálisis recientes realizados en Irán. La sensibilidad y especificidad de los PEATCa se obtuvieron de estudios de metaanálisis realizados en otros países.	– Cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa. – Cribado poblacional de hipoacusia neonatal con OEA.	<b>Perspectiva del análisis:</b> Sistema de cuidados de salud.  <b>Horizonte temporal:</b> Un año.  <b>Tasa descuento costes y beneficios:</b> No aplicable.  <b>Modelo:</b> Modelo de árbol de decisión.  <b>Análisis de sensibilidad:</b> Univariante.	<b>Costes/beneficios/ síntesis de costes y beneficios:</b> <i>El cribado poblacional de hipoacusia neonatal realizado con PEATCa:</i> Coste directo del cribado = 3.310.700 \$. Casos detectados con pérdida auditiva = 4.650 recién nacidos. <i>El cribado poblacional de hipoacusia neonatal realizado con OEA:</i> Coste directo del cribado = 3.414.100 \$. Casos detectados con pérdida auditiva = 3.850 recién nacidos.  <b>Análisis incremental:</b> <i>Para el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa frente a OEA:</i> Coste incremental = -103.100 \$. Efectividad incremental = 800 recién nacidos más con pérdida auditiva. Es menos costoso y más efectivo (dominante).	El dispositivo PEATCa es una tecnología no invasiva, rápida, segura y simple que se puede emplear en los programas de cribado poblacional de hipoacusia neonatal. La alta sensibilidad y especificidad de este dispositivo, en comparación con el dispositivo OEA, no solo reduce el número de casos remitidos falsamente, sino que también detecta un mayor porcentaje de recién nacidos con pérdida auditiva.	Media-baja	Media

.../...

.../...

Referencia	Estudio	Fuentes de información	Intervención comparación	Análisis	Resultados	Conclusiones	Comentarios	Calidad de la evidencia
	<p><b>Número de participantes / grupo:</b> Cohorte poblacional de un millón de recién nacidos.</p> <p><b>Características de los participantes:</b> Recién nacidos a los que se realiza cribado poblacional de hipoacusia neonatal durante las primeras 24 horas de nacimiento mediante PEATCa o OEA en una sola etapa.</p>	<p><b>Fuente de los datos de costes:</b> El coste de los dispositivos de cribado se obtuvo de los fabricantes de los mismos. Las fuentes de costes restantes se diseñaron en forma de cuestionario. Después de recoger los cuestionarios se aplicó un método Delphi para analizarlos y resumirlos. Los costes no se basaron en costes de las clínicas privadas.</p>			<p><b>Análisis de sensibilidad:</b> Para una tasa de prevalencia de pérdida auditiva de 2 por cada 1.000 recién nacidos vivos, el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con el dispositivo PEATCa es 11.760 \$ menos costoso y detecta 320 casos más de recién nacidos con pérdida auditiva que con el dispositivo OEA. Para una tasa de prevalencia de pérdida auditiva de 8 por cada 1.000 recién nacidos vivos, el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con el dispositivo PEATCa es 61.040 \$ menos costoso y detecta 1.280 casos más de recién nacidos con pérdida auditiva que con el dispositivo OEA. Para un coste mínimo y máximo del dispositivo PEATCa igual a 19,2 \$ y 22 \$, la diferencia entre el coste de los dispositivos PEATCa frente a OEA es de -48.800 \$ y -158.000 \$, respectivamente, detectándose además mediante PEATCa 800 casos más de recién nacidos con pérdida auditiva.</p>	<p>Además, teniendo en cuenta la tasa de natalidad anual, la tasa de prevalencia de la pérdida auditiva y la alta precisión diagnóstica de este dispositivo a largo plazo, se puede afirmar que este dispositivo supone costes más bajos que el dispositivo OEA. Si se proporciona la infraestructura requerida para los programas de cribado poblacional de hipoacusia neonatal, la citada técnica puede ser usada como una herramienta coste-efectiva en tales programas.</p>		

.../...

.../...

Referencia	Estudio	Fuentes de información	Intervención comparación	Análisis	Resultados	Conclusiones	Comentarios	Calidad de la evidencia	
					<p>Para el coste mínimo de cribado con OEA (1,6 \$) o el coste máximo de cribado con PEATCa (2,9 \$), la diferencia entre el coste de los dos dispositivos favorece a las OEA (-196.600 \$), sin embargo, puede detectar 800 casos menos de recién nacidos con pérdida auditiva comparado con PEATCa.</p> <p>Como no había incertidumbre en torno a la precisión diagnóstica de los resultados de los dispositivos, este parámetro no se sometió a análisis de sensibilidad.</p>				

## IV.2. Análisis de los programas empleados para el cribado de hipoacusia neonatal en las Comunidades y Ciudades Autónomas

Gracias a la revisión realizada en las páginas web correspondientes a las Consejerías o Departamentos de Sanidad o Salud de las CC.AA. y CiA se identificaron los programas empleados en las mismas para la detección precoz de hipoacusia neonatal. Un total de 17 programas fueron recuperados, uno por cada CC.AA., no pudiéndose determinar los correspondientes a las CiA al no aparecer en sus páginas web y al no tener respuesta a la petición de información realizada sobre sus programas. La información facilitada en los programas por cada CC.AA., en muchos casos, permitió conocer las variables necesarias para la realización del análisis descriptivo de los mismos: número de fases del cribado y técnicas de detección auditiva empleadas en cada una de ellas, cuándo se realizan, quién las realiza y dónde se realizan, en caso de que exista cribado por factores de riesgo el número de fases del mismo y las técnicas de detección auditiva empleadas, y para el diagnóstico, técnicas de detección auditivas y pruebas complementarias empleadas y cuándo se realiza el diagnóstico, quién lo realiza y dónde se realiza.

### IV.2.1. Detección

Entre el año 2000 y el 2010 las CC.AA. fueron poniendo en marcha sus programas para la detección precoz de hipoacusia. En base a lo señalado en los protocolos en lo referente a la fecha de implantación del cribado, en diez CC.AA. (Asturias, Islas Baleares, Castilla la Mancha, Castilla León, Comunidad Valenciana, Galicia, La Rioja, Navarra, País Vasco y Región de Murcia) el cribado de hipoacusia neonatal lleva realizándose más de 10 años.

En todas las CC.AA. la detección precoz de la hipoacusia neonatal se lleva a cabo mediante cribado poblacional. Además, nueve de ellas (Andalucía, Asturias, Islas Baleares, Cantabria, Castilla la Mancha, Comunidad Valenciana, La Rioja, Navarra y Región de Murcia) cuentan con un protocolo específico para el cribado selectivo en aquellos recién nacidos con factores de riesgo (ver tabla 4).

Las pruebas utilizadas para la realización del cribado fueron OEA, PEATCa y PEATC, siendo el número de fases exploratorias antes de referir a los recién nacidos con sospecha de hipoacusia a diagnóstico de una, dos o tres, cuando el cribado es poblacional, y de una o dos, cuando el cribado es específico para recién nacidos con factores de riesgo de hipoacusia (ver tabla 4).

**Tabla 4. Tipo de cribado y pruebas de cribado por fase**

	Cribado poblacional de hipoacusia neonatal			Cribado específico	
	Prueba fase 1	Prueba fase 2	Prueba fase 3	Prueba fase 1	Prueba fase 2
Andalucía	OEA	OEA	—	OEA/PEATC	—
Aragón	OEA	OEA	PEATCa	—	—
Asturias	OEA	OEA	OEA	OEA	—
Islas Baleares	OEA	OEA	PEATCa	PEATCa	PEATCa
Canarias	OEA	OEA	—	—	—
Cantabria	OEA	OEA	PEATCa	PEATC	—
Castilla-La Mancha	OEA/PEATCa	OEA	PEATCa	PEATC	—
Castilla-León	PEATCa	PEATCa	—	—	—
Cataluña	PEATCa	PEATCa	—	—	—
Comunidad Valenciana	OEA	PEATCa	—	PEATC	—
Extremadura	PEATCa	PEATCa	—	—	—
Galicia	PEATCa	—	—	—	—
La Rioja	OEA	—	—	PEATC	—
Madrid	PEATCa	—	—	—	—
Navarra	OEA	OEA	OEA	PEATC	—
País Vasco	PEATCa	Determinación por PCR de CMV en saliva	—	—	—
Región de Murcia	OEA	OEA	OEA	OEA/PEATC	OEA/PEATC

Fuente: elaboración propia.

Respecto al cribado poblacional de hipoacusia neonatal, de las 17 Comunidades Autónomas, dos emplean PEATCa como prueba de cribado en una fase exploratoria, tres PEATCa en dos fases, una OEA en una fase, dos OEA en dos fases, tres OEA en dos fases más PEATCa en una tercera, tres OEA en tres fases, una OEA/PEATCa en una primera fase más OEA en una segunda más PEATCa en una tercera, otra PEATCa en un fase y determinación de PCR de CMV en saliva en una segunda y otra OEA en una primera fase más PEATCa en una segunda. Con respecto a las pruebas utilizadas en el cribado cribado selectivo por factores de riesgo en cinco se emplean PEATC en una fase, en una OEA/PEATC en una fase, en otra OEA en una fase, en otra PEATCa en una fase, en

otra PEATCa en dos fases y en la última OEA/PEATC en dos fases. En la tabla 5 queda reflejado el número de veces que se utiliza cada prueba en cada fase y su proporción.

