

UNIVERSIDAD DE CHILE

FACULTAD DE MEDICINA

ESCUELA DE SALUD PÚBLICA



“PROGRAMA DE PESQUISA UNIVERSAL E INTERVENCIÓN PRECOZ EN HIPOACUSIA CONGENITA: DEUDA PENDIENTE EN LA SALUD PÚBLICA CHILENA”.

NICOLÁS ALBERTZ ARÉVALO

Becario CONICYT

TESIS PARA OPTAR AL GRADO DE MAGISTER EN SALUD PÚBLICA

PROFESOR GUÍA DE TESIS: OSCAR ARTEAGA HERRERA

Santiago, marzo de 2014

INDICE

	Página
Portada	1
Índice	2
I. Resumen	3
II. Introducción	4
III. Marco teórico	
1. Generalidades y aspectos conceptuales de la hipoacusia del recién nacido	7
2. Presentación clínica de la hipoacusia del recién nacido	9
3. Epidemiología	11
4. Respuesta del sistema frente al problema	12
5. Condiciones necesarias para un programa de screening auditivo	15
6. Aspectos económicos y análisis de costos	17
7. Resumen del marco teórico y justificación de la presente tesis.	21
IV. Objetivos	24
1. Objetivo general	24
2. Objetivos específicos	24
V. Metodología	25
VI. Aspectos éticos	27
VII. Resultados	29
VIII. Discusión	48
IX. Conclusiones	53
X. Referencias bibliográficas	54

I. RESUMEN

Introducción: La hipoacusia sensorineural congénita bilateral (HSNCB) es un problema de salud pública correspondiente a la patología congénita más frecuente con una prevalencia que va de 1 a 5 casos en 1000 recién nacidos vivos (RNV). Desde el año 2005 en Chile se ha implementado la pesquisa selectiva de HSNCB en el contexto de las garantías explícitas en salud (GES), sin embargo, este programa solo contempla a los RNV con algunos factores de riesgo, pese a las recomendaciones actuales que apuntan hacia la universalidad del programa.

Objetivos: Desarrollar una revisión actualizada de la evidencia, que sustente el apoyo y necesidad de implementar un programa de pesquisa universal e intervención precoz de hipoacusia sensorineural bilateral congénita en Chile, ampliando el actual programa de pesquisa selectivo, y de esta forma poner en discusión el tema del problema de salud pública que significa la HSNCB.

Metodología: Revisar la literatura disponible sobre aspectos epidemiológicos y clínicos relevantes sobre programas de tamizaje universal en hipoacusia. Sistematizar la evidencia disponible respecto a la implementación de programas existentes de tamizaje universal en Chile y el mundo. Revisar y sintetizar la información de diversas bases de datos y desarrollar a partir de dicha información un artículo para ser publicado en una revista científica relevante.

Aspectos éticos: En este estudio no se considera la participación de pacientes. La información requerida se obtuvo de bases de datos oficiales, literatura gris, fuentes de datos ministeriales, hospitalarios, de servicios de salud, entre otros. No se consideran conflictos de interés ni éticos desde el punto de vista metodológico ni operacional.

Palabras clave: hipoacusia del recién nacido, screening auditivo universal, intervención precoz.

II. INTRODUCCIÓN

Relevancia del problema.

La hipoacusia sensorineural bilateral del recién nacido (HSNBC), corresponde a la discapacidad congénita más frecuente, siendo en la actualidad un relevante problema de salud pública pendiente por resolver. Se estima que se presenta en frecuencias que oscilan entre 1 a 5 casos en 1000 recién nacidos entre todos sus grados de severidad (1-9). La consecuencia directa habitual en aquellos niños que no son pesquisados e implementados con un manejo adecuado, consiste en alteraciones en la adquisición del lenguaje y pensamiento, disminuyendo de esta forma su inserción social y escolar, y a su vez comprometiendo su potencial profesional y productivo en su vida adulta (10-16).

Se ha demostrado que la detección precoz antes de los 3 meses de vida, acompañada de una intervención efectiva asociada antes de los 6 meses permite el desarrollo de estos niños tal como si fuesen normo oyentes (audición normal), con la oportunidad de desarrollar todos sus potenciales como cualquier otro niño sano (10, 17), resultados que se incrementarían mientras más temprano se realice el diagnóstico y tratamiento. De esta forma el objetivo último de los programas de pesquisa de hipoacusia en los recién nacidos consiste en optimizar la comunicación, los resultados sociales, académicos y profesionales para cada niño con pérdida auditiva permanente. Para poder lograr este objetivo final, resulta de primordial relevancia la pesquisa precoz a todos los recién nacidos, requisito indispensable para la implementación de ayudas auditivas y adquisición normal del lenguaje (10, 13).

A nivel mundial se han desarrollado múltiples estrategias y protocolos de pesquisa de hipoacusia, existiendo una vasta experiencia en países europeos y EE.UU de Norteamérica que ya el año 2007 presentaba una cobertura de tamizaje del 95% de todos sus recién nacidos (10), gracias a sus políticas públicas de pesquisa universal. En América Latina existe un menor desarrollo y experiencias desiguales de acuerdo a cada país, sin embargo, países como Argentina y Brasil presentan programas de pesquisa universal de hipoacusia funcionando (4).