**Tabla 5. Pruebas de cribado. Número y proporción**

<b>CC.AA. Cribado poblacional de hipoacusia neonatal n = 17 (prueba de cribado)</b>	<b>n</b>	<b>%</b>
Fase 1:		
OEA	10	58,8 (10/17)
PEATCa	6	35,3 (6/17)
OEA/PEATCa	1	5,8 (1/17)
Fase 2:		
OEA	9	52,9 (9/17)
PEATCa	4	23,5 (4/17)
Determinación por PCR de CMV en saliva	1	5,8 (1/17)
Fase 3:		
OEA	3	17,6 (3/17)
PEATCa	4	23,5 (4/17)
<b>CC.AA. Cribado específico para recién nacidos con factores de riesgo de hipoacusia n = 9 (prueba de cribado)</b>	<b>n</b>	<b>%</b>
Fase1:		
OEA	1	11,1 (1/9)
PEATC	5	55,5 (5/9)
PEATCa	1	11,1 (1/9)
OEA/PEATC	2	22,2 (2/9)
Fase 2:		
PEATCa	1	11,15 (1/9)
OEA/PEATC	1	11,1 (1/9)

Fuente: elaboración propia.

A pesar de la heterogeneidad en el diseño del cribado, número de fases exploratorias y pruebas empleadas en cada fase, se han encontrado características organizativas comunes entre los programas de cribado pobla-

cional de hipoacusia neonatal (tabla 6). Así, con respecto a cuándo realizar las pruebas de cribado, las 17 CC.AA. señalan que la primera fase exploratoria se realiza antes del alta hospitalaria, reflejándose en una que sea a partir de las 24 del nacimiento del niño y en cinco que sea a partir de las 48 horas; para las 14 que realizan una segunda fase, 12 indican que antes del mes de vida y dos a los dos meses de vida; mientras que para las cinco que ejecutan una tercera fase surge discrepancia ya que dos señalan que antes del mes de vida, dos antes de los tres meses y una no indica nada. En lo relativo a quién, qué personal sanitario, es el encargado de realizar las pruebas de cribado en las diferentes fases, en nueve señalan que el personal de enfermería, en seis un equipo multidisciplinar integrado también por personal de enfermería y en dos no se dice nada. Por último, en referencia a en dónde se realizan las pruebas de cribado, las 17 CC.AA. ejecutan la primera fase en el hospital (servicio de maternidad); para las 14 que realizan una segunda fase, ocho señalan que en el hospital (seis en consulta de ORL hospitalaria), una en el Centro de Salud (ambulatorio) y cinco no indican nada; y para las cinco que llevan a cabo la tercera fase una indica que se realiza en el servicio de ORL y otra en una unidad de diagnóstico de hipoacusia.

**Tabla 6. Características organizativas**

CC.AA. Cribado poblacional de hipoacusia neonatal n = 17 (cuándo se realiza el cribado)	n	%
Fase 1:		
Antes del alta hospitalaria	12	70,5 (12/17)
A partir 24h después del nacimiento y antes del alta hospitalaria	1	5,9 (1/17)
A partir 48h después del nacimiento y antes del alta hospitalaria	4	23,5 (4/17)
Fase 2:		
Entre una semana y un mes de vida	6	35,3 (6/17)
Antes del mes de vida	6	35,3 (6/17)
A los dos meses de vida	2	11,8 (2/17)
No realizada	3	17,6 (3/17)
Fase3:		
Antes del mes de vida	2	11,8 (2/17)
A los tres meses de vida	2	11,8 (2/17)
No señalado	1	5,9 (1/17)
No realizada	12	70,5 (12/17)

.../...

.../...

<b>CC.AA. Cribado poblacional de hipoacusia neonatal n = 17 (quién realiza el cribado)</b>	<b>n</b>	<b>%</b>
Personal de enfermería	9	52,9 (9/17)
Equipo multidisciplinar (personal de enfermería, facultativo ORL, pediatra, neonatólogo)	6	35,3 (6/17)
No señalado	2	11,8 (2/17)
<b>CC.AA. Cribado poblacional de hipoacusia neonatal n = 17 (dónde se realiza el cribado)</b>	<b>n</b>	<b>%</b>
Fase 1:		
Hospital (maternidad)	17	100,0 (17/17)
Fase 2:		
Hospital	2	11,8 (2/17)
Ambulatorio	1	5,9 (1/17)
Hospital (consulta ORL)	6	35,3 (6/17)
No señalado	5	29,4 (5/17)
No realizada	3	17,6 (3/17)
Fase 3:		
Servicio ORL	1	5,9 (1/17)
Unidad diagnóstico de hipoacusia	1	5,9 (1/17)
No señalado	3	17,6 (3/17)
No realizada	12	70,5 (12/17)

Fuente: elaboración propia.

A la hora de valorar las características organizativas de los programas de aquellas CC.AA. en donde se lleva a cabo cribado de hipoacusia específico para recién nacidos con factores de riesgo, no se observa la existencia clara de elementos comunes entre CC.AA. o los programas no reflejan las mismas (ver tabla 7).

**Tabla 7. Características organizativas**

<b>CC.AA. Cribado específico para recién nacidos con factores de riesgo de hipoacusia n = 9 (cuándo se realiza el cribado)</b>	<b>n</b>	<b>%</b>
<b>Fase 1:</b>		
Antes del alta hospitalaria	3	33,3 (3/9)
A partir 48h después del nacimiento y antes del alta hospitalaria	1	11,1 (1/9)
Antes de los 3 meses de vida	1	11,1 (1/9)
No señalado	4	44,4 (4/9)
<b>Fase 2:</b>		
A la semana de vida	1	11,1 (1/9)
Al mes de vida	1	11,1 (1/9)
No realizan	7	77,7 (7/9)
<b>CC.AA. Cribado específico para recién nacidos con factores de riesgo de hipoacusia n = 9 (quién se realiza el cribado)</b>	<b>n</b>	<b>%</b>
No señalado	9	100,0 (8/8)
<b>CC.AA. Cribado específico para recién nacidos con factores de riesgo de hipoacusia n = 9 (dónde se realiza el cribado)</b>	<b>n</b>	<b>%</b>
Hospital (unidad de cribado)	1	11,1 (1/9)
Hospital (maternidad)	1	11,1 (1/9)
Hospital (consulta ORL)	1	11,1 (1/9)
Unidad de diagnóstico precoz de la hipoacusia infantil	1	11,1 (1/9)
No señalado	5	55,5 (5/9)

Fuente: elaboración propia.

## **IV.2.2. Diagnóstico**

De los 17 programas recuperados, en 15 las CC.AA. indican cuáles son las pruebas de diagnóstico de hipoacusia neonatal empleadas y las características organizativas de dicho diagnóstico. Tres son las pruebas empleadas: OEA, PEATC y potenciales evocados auditivos de estado estable (PEAee). Además, en 12 se señala que también utilizan pruebas complementarias: audiometría lúdica y conductual, PEAee, diagnóstico etiológico,

estudio de ORL, timpanometría, OEA, otoscopia, impedanciometría, reflejo estapedial y pruebas de imagen (ver tabla 8).

**Tabla 8. Pruebas de diagnóstico**

CC.AA. Diagnóstico de hipoacusia N = 17		
	Prueba	Pruebas complementarias
Andalucía	PEATC	—
Aragón	PEATC	—
Asturias	PEATC y OEA	Audiometría lúdica y conductual
Islas Baleares	PEATC	PEAee, audiometría, estudio etiológico.
Canarias	PEATC	Estudio ORL
Cantabria	PEATC y/o OEA	Diagnóstico etiológico
Castilla-La Mancha	PEATC	Diagnóstico etiológico
Castilla-León	PEATC o OEA	Diagnóstico etiológico
Cataluña	PEATC 1+PEATC 2 (VA, VO), PEAee, OEA/PD	Timpanometría y reflejos estapediales, audiometría observacional, diagnóstico etiológico.
Comunidad Valenciana	PEATC	OEA, PEAee, audiometría conductual, diagnóstico etiológico
Extremadura	—	—
Galicia	PEATC Y PEAee	Otoscopia, impedanciometría
La Rioja	PEATC	—
Madrid	PEATC y PEAee	Timpanometría, reflejo estapedial, OEA, audiometría conductual
Navarra	PEATC y PEAee	Analítica pruebas de imagen
País Vasco	PEATC y PEAee	Audiometría conductual, timpanometría, OEA y diagnóstico etiológico.
Región de Murcia	—	—

Fuente: elaboración propia.

Además, en la tabla 9 queda reflejado el número de veces que se utiliza cada prueba de diagnóstico, principal y complementaria, y su proporción.

**Tabla 9. Pruebas diagnósticas. Número y proporción**

CC.AA. Diagnóstico de hipoacusia N = 17 (prueba diagnóstico)	n	%
PEATC	7	41,2 (7/17)
PEATC y OEA	3	17,6 (3/17)
PEATC y OEA o PEAAee y OEA	1	5,9 (1/17)
PEATC y PEAAee	4	23,5 (4/17)
No señalado	2	11,8 (2,17)
CC.AA. Diagnóstico de hipoacusia N = 17 (pruebas complementarias)	n	%
Diagnóstico etiológico	3	17,6 (3/17)
Audiometría (lúdica, conductual)	1	5,9 (1/17)
Estudio ORL	1	5,9 (1/17)
Timpanometría, audiometría	1	5,9 (1/17)
OEA, PEAAee, audiometría conductual, diagnóstico etiológico	1	5,9 (1/17)
Otoscopia, impedanciometría	1	5,9 (1/17)
Timpanometría, reflejo estapedial, OEA, audiometría conductual	1	5,9 (1/17)
Analítica, pruebas de imagen	1	5,9 (1/17)
PEAAee, audiometría, estudio etiológico	1	5,9 (1/17)
Audiometría conductual, timpanometría, OEA y diagnóstico etiológico.	1	5,9 (1/17)
No señalado	5	29,4 (5/17)

Fuente: elaboración propia.

En lo que respecta a las características organizativas señalar que solamente se observan aspectos comunes entre los distintos programas en lo referente a cuándo se realiza el diagnóstico, no así en lo relacionado con quién lo lleva a cabo y en dónde se efectúa. Se observa que en 10 de los programas se señala que el diagnóstico de hipoacusia se realiza antes del

tercer mes de vida del niño. Por otro lado, no queda claro quién realiza el diagnóstico, ya que en nueve protocolos no se señala, aunque en cinco indican que facultativo de ORL, y en dónde efectuarlos, si bien en seis se dice que se realizan en consulta hospitalaria de ORL y en siete en unidades de referencia diseñadas para ello: unidad de referencia de hipoacusia infantil y unidad de diagnóstico precoz de la hipoacusia (ver tabla 10).

**Tabla 10. Características organizativas**

<b>CC.AA. Diagnóstico de hipoacusia N = 17 (cuándo se realiza)</b>	<b>n</b>	<b>%</b>
Entre el primer y segundo mes de vida	1	5,9 (1/17)
Antes del tercer mes de vida	10	58,8 (10/17)
Antes del sexto mes de vida	2	11,8 (2,17)
Al tercer mes de vida y al sexto mes de vida (onda V> 35 dB)	1	5,9 (1/17)
No señalado	3	17,6 (3/17)
<b>CC.AA. Diagnóstico de hipoacusia N = 17 (quién realiza el cribado)</b>	<b>n</b>	<b>%</b>
Facultativo de ORL	5	29,3 (5/17)
Neuropediatra, facultativo ORL	1	5,9 (1/17)
Personal de la unidad de referencia para la hipoacusia infantil	1	5,9 (1/17)
Personal de la unidad regional acreditada de referencia	1	5,9 (1/17)
No señalado	9	52,9 (9/17)
<b>CC.AA. Diagnóstico de hipoacusia N = 17 (dónde se realiza)</b>	<b>n</b>	<b>%</b>
Consulta hospitalaria de ORL	6	35,3 (6/17)
Unidad de referencia de hipoacusia infantil	4	23,5 (4/17)
Unidad de diagnóstico precoz de la hipoacusia	3	17,6 (3/17)
No señalado	4	23,5 (4/17)

Fuente: elaboración propia.

# V. Discusión

En España a partir de 2003, fecha en la que en el marco del CISNS se aprobó el Programa de Detección Precoz de la Hipoacusia en Recién Nacidos y en la que se publicaron las recomendaciones establecidas sobre los contenidos mínimos y básicos del mismo, las CC. AA. y CiA han ido poniendo en marcha sus propios programas para cribado auditivo neonatal.

El establecimiento por parte de las distintas CC.AA. y CiA de programas de detección precoz de la hipoacusia en recién nacidos toma como punto de partida la experiencia aportada por programas ya desarrollados que señalan que la detección precoz de la hipoacusia es posible y que una intervención temprana, con intervención logopédica y audioprotésica, posibilita que los niños con problemas auditivos accedan al lenguaje oral en la primeras edades y al desarrollo de los aprendizajes posteriores que dependen de él, permitiéndoles mayores posibilidades de integración familiar, educativa y laboral (7).

La adopción de dichos programas se ha basado principalmente en criterios de efectividad sin tener en consideración criterios de eficiencia, Para conocer si las diferentes estrategias utilizadas para la detección de la hipoacusia neonatal en el cribado poblacional de hipoacusia neonatal son coste-efectivas, se ha llevado a cabo una revisión sistemática de la literatura económica publicada.

La revisión sistemática realizada ha permitido identificar, entre enero de 2014 y julio de 2018, dos artículos de evaluación económica que cumplen con los criterios de inclusión establecidos (14,15). En dichos artículos se concluye que a largo plazo, el cribado poblacional de hipoacusia neonatal tanto con PEATCa como con OEA es dominante (ahorra costes y es más efectivo) frente al no cribado y que el poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa es coste-efectivo con respecto poblacional de hipoacusia neonatal con OEA (14), y que a corto plazo, el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa es dominante frente al realizado con OEA (15). Ahora bien, estos resultados deben ser analizados con cautela debido principalmente a las debilidades identificadas en la validez interna y validez externa de los dos artículos seleccionados. Que la validez interna sea insuficiente, ocasionado sobre todo por el tipo de las fuentes empleadas para la extracción de los datos de efectividad (prevalencia de hipoacusia, sensibilidad y especificidad de los PEATCa y OEA, y grado de cumplimiento de la ortopraxia auditiva) y de costes (dispositivos de cribado, audífonos, programa de rehabilitación del lenguaje y pérdida de produc-

tividad), así como por cómo se obtienen los mismos, implica la aparición de sesgos que influyen en la validez de los resultados obtenidos. Además, que la validez externa tampoco sea adecuada, supone que los resultados no sean del todo generalizables a la población y contexto que interesa, es decir, no puedan ser referentes para países diferentes a donde se realizaron.

De acuerdo con los resultados de los dos artículos recuperados en la revisión, parece ser que el cribado poblacional de hipoacusia neonatal es coste-efectivo frente a no cribado y que realizar este con PEATCa es más coste efectivo que con OEA. Si estos resultados se comparan con los obtenidos en otras revisiones sistemáticas (16,17) o informes de evaluación de tecnologías sanitarias (2,11), se aprecia que hay que matizarlos.

Sharma R. y cols. (16) indican que nueve de las evaluaciones económicas incluidas en su revisión sistemática notifican que el cribado auditivo neonatal es coste-efectivo comparado con cribado auditivo neonatal específico o no cribado, aunque en otra el resultado es que no cribado es coste-efectivo y en cinco no concluyen qué estrategia de cribado es más coste-efectiva, por lo que no queda claro si el cribado poblacional de hipoacusia neonatal es o no coste-efectivo.

En la revisión sistemática realizada por Colgan S y cols. (17), se señala que, aunque el cribado auditivo neonatal universal está adoptado en todo el mundo, aún no ha sido definido como una inversión coste-efectiva, siendo el mayor impedimento para ello la falta de estudios comparativos de efectividad en los que los autores recojan datos de resultados prospectivos a largo plazo en calidad de vida y oportunidades educativas, sociales y laborales. El único estudio incluido en su revisión en donde se analiza a largo plazo el coste-efectividad del cribado poblacional de hipoacusia neonatal frente a cribado específico por factores de riesgo, concluye que el cribado poblacional podría ahorrar costos si la intervención temprana condujese a una reducción sustancial en futuros costes de tratamiento y pérdidas de productividad. Infieren que es prematuro sacar conclusiones sobre si el cribado poblacional de hipoacusia neonatal es coste-efectivo debido a falta de evidencia a largo plazo sobre costes y efectividad. Al igual que en las revisiones sistemáticas anteriores, en los informes de evaluación de tecnologías sanitarias realizados por el IACS en 2016 (2) y por AETSA en 2017 (11), los autores de dichos documentos concluyen que no se dispone de evidencia de calidad que determine que el cribado poblacional de hipoacusia neonatal sea coste-efectivo frente a otras estrategias de diagnóstico de la pérdida auditiva permanente en la infancia.

Respecto a si el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa es más coste-efectivo que con OEA, Sharma R y cols., señalan

que la evidencia recuperada en su revisión sistemática no permite un resultado claro. Así, indican que mientras que en siete estudios la utilización de PEATCa como prueba de cribado es más coste-efectivo que el uso de OEA, dos muestran que es más coste-efectivo utilizar OEA en dos o tres fases y uno que OEA seguido de PEATCa es más coste-efectivo que OEA solo. Por otro lado, el informe de evaluación de tecnologías sanitarias realizado por el IACS, dice, en base a la revisión sistemática realizada en el mismo, que la evidencia sugiere que la técnica de cribado poblacional más eficiente desde la perspectiva del sistema sanitario es la OEA, siendo la opción más eficiente para la población en riesgo la unión de OEA-PEATC.

Además de la revisión sistemática, en este informe también se ha realizado un análisis descriptivo del diseño general y características organizativas de los programas de cribado auditivo vigentes en las distintas CC.AA. y CiA de España. En lo relativo al diseño general del cribado se observa variabilidad entre los distintos programas. De los programas recuperados, en las 17 CC.AA. el cribado neonatal de hipoacusia es poblacional para todos los recién nacidos, y además, en nueve de ellas, se realiza cribado específico en los recién nacidos con factores de riesgo de hipoacusia. En lo relativo al número de etapas en las que se realiza las pruebas de cribado de hipoacusia varía entre una, dos o tres. En cuanto a la prueba audiológica utilizada en el cribado, 10 programas indican que emplean OEA, seis PEATCa y una OEA/PEATCa como prueba en la primera etapa exploratoria, utilizándose OEA en nueve programas y PEATCa en cuatro como prueba en aquellos que indican una segunda etapa y OEA en tres programas y PEATCa en tres para los que señalan tres etapas. Para las nueve CC.AA. que además señalan que realizan cribado específico, durante la primera etapa las pruebas utilizadas son PEATC en cinco programas, PEATCa en una, OEA/PEATC en dos y OEA en uno, siendo las indicadas en los dos que señalan que realizan una segunda etapa PEATCa y OEA/PEATC. Si se comparan estos resultados con los obtenidos por Sloot F y cols. (18) y Vos B y cols. (19), a nivel europeo también se observa una gran diversidad en cuanto al diseño y organización de los mismos. Sloot F y cols. indican que para los 38 países de los que se obtiene información en su estudio sobre los programas de cribado auditivo neonatal, la prueba audiológica más ampliamente utilizada en los mismos fue OEA, aunque señalan que en algunas regiones en Dinamarca, Estonia, Francia, Alemania, España y Suiza se utiliza PEATCa, OEA o las dos como primera prueba en bebés sanos, siendo las utilizadas en los que tienen riesgo alto PEATCa o una combinación de OEA y PEATCa, aunque encuentran que en ocho se emplea solo OEA. Además, estas pruebas son realizadas en cinco países en una etapa, en 13 en dos, en 19 en tres y en uno en cuatro. Vos B y cols, al igual que los anteriores, también señalan esta

diversidad, así para los 39 programas identificados en su análisis, en 13 se realiza lo que ellos denominan protocolo de grupo de objetivo único, que concierne a recién nacidos sanos, y en 23 se realiza protocolo de grupo objetivo dual, que concierne a recién nacidos sanos y con factores de riesgo de hipoacusia y en donde los recién nacidos son separados en dos subprotocolos que corren simultáneamente. En todos los programas el cribado es poblacional, realizándose además en los de grupo objetivo dual cribado específico. Por otro lado, el número de etapas en los que se realizan es entre una y tres, siendo las pruebas utilizadas OEA, PEATC y OEA/PEATC en una proporción mayor o menor dependiendo del protocolo de grupo objetivo.

En los protocolos se observa que la mayor variabilidad se produce en el número de fases o etapas exploratorias en las que se realizan las pruebas de cribado auditivo (una, dos o tres) antes de referir al recién nacido a diagnóstico y no en las pruebas utilizadas en el cribado auditivo, que en definitiva solo son dos OEA y PEATCa. La elección de un número múltiple de etapas exploratorias de cribado tiene como objetivo aumentar la especificidad del mismo, lo cual reduce la tasa de referencia de los recién nacidos a diagnóstico audiológico mediante la reducción de falsos positivos, particularmente en programas que utilizan OEA como prueba de cribado (18, 19). La repetición de las pruebas de cribado no debe retrasar el diagnóstico de hipoacusia auditiva neonatal y la elección del número de etapas debe estar balanceada con el riesgo de pérdida en el seguimiento de los recién nacidos al multiplicar el número de fases (19).

En lo referente a las características organizativas de los programas de cribado, del análisis descriptivo se pueden extraer una serie de elementos comunes en ellos. Así, las pruebas de cribado poblacional se realizan antes del alta hospitalaria, por lo general a partir de las 48 horas del nacimiento del bebé; en el hospital, preferentemente en el servicio de maternidad; y principalmente por personal de enfermería o por un equipo multidisciplinar en el que también está encuadrado dicho personal. Estos elementos comunes no se aprecian cuando se revisan las características señaladas en los programas para el cribado específico en recién nacidos con factores de riesgo. Estas características señaladas también quedan reflejadas en el estudio realizado por Vos B y cols., en donde se dice que hay tres elementos comunes más frecuentemente encontrados en la realización de las pruebas del cribado auditivo neonatal: uno, los profesionales de enfermería son a menudo elementos clave en la realización del cribado; dos, las pruebas se realizan durante la estancia hospitalaria y en la medida de lo posible combinándolas con otras pruebas de cribado neonatal; y tercero, el cribado se realiza en el hospital. Así mismo, señalan que los tres elementos comunes

no son aplicables cuando el cribado se realiza en recién nacidos con factores de riesgo de hipoacusia.

En los programas recuperados se observa que en la fase de diagnóstico de hipoacusia neonatal la prueba diagnóstica varía entre unos y otros, ya que aunque en todos se utiliza los PEATC, en varios además también se emplea PEAAe o OEA combinados de distinta manera. A estas pruebas hay que sumar en la mayoría de los protocolos diferentes pruebas de diagnóstico complementarias: audiometría lúdica o convencional, timpanometría, diagnóstico etiológico, etc. Las características organizativas del diagnóstico no quedan evidentes en los programas de cribado en lo referente a quién los realiza y en dónde, no así en cuándo se realiza ya que se dice que tiene que ser antes del tercer mes de vida del recién nacido. Esta confusión sobre quién y dónde se explica en gran medida por el número de programas que no señalan nada sobre ello. Para los que sí lo indican el diagnóstico lo realiza un facultativo de ORL en consulta hospitalaria de ORL o unidades de referencia diseñadas para ello.

## Limitaciones

Como limitaciones de este estudio señalar dos, una referida a la calidad de los estudios recuperados y otra a la manera en que se han obtenido los programas de cribado de hipoacusia neonatal recuperados. Que la calidad de los estudios recuperados no sea adecuada, calificada como media debido a las deficiencias encontradas en el método-validez interna, validez externa y conflicto de intereses, ocasiona que no se puedan extraer conclusiones concluyentes sobre el coste-efectividad del cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa o OEA frente a no cribado o cribado específico. Una evidencia de mayor calidad será necesaria para poder tener una visión correcta sobre el coste-efectividad del cribado auditivo neonatal. A nivel nacional será necesario realizar estudios de evaluación económica completos, en donde el horizonte temporal sea a largo plazo para determinar si la detección precoz de la hipoacusia y una intervención temprana posibilita una mejora en la integración familiar, educativa y laboral, la perspectiva sea la de la sociedad y los datos de efectividad (prevalencia de hipoacusia, sensibilidad y especificidad de las pruebas de cribado (PEATCa y OEA), el grado de cumplimiento de la ortopraxia auditiva, y al calidad de vida relacionada con la salud (AVAC)) y de costes (dispositivos de cribado, audífonos, programa de rehabilitación del lenguaje y pérdida de productividad) se obtengan de datos nacionales o de estudios realizados a nivel nacional.

En cuanto a la segunda limitación, el método por el que se obtuvo la información sobre los programas de cribado auditivo neonatal de las CC.AA. y CiA, a través de una búsqueda en las páginas web correspondientes a sus Consejerías o Departamentos de Sanidad o Salud, no es el más correcto ya que la búsqueda puede dar resultados incompletos, confusos y no actualizados. Con el fin de completar aquellos datos que no fue posible obtener a partir de la búsqueda inicial se envió por correo electrónico a las CC.AA. y CiA un resumen, en tablas, de las variables principales sobre el diseño general y características organizativas de sus programas de cribado auditivo neonatal, para que completasen las variables que no se pudieron extraer y confirmasen si las extraídas eran las correctas; debido a la no disponibilidad de la información, no se logró cumplir el objetivo.

Por último, se entiende necesario evaluar los programas de detección precoz de hipoacusias de las distintas CC.AA. y CiA con el fin de conocer si cumplen con sus objetivos de cobertura, proceso y resultado. Para ello es imprescindible llevar un registro adecuado de los datos obtenidos del cribado que permita dar respuesta a los indicadores mínimos de calidad propuestos en el documento en el que quedan recogidos los contenidos básicos y mínimos del programa de detección precoz de hipoacusias (20). Que cada programa recoja con precisión los indicadores de cobertura, proceso y resultados señalados en dicho documento permitirá controlar la calidad de los mismos. Los criterios de calidad son garantía de que esta iniciativa permitirá el descubrimiento y tratamiento de los niños hipoacúsicos, los cuales van a necesitar una vigilancia permanente para proporcionarles la mejor atención, tanto médica, como educativa y social (7).

## VI. Conclusiones

- De la evidencia recuperada en la revisión sistemática realizada, al no disponer los artículos de evaluación económica seleccionados de la calidad suficiente, no se puede extraer una conclusión clara sobre si, a largo plazo, el cribado poblacional de hipoacusia neonatal es coste-efectivo frente a otras estrategias de cribado de pérdida auditiva en la infancia o frente a no cribado o sobre si el cribado poblacional de hipoacusia neonatal con PEATCa es más coste-efectivo que con OEA. Las evaluaciones económicas incluidas en la revisión sistemática sugieren que, a largo plazo, el cribado poblacional de hipoacusia neonatal es coste-efectivo frente a no cribado y que realizar este con PEATCa es más coste efectivo que con OEA, tanto a corto como a largo plazo.
- Los programas de cribado auditivo neonatal encontrados para las distintas CC.AA. presentan una importante variabilidad en cuanto a su diseño general y las características organizativas. Dicha variabilidad no permite establecer elementos comunes entre ellos en los referente a aspectos como número de fases (una, dos o tres) y tipo de prueba (PEATCa, OEA o PEATCa/OEA), no así en cuanto a las características organizativas, que aunque siendo diferentes entre programas, se pueden extraer tres elementos comunes a la mayoría: las pruebas de cribado universal se realizan antes del alta hospitalaria, por lo general a partir de las 48 horas del nacimiento del bebé; en el hospital, preferentemente en el servicio de maternidad; y principalmente por personal de enfermería o por un equipo multidisciplinar en el que también está encuadrado.

## VII. Referencias

1. García Aguado J. Cribado de la hipoacusia. En Recomendaciones PrevInfad/PAPPS [en línea]. Actualizado mayo de 2018. [consultado 7 enero 2019]. Disponible en <http://previnfad.aepap.org/monografia/hipoacusia.htm>
2. Ridao Lopez M, Gavin Benavent P, Martin Sanchez 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.
3. BIAP-Bureau International d'Audiophonologie-Recomendaciones CT 02 Classification des déficiences auditives [Internet]. [consultado 7 enero 2019]. Disponible en: <http://www.biap.org/es/recommandations/recomendaciones/ct-02-clasificacio-n-de-las-deficiencias-auditivas>
4. Fontane-Ventura, V. Deficit auditivo: Retraso en el habla de origen audigeno. Rev Neurol. 2005; 41 (Supl 1): S25-37.
5. Delgado J. Detección precoz de la hipoacusia infantil. Rev Pediatr Aten Primaria. 2011; 13:279-99.
6. CODEPEH. Libro Blanco sobre la Hipoacusia. Detección precoz de la Hipoacusia en recién nacidos. Ministerio de Sanidad y Consumo. Madrid.
7. Trinidad-Ramos G, Alzina de Aguilar V, Jaudenes-Casabon C, Nunez-Batalla F, Sequi-Canet JM. Recomendaciones de la Comision para la Deteccion 88 INFORMES, ESTUDIOS E INVESTIGACIÓN Precoz de la Hipoacusia (CODEPEH) para 2010. Act Otorrinolaringol Esp. 2010; 61(1):69-77.
8. González de Aledo Linos A, Bonilla Miera C, Morales Angulo C, Gómez da Casa F, Barrasa Benito J. Cribado universal de la hipoacusia congénita en Cantabria: resultados de los dos primeros años. An. Pediatr (Barc). 2005; 62:135-40.
9. American Academy of Pediatrics, Joint Committee on Infant Hearing. Year 2007 position statement: Principles and guidelines for early hearing detection and intervention programs. Pediatrics. 2007 Oct; 120(4):898-921.

10. J. Marco, A. Almenar, V. Alzina, V. Bixquert, M.C. Jaudenes y Á. Ramos. Control de calidad de un programa de detección, diagnóstico e intervención precoz de la hipoacusia en recién nacidos. Documento oficial de la comisión para la detección de la hipoacusia en recién nacidos (CODEPEH). *Acta Otorrinolaringológica Española*. 2004;55(3):103-106.
11. Baños Álvarez E, Rosario Lozano MP. Cribado neonatal de hipoacusia: informe de respuesta breve [Internet]. Sevilla: Agencia de Evaluación de Tecnologías Sanitarias de Andalucía; 2017. URL: [http://www.aetsa.org/download/publicaciones/AETSA-Respuesta-Breve-Hipoacusia\\_DEF.pdf](http://www.aetsa.org/download/publicaciones/AETSA-Respuesta-Breve-Hipoacusia_DEF.pdf).
12. Husereau D, Drummond M, Petrou S, Carswell C, Moher D, Greenberg D, Augustovski F, Briggs AH, Mauskopf J, Loder E; CHEERS Task Force. Consolidated Health Economic Evaluation Reporting Standards (CHEERS) statement. *Value Health*. 2013 Mar-Apr; 16(2): e1-5.
13. López de Argumedo M, Reviriego E, Andrío E, Rico R, Sobradillo N, Hurtado de Saracho I. Revisión externa y validación de instrumentos metodológicos para la Lectura Crítica y la síntesis de la evidencia científica. Madrid: Plan Nacional para el SNS del MSC. Servicio de Evaluación de Tecnologías Sanitarias del País Vasco (Osteba); 2006. Informes de Evaluación de Tecnologías Sanitarias: OSTEBA n.º 2006/02.
14. Chiou ST, Lung HL, Chen LS, Yen AM, Fann JC, Chiu SY, Chen HH. Economic evaluation of long-term impacts of universal newborn hearing screening. *Int J Audiol*. 2017 Jan; 56(1):46-52.
15. Heidari S, Manesh AO, Rajabi F, Moradi-Joo M. Cost-effectiveness analysis of automated auditory brainstem response and otoacoustic emission in universal neonatal hearing screening. *Iranian Journal of Pediatrics*. 2017; 27(2):1-8.
16. Sharma R, Gu Y, Ching TYC, Marnane V, Parkinson B. Economic Evaluations of Childhood Hearing Loss Screening Programmes: A Systematic Review and Critique. *Appl Health Econ Health Policy*. 2019 Jan 25. doi: 10.1007/s40258-018-00456-1.
17. Colgan S, Gold L, Wirth K, Ching T, Poulakis Z, Rickards F, Wake M. The cost-effectiveness of universal newborn screening for bilateral permanent congenital hearing impairment: systematic review. *Acad Pediatr*. 2012 May-Jun;12(3):171-80.

18. Sloot F, Hoeve HL, de Kroon ML, Goedegebure A, Carlton J, Griffiths HJ, Simonsz HJ; EUSCREEN Study Group. Inventory of current EU paediatric vision and hearing screening programmes. *J Med Screen*. 2015 Jun; 22(2):55-64.
19. Vos B, Senterre C, Lagasse R, Tognola G, Levêque A. Organisation of newborn hearing screening programmes in the European Union: widely implemented, differently performed. *Eur J Public Health*. 2016 Jun; 26(3):505-10.
20. Consejo Interterritorial del Sistema Nacional de Salud. Ministerio de Sanidad y Consumo. Programa de detección precoz de la hipoacusia [Internet]. 2003 [consultado 7 enero 2017]. Disponible en: <https://www.mscbs.gob.es/gl/profesionales/saludPublica/prevPromocion/maternoInfantil/docs/ProgramaHipoacusiasSNS.pdf>

# VIII. Anexos

## Anexo VIII.1. Estrategias de búsqueda

### **Medline, vía Pubmed**

**Fecha de búsqueda, julio de 2018**

#### *Hipoacusia*

- #1 Search “Hearing Disorders”[MeSH Terms]
- #2 Search “Hearing Loss”[MeSH Terms]
- #3 Search “Deafness”[MeSH Terms]
- #4 Search “Hearing Loss, Bilateral”[MeSH Terms]
- #5 Search “Hearing Loss, Conductive”[MeSH Terms]
- #6 Search “Hearing Loss, Functional”[MeSH Terms]
- #7 Search “Hearing Loss, High-Frequency”[MeSH Terms]
- #8 Search “Hearing Loss, Mixed Conductive-Sensorineural”[MeSH Terms]
- #9 Search “Hearing Loss, Sensorineural”[MeSH Terms]
- #10 Search “Hearing Loss, Central”[MeSH Terms]
- #11 Search “Hearing Loss, Noise-Induced”[MeSH Terms]
- #12 Search “Usher Syndromes”[MeSH Terms]
- #13 Search “Hearing Loss, Sudden”[MeSH Terms]
- #14 Search “Hearing Loss, Unilateral”[MeSH Terms]
- #15 Search #1 OR #2 OR #3 OR #4 OR #5 OR #6 OR #7 OR #8 OR #9 OR #10 OR #11 OR #12 OR #13 OR #14
- #16 Search hearing[Title/Abstract] AND (loss\*[Title/Abstract] OR impair\*[Title/Abstract] OR disorder\*[Title/Abstract] OR defect\*[Title/Abstract] OR distort\*[Title/Abstract])
- #17 Search deaf\*[Title/Abstract]

- #18 Search hypoacus\*[Title/Abstract]  
 #19 Search (usher\*[Title/Abstract] OR hallgren\*[Title/Abstract]) AND syndrome\*[Title/Abstract]  
 #20 Search #15 OR #16 OR #17 OR #18 OR #19 **114.484**

### *Screening*

- #21 Search “Neonatal Screening”[MeSH Terms]  
 #22 Search “Early Diagnosis”[MeSH Terms]  
 #23 Search “Mass Screening”[MeSH Terms] AND (“Infant”[MeSH Terms] OR “Infant, Newborn”[MeSH Terms] OR “Child”[MeSH Terms] OR “Pediatrics”[Mesh] OR “Neonatology”[Mesh] OR “Pediatric Emergency Medicine”[Mesh] OR “Perinatology”[Mesh])  
 #24 Search ((neonat\*[Title/Abstract] OR infant\*[Title/Abstract] OR newborn\*[Title/Abstract] OR child\*[Title/Abstract] OR baby[Title/Abstract] OR babies[Title/Abstract] OR pediater\*[Title/Abstract] OR perinat\*[Title/Abstract]) AND (screen\*[Title/Abstract] OR detect\*[Title/Abstract] OR diagnos\*[Title/Abstract] OR test\*[Title/Abstract] OR identif\*[Title/Abstract]))  
 #25 Search early[Title/Abstract] AND (diagnos\*[Title/Abstract] OR detect\*[Title/Abstract])  
 #26 Search #21 OR #22 OR #23 OR #24 OR #25 1222628  
 #27 Search #20 AND #26 **17.185**

### *Costes*

- #28 Search “Economics”[MeSH Terms] OR “economics”[Subheading]  
 #29 Search “Costs and Cost Analysis”[Mesh]  
 #30 Search “Cost-Benefit Analysis”[Mesh]  
 #31 Search “Cost Control”[Mesh] OR “Cost Savings”[Mesh]  
 #32 Search economic\*[Title/Abstract] OR cost\*[Title/Abstract]  
 #33 Search #28 OR #29 OR #30 OR #31 OR #32 1110281  
 #34 Search #27 AND #33 **728**  
 #35 Search #35 Publication date from 2014/01/01 **182**

## Embase, vía OvidWeb

Fecha de búsqueda, julio de 2018

### *Hipoacusia*

- 1 hearing disorder/
- 2 hearing impairment/
- 3 bilateral hearing loss/ or conduction deafness/ or congenital deafness/  
or functional hearing loss/ or high frequency hearing loss/ or presbya-  
cusis/ or sudden deafness/ or unilateral hearing loss/
- 4 usher syndrome/ or perception deafness/
- 5 hearing loss/ or central hearing loss/
- 6 noise injury/
- 7 1 or 2 or 3 or 4 or 5 or 6
- 8 (hearing and (loss\* or impair\* or disorder\* or defect\* or distort\*)).  
ab,kw,ti.
- 9 deaf\*.ab,kw,ti.
- 10 hypoacus\*.ab,kw,ti.
- 11 ((usher\* or hallgren\*) and syndrome\*).ab,kw,ti.
- 12 8 or 9 or 10 or 11
- 13 7 or 12 **152.512**

### *Screening*

- 14 newborn screening/
- 15 early diagnosis/
- 16 mass screening/
- 17 infant/
- 18 newborn/
- 19 child/
- 20 pediatrics/ or neonatology/ or pediatric emergency medicine/
- 21 perinatology/ or neonatology/

- 22 17 or 18 or 19 or 20 or 21
- 23 16 and 22
- 24 (neonat\* or infant\* or newborn\* or child\* or baby or babies or pedi-  
 atr\* or perinat\*).ab,kw,ti.
- 25 (screen\* or detect\* or diagnos\* or test\* or identif\*).ab,kw,ti.
- 26 24 and 25
- 27 (early and (diagnos\* or detect\*)).ab,kw,ti.
- 28 14 or 15 or 23 or 26 or 27 1616132
- 29 13 and 28 **23.018**

### *Costes*

- 30 economics/
- 31 “cost utility analysis”/ or “cost benefit analysis”/ or “cost minimiza-  
 tion analysis”/ or “cost”/ or “cost effectiveness analysis”/ or “health  
 care cost”/ or “cost control”/ or
- 32 (economic\* or cost\*).ab,kw,ti.
- 33 30 or 31 or 32 1241126
- 34 29 and 33
- 35 limit 34 to conference abstracts
- 36 34 not 35 **904**
- 37 limit 36 to yr=”2014-Current” **211**

## **Cochrane Library**

**Fecha de búsqueda, julio 2018**

### *Hipoacusia*

- #1 MeSH descriptor: [Hearing Disorders] explode all trees
- #2 MeSH descriptor: [Hearing Loss] explode all trees
- #3 MeSH descriptor: [Deafness] explode all trees

- #4 MeSH descriptor: [Hearing Loss, Sudden] explode all trees
- #5 MeSH descriptor: [Hearing Loss, Bilateral] explode all trees
- #6 MeSH descriptor: [Hearing Loss, Conductive] explode all trees
- #7 MeSH descriptor: [Hearing Loss, Functional] explode all trees
- #8 MeSH descriptor: [Hearing Loss, High-Frequency] explode all trees
- #9 MeSH descriptor: [Hearing Loss, Sensorineural] explode all trees
- #10 MeSH descriptor: [Hearing Loss, Unilateral] explode all trees
- #11 MeSH descriptor: [Hearing Loss, Mixed Conductive-Sensorineural] explode all trees
- #12 MeSH descriptor: [Hearing Loss, Central] explode all trees
- #13 MeSH descriptor: [Hearing Loss, Noise-Induced] explode all trees
- #14 MeSH descriptor: [Usher Syndromes] explode all trees
- #15 hearing:ti,ab,kw and loss\* or impair\* or disorder\* or defect\* or distor\*:ti,ab,kw (Word variations have been searched)
- #16 deaf\*:ti,ab,kw (Word variations have been searched)
- #17 hypoacus\*:ti,ab,kw (Word variations have been searched)
- #18 usher\* or hallgren\*:ti,ab,kw and syndrome\*:ti,ab,kw (Word variations have been searched)
- #19 #1 or #2 or #3 or #4 or #5 or #6 or #7 or #8 or #9 or #10 or #11 or #12 or 13 or #14 or #15 or #16 or #17 or #18 **4.091**

### *Screening*

- #20 MeSH descriptor: [Neonatal Screening] explode all trees
- #21 MeSH descriptor: [Early Diagnosis] explode all trees
- #22 MeSH descriptor: [Mass Screening] explode all trees
- #23 MeSH descriptor: [Infant] explode all trees
- #24 MeSH descriptor: [Infant, Newborn] explode all trees
- #25 MeSH descriptor: [Child] explode all trees
- #26 MeSH descriptor: [Pediatrics] explode all trees
- #27 MeSH descriptor: [Neonatology] explode all trees

- #28 MeSH descriptor: [Pediatric Emergency Medicine] explode all trees
- #29 MeSH descriptor: [Perinatology] explode all trees
- #30 #23 or #24 or #25 or #26 or #27 or #28 or #29
- #31 #22 and #30
- #32 neonat\* or infant\* or newborn\* or child\* or baby or babies or pe-  
diatr\* or perinat\*:ti,ab,kw and screen\* or detect\* or diagnos\* or test\*  
or identif\*:ti,ab,kw (Word variations have been searched)
- #33 early:ti,ab,kw and diagnos\* or detect\*:ti,ab,kw (Word variations have  
been searched)
- #34 #20 or #21 or #31 or #32 or #33 71979
- #35 #19 and #34 **647**

### *Costes*

- #36 MeSH descriptor: [Economics] explode all trees
- #37 Any MeSH descriptor with qualifier(s): [Economics-EC]
- #38 MeSH descriptor: [Costs and Cost Analysis] explode all trees
- #39 MeSH descriptor: [Cost-Benefit Analysis] explode all trees
- #40 MeSH descriptor: [Cost Control] explode all trees
- #41 MeSH descriptor: [Cost Savings] explode all trees
- #42 economic\* or cost\*:ti,ab,kw (Word variations have been searched)
- #43 #36 or #37 or #38 or #39 or #40 or #41 or #42 75235
- #44 #35 and #43 **95**
- #45 #44 Publication Year from 2014 to 2018 **32**

## **CRD Databases**

### **Fecha de búsqueda, julio 2018**

#### *Hipoacusia*

- 1 MeSH DESCRIPTOR Hearing Disorders EXPLODE ALL TREES
- 2 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss EXPLODE ALL TREES

- 3 MeSH DESCRIPTOR Deafness EXPLODE ALL TREES
- 4 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss, Bilateral EXPLODE ALL TREES
- 5 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss, Central EXPLODE ALL TREES
- 6 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss, Conductive EXPLODE ALL TREES
- 7 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss, Functional EXPLODE ALL TREES
- 8 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss, High Frequency EXPLODE ALL TREES
- 9 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss, Mixed Conductive-Sensorineural EXPLODE ALL TREES
- 10 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss, Noise-Induced EXPLODE ALL TREES
- 11 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss, Sensorineural EXPLODE ALL TREES
- 12 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss, Sudden EXPLODE ALL TREES
- 13 MeSH DESCRIPTOR Hearing Loss, Unilateral EXPLODE ALL TREES
- 14 MeSH DESCRIPTOR Usher Syndromes EXPLODE ALL TREES
- 15 (hearing) AND (loss\* or impair\* or disorder\* or defect\* or distort\*)
- 16 (deaf\*) OR (hypoacus\*)
- 17 (usher\* OR hallgren\*) AND (syndrome\*)
- 18 #1 OR #2 OR #3 OR #4 OR #5 OR #6 OR #7 OR #8 OR #9 OR #10  
OR #11 OR #12 OR #13 OR #14 OR #15 OR #16 OR #17 502

### *Screening*

- 19 MeSH DESCRIPTOR Neonatal Screening EXPLODE ALL TREES
- 20 MeSH DESCRIPTOR Early Diagnosis EXPLODE ALL TREES
- 21 MeSH DESCRIPTOR Mass Screening EXPLODE ALL TREES

- 22 MeSH DESCRIPTOR Infant EXPLODE ALL TREES
- 23 MeSH DESCRIPTOR Infant, Newborn EXPLODE ALL TREES
- 24 MeSH DESCRIPTOR Child EXPLODE ALL TREES
- 25 MeSH DESCRIPTOR Pediatrics EXPLODE ALL TREES
- 26 MeSH DESCRIPTOR Neonatology EXPLODE ALL TREES
- 27 MeSH DESCRIPTOR Perinatology EXPLODE ALL TREES
- 28 MeSH DESCRIPTOR Pediatric Emergency Medicine EXPLODE ALL TREES
- 29 #22 OR #23 OR #24 OR #25 OR #26 OR #27 OR #28
- 30 #21 AND #29 375
- 31 (neonat\* or infant\* or newborn\* or child\* or baby or babies or pediatri\* or perinat\*) AND (screen\* or detect\* or diagnos\* or test\* or identif\*)
- 32 (early) AND (diagnos\* or detect\*)
- 33 #19 OR #20 OR #30 OR #31 OR #32 8329
- 34 #18 AND #33 **181**

### *Costes*

- 35 MeSH DESCRIPTOR Economics EXPLODE ALL TREES
- 36 MeSH DESCRIPTOR Cost Control EXPLODE ALL TREES
- 37 MeSH DESCRIPTOR Cost Savings EXPLODE ALL TREES
- 38 MeSH DESCRIPTOR Cost-Benefit Analysis EXPLODE ALL TREES
- 39 MeSH DESCRIPTOR Costs and Cost Analysis EXPLODE ALL TREES
- 40 (economic\* or cost\*)
- 41 #35 OR #36 OR #37 OR #38 OR #39 OR #40 26639
- 42 #34 AND #41 **97**
- 43 \* FROM 2014 TO 2018
- 44 #42 AND #43 **2**

## Web of Science

### Fecha de búsqueda, julio 2018

- # 1 TEMA: (hearing) AND TEMA: (loss\* or impair\* or disorder\* or defect\* or distort\*)
- # 2 TEMA: (deaf\*) OR TEMA: (hypoacus\*)
- # 3 TEMA: (usher\* OR hallgren\*) AND TEMA: (syndrome\*)
- # 4 #3 OR #2 OR #1
- # 5 TEMA: (neonat\* or infant\* or newborn\* or child\* or baby or babies or pediatr\* or perinat\*) AND TEMA: (screen\* or detect\* or diagnos\* or test\* or identif\*)
- # 6 TEMA: (early) AND TEMA: (diagnos\* or detect\*)  
928.919
- # 7 #6 OR #5
- # 8 #7 AND #4
- # 9 TEMA: (economic\* or cost\*)
- # 10 #9 AND #8  
**1.416**
- # 11 #9 AND #8

Refinado por: AÑOS DE PUBLICACIÓN: (2018 OR 2017 OR 2016 OR 2015 OR 2014)

**390**

## Scopus

### Fecha de búsqueda, julio 2018

- 1 ( TITLE-ABS-KEY ( hearing ) AND TITLE-ABS-KEY ( loss\* OR impair\* OR disorder\* OR defect\* OR distort\* ) )
- 2 (TITLE-ABS-KEY (deaf\*) OR TITLE-ABS-KEY (hypoacus\* ) )
- 3 ( TITLE-ABS-KEY ( usher\* OR hallgren\* ) AND TITLE-ABS-KEY ( syndrome\* ) )
- 4 #1 OR #2 OR #3  
171,886 document results
- 5 ( TITLE-ABS-KEY ( neonat\* OR infant\* OR newborn\* OR child\* OR baby OR babies OR pediatr\* OR perinat\* ) AND TITLE-ABS-KEY ( screen\* OR detect\* OR diagnos\* OR test\* OR identif\* ) )

- 6 (TITLE-ABS-KEY (early ) AND TITLE-ABS-KEY ( diagnos\* OR detect\* ) )
- 7 #5 OR #6  
2,196,608 document results
- 8 #4 AND #7  
34,639 document results
- 9 TITLE-ABS-KEY ( economic\* OR cost\* )  
3,921,537 document results
- 10 #8 AND #9  
**1,301** document results
- 11 #10 AND ( LIMIT-TO ( PUBYEAR , 2018 ) OR LIMIT-TO ( PUB-  
YEAR , 2017 ) OR LIMIT-TO ( PUBYEAR , 2016 ) OR LIMIT-TO  
( PUBYEAR , 2015 ) OR LIMIT-TO ( PUBYEAR , 2014 ) )

**326**

## **CEA Registry**

### **Fecha de búsqueda, julio 2018**

“hearing disorders” or “hearing loss” or “deafness” (desde 2014)

**11** (8 no cumplen los criterios de búsqueda ni de inclusión: no términos de búsqueda y paciente adulto)

## Anexo VIII.2. Características programas de cribado auditivo neonatal de las CC.AA.

En la siguiente tabla se muestran las características de los programas de cribado de auditivo neonatal de las CC.AA.

**Tabla 11. Características de los programas de cribado poblacional de hipoacusia neonatal de las CC-AA.**

Programa de cribado neonatal de hipoacusia									
CC-AA	N.º fases	Prueba fase 1	Prueba fase 2	Prueba fase 3	Cuándo se realiza el cribado	Quién realiza el cribado	Dónde se realiza el cribado	Umbral de cribado	
Andalucía	2	OEA	OEA	—	<i>Primera fase:</i> antes del alta hospitalaria y después de las 24h del nacimiento. <i>Segunda fase:</i> antes de los 2 meses de vida.	<i>Primera fase:</i> personal de enfermería. <i>Segunda fase:</i> personal facultativo o de enfermería del servicio de ORL.	<i>Primera fase:</i> hospital. <i>Segunda fase:</i> servicio de ORL.	>40 dB HI.	
Aragón	3	OEA	OEA	PEATC-A	<i>Primera fase:</i> antes del alta hospitalaria. <i>Segunda fase:</i> entre una semana y un mes después.	Servicio de pediatría.	Hospital	>40 dB HI.	
Asturias	3	OEA	OEA	OEA	<i>Primera fase:</i> el día del alta hospitalaria. <i>Segunda fase:</i> a los 15 días del alta. <i>Tercera fase:</i> a los 3 meses de vida.	Personal de enfermería supervisado por médico ORL/pediatra.	Hospital de área.	—	
Islas Baleares	3	OEA	OEA	PEATC-A	<i>Primera fase:</i> antes del alta hospitalaria. <i>Segunda fase:</i> a los 8 días del alta. <i>Tercera fase:</i> antes del primer mes	<i>Primera fase:</i> personal de enfermería de neonatología o ORL. <i>Segunda fase:</i> personal de enfermería de neonatología o ORL. <i>Tercera fase:</i> personal de enfermería de ORL.	<i>Primera fase:</i> Hospital (unidades de maternidad). <i>Segunda fase:</i> Hospital (unidades de maternidad o Servicio ORL). <i>Tercera fase:</i> Hospital (Servicio ORL).	>35 dB HI.	

.../...

.../...

Programa de cribado neonatal de hipoacusia								
CC.AA	N.º fases	Prueba fase 1	Prueba fase 2	Prueba fase 3	Cuándo se realiza el cribado	Quién realiza el cribado	Dónde se realiza el cribado	Umbral de cribado
Canarias	2	OEA	OEA	—	Primera fase: a partir de las 48h del nacimiento antes del alta hospitalaria. Segunda fase: entre los 7 días y el mes de vida.	—	Primera fase: en el hospital. Segunda fase: citación ambulatoria.	—
Cantabria	3	OEA	OEA	PEATC-A	Primera fase: antes del alta hospitalaria. Segunda fase: un mes después.	Primera fase: personal de enfermería del hospital.	Primera fase: en el hospital. Segunda fase: en el mismo hospital. Tercera fase: A los tres meses, en la Unidad de Diagnóstico de Hipoacusia	
Castilla la Mancha	2	OEA/ PEATC-A	OEA	PEATC-A	Primera fase: antes del alta hospitalaria. Segunda fase: un mes después.	Primera fase: personal de enfermería bajo supervisión de pediatra o médico de ORL Segunda fase: personal enfermería consulta.	Primera fase: en el hospital. Segunda fase: consulta ORL.	>35 dB
Castilla León	2	PEATC-A	PEATC-A	—	Primera fase: antes del alta hospitalaria. Segunda fase: antes del mes de edad.	Personal de enfermería, ORL, pediatras	Primera fase: en el hospital. Segunda fase: servicio de ORL	>35 dB

.../...

.../...

Programa de cribado neonatal de hipoacusia									
CC.AA	N.º fases	Prueba fase 1	Prueba fase 2	Prueba fase 3	Cuándo se realiza el cribado	Quién realiza el cribado	Dónde se realiza el cribado	Umbral de cribado	
Cataluña	2	PEATC-A	PEATC-A	—	Primera fase: antes del alta hospitalaria. Segunda fase: hasta el mes de vida	Primera y segunda fase: personal de ORL/equipo pediátrico del hospital (personal de enfermería).	Primera y segunda fase: en el centro hospitalario o servicio maternal.	≥40 dB HI	
Comunidad Valenciana	2	OEA	PEATC-A	—	Primera fase: a partir de las primeras 48h de vida y antes del alta hospitalaria. Segunda fase: antes de 2-3 semanas de vida.	Primera fase: personal de enfermería.	Primera fase: unidades de maternidad y centros neonatales. Segunda fase: atención especializada (servicio de pediatría, ORL).	—	
Extremadura	2	PEATC-A	PEATC-A	—	Primera fase: antes del alta hospitalaria. Segunda fase: a los 2 meses de vida.	—	Primera fase: maternidad. Segunda fase: servicio de ORL.	—	
Galicia	1	PEATC-A	—	—	Antes del alta hospitalaria	Personal de enfermería.	Unidades de hospitalización.	>35 dB HI	
La Rioja	1	OEA	—	—	Antes del alta hospitalaria	Pediatra, enfermera	En la maternidad	—	
Madrid	1	PEATC-A	—	—	Antes del alta hospitalaria.	Neonatólogos, enfermeras o auxiliares de enfermería.	Servicio de neonatología	>40 dB HI	

.../...

.../...

Programa de cribado neonatal de hipoacusia								
CC.AA	N.º fases	Prueba fase 1	Prueba fase 2	Prueba fase 3	Cuándo se realiza el cribado	Quién realiza el cribado	Dónde se realiza el cribado	Umbral de cribado
Navarra	3	OEA	OEA	OEA	<i>Primera fase:</i> antes del alta hospitalaria. <i>Segunda fase:</i> al mes de vida. <i>Tercera fase:</i> a los tres meses de vida.	Personal de enfermería	En la maternidad del hospital.	—
País Vasco	2	PEATC-A	Determinación por PCR de CMV en saliva.	—	<i>Primera fase:</i> a partir de las primeras 48h de vida y antes del alta hospitalaria. <i>Segunda fase:</i> 2-3 semanas de vida.	Personal de enfermería.	Áreas de maternidad del hospital.	>35 dB HI
Región Murcia	3	OEA	OEA	OEA	<i>Primera fase:</i> antes de las 48 horas de vida. <i>Segunda fase:</i> a los diez días de vida. <i>Tercera fase:</i> al mes de vida.	Personal de la unidad hospitalaria de detección precoz de hipoacusia: especialista ORL, pediatra, personal enfermería.	Unidad hospitalaria de detección precoz de hipoacusia.	>40 dB HI

Cribado auditivo recién nacidos con factores de riesgo							
CC.AA	N.º fases	Prueba fase 1	Prueba fase 2	Cuando se realiza el cribado	Quién realiza el cribado	Dónde se realiza el cribado	Observaciones
Andalucía	1	OEA/PEATC	-	< 3 meses	-	Servicio de ORL	-
Aragón	-	-	-	-	-	-	-
Asturias	1	OEA	-	-	-	Hospital de área.	OEA+PEATC (si riesgo de neuropatía auditiva)
Islas Baleares	2	PEATC-A (UCIN o hiperbilirrubinemia)	PEATC-A	Primera fase: antes del alta. Segunda fase: antes del primer mes.	-	-	Cribado general (OEA en dos fases) para recién nacidos con el resto de factores de riesgo. Para los que pasan las pruebas control y seguimiento.
Canarias	-	-	-	-	-	-	-
Cantabria	1	PEATC con o sin OEA.	-	-	-	Unidad de diagnóstico precoz de la hipoacusia infantil.	-
Castilla la Mancha	1	PEATC	-	-	-	-	Para los que pasan la prueba, seguimiento individualizado.
Castilla León	-	-	-	-	-	-	Seguimiento protocolizado por pediatra.
Cataluña	-	-	-	-	-	-	Revisión auditiva de acuerdo con lo que indica el protocolo de actividades preventivas y de promoción de la salud en la edad pediátrica

.../...

.../...

Cribado auditivo recién nacidos con factores de riesgo							
CC.AA	N.º fases	Prueba fase 1	Prueba fase 2	Cuando se realiza el cribado	Quién realiza el cribado	Dónde se realiza el cribado	Observaciones
Comunidad Valenciana	1	PEATC	—	Antes de alta hospitalaria	—	Maternidad, UCIN, neonatología.	Para los que pasan la prueba, seguimiento adecuado por pediatría de atención primaria o consultas externas hospitalarias si procede
Extremadura	—	—	—	—	—	—	Control y seguimiento por el pediatra de su centro de salud.
Galicia	—	—	—	—	—	—	—
La Rioja	1	PEATC	—	—	—	—	—
Madrid	—	—	—	—	—	—	Control periódico por el servicio de ORL.
Navarra	1	PEATC	—	Antes del alta hospitalaria.	—	—	Para los que pasan la prueba seguimiento por ORL infantil.
País Vasco	—	—	—	—	—	—	Seguimiento específico para valoración audiológica en Unidades referenciadas de ORL o Pediatría de AP.
Región de Murcia	2	OEA+PEATC	OEA+PEATC	Primera fase: antes de las 48 horas de vida. Segunda fase: a la semana de vida.	—	—	—

Diagnóstico						
CC.AA.	Prueba diagnóstica	Pruebas complementarias	Cuando se realiza el diagnóstico	Quién realiza el diagnóstico	Dónde se realiza el diagnóstico	Umbral de diagnóstico
Andalucía	PEATC	—	Antes de los 6 meses.	Personal facultativo del servicio de ORL	Servicio de ORL	—
Aragón	PEATC	—	Tres meses después de la 2.ª fase	—	—	No obtención onda V reproducible en ambos oídos a 40 dB.
Asturias	PEATC y OEA si procede.	Audiometría lúdica y de observación de la conducta.	Antes de los 6 meses.	—	Unidad de hipoacusia infantil.	—
Islas Baleares	PEATC	PEAee, audiometría, estudio etiológico	—	—	—	—
Canarias	PEATC	Estudio ORL	Entre el primero y segundo mes de vida.	Servicio de ORL	Consulta de ORL	>40 dB.
Cantabria	PEATC	Diagnóstico etiológico	Al tercer mes de vida	—	Hospital, Unidad de Diagnóstico Precoz de la Hipoacusia	—
Cátilla-La Mancha	PEATC	Diagnóstico etiológico.	Al tercer mes de edad.	—	Hospital	—
Castilla-León	PEATC y OEA (opcional)	Diagnóstico etiológico.	Al tercer mes de edad y al sexto mes de edad (para onda V > 35dB).	—	Consulta de ORL hospitalaria.	Onda V > 40-50 dB HI.
Cataluña	PEATC 1+PEATC 2, PEAee, OEAPD.	Timpanometría y reflejos estapediales, Audiometría observacional.	Al tercer mes de vida.	Personal de la unidad de referencia para la hipoacusia infantil (ORL o técnico en audiolología infantil).	Unidad de referencia para la hipoacusia infantil.	—

.../...

.../...

Diagnóstico						
CC.AA.	Prueba diagnóstica	Pruebas complementarias	Cuando se realiza el diagnóstico	Quién realiza el diagnóstico	Dónde se realiza el diagnóstico	Umbral de diagnóstico
Comunidad Valenciana	PEATC	OEA, PEaee, audiometría conductual. Diagnóstico etiológico.	Al tercer mes de vida.	—	Unidades de diagnóstico o consultas de ORL.	Onda V > 20-40 dB HI
Extremadura	—	—	—	—	—	—
Galicia	PEATC y PEaee	Otoscopia. Impedanciometría.	Al tercer mes de vida.	ORL de la unidad de diagnóstico.	Unidades funcionales integradas para el diagnóstico	>40 dB HI.
La Rioja	PEATC	—	Al tercer mes de vida.	Neuropediatra, ORL.	—	—
Madrid	PEATC y PEaee	Timpanometría y reflejo estapedial, OEA, audiometría conductual.	Antes de los tres meses de vida.	Médico ORL.	Servicios de ORL de los hospitales.	>40 dB.
Navarra	PEATC y PEaee	Análisis, pruebas de imagen.	A los tres meses de vida.	Médicos especialistas en Salud Pública y ORL infantil y enfermeras con dedicación especial al programa	Consulta de ORL infantil del hospital.	>30 dB
País Vasco	PEATC y PEaee.	Audiometría conductual, timpanometría, OEA y diagnóstico etiológico.	Antes de los tres meses de vida.	—	Centro de referencia de casos de hipoacusia.	—
Región de Murcia	—	—	—	Personal de la unidad regional acreditada de referencia: especialista en ORL, neonatólogo, profesional de enfermería.	Unidad regional acreditada de referencia.	—

## Anexo VIII.3. Estudios excluidos

En la siguiente tabla se muestran los estudios excluidos y la razón de exclusión.

**Tabla 12. Estudios excluidos y razones para su exclusión**

Referencias	Razón para exclusión
Chan KT, Wong EC, Law CW, Chong HM, McPherson B. Improving newborn hearing screening: Are automated auditory brainstem response ear inserts an effective option? <i>Int J Pediatr Otorhinolaryngol.</i> 2015 Nov; 79(11):1920-5.	No es una evaluación económica completa.
Chen X, Yuan M, Lu J, Zhang Q, Sun M, Chang F. Assessment of universal newborn hearing screening and intervention in Shanghai, China. <i>Int J Technol Assess Health Care.</i> 2017 Jan; 33(2):206-14.	No es una evaluación económica completa.
Gupta S, Sah S, Som T, Saksena M, Yadav CP, Sankar MJ, et al. Challenges of Implementing Universal Newborn Hearing Screening at a Tertiary Care Centre from India. <i>Indian J Pediatr.</i> 2015 Aug; 82(8):688-93.	No es una evaluación económica completa.
Kraft CT, Malhotra S, Boerst A, Thorne MC. Risk indicators for congenital and delayed-onset hearing loss. <i>Otol Neurotol.</i> 2014 Dec; 35(10):1839-43.	No es una evaluación económica completa.
Rivera AS, Lam HY, Chiong CM, Reyes-Quintos MRT, Ricalde RR. The cost-effectiveness and budget impact of a community-based universal newborn hearing screening program in the Philippines. <i>Acta Medica Philippina.</i> 2017; 51(1):28.	No responde al objetivo de la revisión.
Wong LY, Espinoza F, Alvarez KM, Molter D, Saunders JE. Otoacoustic Emissions in Rural Nicaragua: Cost Analysis and Implications for Newborn Hearing Screening. <i>Otolaryngol Head Neck Surg.</i> 2017 May;156(5):877-85.	No es una evaluación económica completa.