En el caso de Chile desde el año 2005 contamos con el programa de pesquisa de hipoacusia selectivo en el recién nacido prematuro y/o de bajo peso al nacer en el contexto de las garantías explícitas en salud (GES)(17), como apoyo y seguimiento al niño prematuro. Pese a este significativo avance local en la búsqueda de solución del problema, cada vez son más los estudios y evidencias de la esfera clínica, epidemiológica y económica (1, 3, 10, 17-19) que apuntan a que la pesquisa de hipoacusia debe tener un carácter universal considerando a la totalidad de recién nacidos, y no solamente enfocados en un grupo seleccionado de mayor riesgo como ocurre en nuestro país.

En esta búsqueda de la mejor estrategia de pesquisa de hipoacusia en el recién nacido, se ha logrado identificar que los programas basados en la pesquisa dirigida en la población de mayor riesgo de hipoacusia sólo son capaces de detectar al 50% de los niños con algún grado de sordera (1, 20, 21). En este contexto se hace evidente que el tema de la cobertura del actual programa público chileno de pesquisa de hipoacusia, que contempla sólo al recién nacido menor de 32 semanas de edad gestacional o peso de nacimiento menor a 1500 gramos, es un conflicto con una importancia significativa en salud pública por la gran carga social y económica que significa rehabilitar a un niño sordo no pesquisado de forma precoz.

Por otro lado sabemos que los recursos y presupuestos en salud son limitados y las necesidades abundantes por lo que las barreras económicas cobran cada vez mayor relevancia en todos los problemas y decisiones de salud pública (22). De esta forma se busca una contención de costos asociados a procedimientos diagnósticos e intervenciones, que a su vez demuestren tener buenos índices de efectividad en rangos costo efectivos razonables (23). Con este enfoque se han comparado diferentes protocolos de pesquisa de hipoacusia tendientes a estimar cuál es la estrategia más conveniente en cuanto a su costo efectividad (3, 22). En varios estudios se ha comparado la opción de realizar pesquisa en un grupo de recién nacidos seleccionados con factores de riesgo de presentar hipoacusia, versus una pesquisa universal en todos los recién nacidos (3, 18). De los resultados de dichos estudios se desprende que si bien los

programas que contemplan a la totalidad de recién nacidos en un primer momento producen un mayor gasto en la implementación del programa, se ha visto que al poco tiempo de funcionamiento del mismo, se recupera la inversión y se obtienen ganancias netas significativas (18, 24).

En nuestro país se cuenta con experiencias de tamizaje universal, fundamentalmente en el sistema de salud privado, el cual ha mostrado excelentes y auspiciosos resultados (7). En el sistema público se cuenta con experiencias aisladas de tamizaje universal e intervención precoz, siendo pionero el Hospital Dr. Sótero del Río gracias a la creación del Centro de Rehabilitación Auditiva de dicho complejo hospitalario, el cual se gestó gracias al apoyo de los impulsores del actual programa de pesquisa de hipoacusia (17).

Recientemente y gracias al apoyo y gestión de diversos actores, este tema ha cobrado relevancia a nivel ministerial, habiendo logrado desarrollar un estudio de costo efectividad que confirma la necesidad de ampliar el programa de hipoacusia del recién nacido hacia la universalidad (25). Dicho estudio ratifica la necesidad de la existencia de un programa de pesquisa universal de hipoacusia en función de sus potenciales ahorros económicos y sociales.

Teniendo estos antecedentes a la luz, y basados en que faltan eslabones que unan la evidencia disponible y la experiencia asistencial con la gestión y decisión de impulsar un programa nacional de pesquisa e intervención precoz de hipoacusia, se desarrollará un estudio que sirva de soporte a la toma de decisión de implementar en el corto a mediano plazo un programa de estas características.

III. MARCO TEÓRICO

A continuación se desarrollará un marco teórico actualizado sobre el problema en discusión, dividido en 6 secciones que darán un orden secuencial lógico y estructurado que permita visualizar el problema de la pesquisa de hipoacusia del recién nacido en su contexto país. Se comenzará con aspectos generales y conceptuales, hasta llegar a elementos más específicos y de la esfera económica como determinantes para la toma de decisiones en lo referente a implementar una política pública que contemple un programa de pesquisa universal. En una séptima sección se desarrollarán las ideas-fuerza fundamentales que justifican la realización de la presente tesis y que a su vez engloben a modo de resumen el marco teórico.

1. Generalidades y aspectos conceptuales de la hipoacusia del recién nacido.

La hipoacusia sensorineural bilateral congénita (HSNBC) o llamada comúnmente sordera de nacimiento, corresponde a la discapacidad congénita más frecuente en el recién nacido, siendo una condición de carácter permanente e irreversible (1, 13, 26). Esta consiste en la incapacidad total o parcial de percibir sonidos a través de los oídos, secundario a una alteración y/o disfuncionalidad a nivel de los receptores auditivos en el oído interno (órgano de Corti), o bien a la alteración de la vía auditiva nerviosa en cualquiera de sus niveles hasta llegar a la corteza cerebral auditiva (27, 28). Tanto la audición como las pérdidas auditivas se miden y objetivan en decibeles (dB), considerándose que existe hipoacusia leve cuando el umbral auditivo es mayor a los 20 dB hasta los 40 dB, moderadas de 41 a 70dB, severas de 71 a 95 dB y profundas sobre los 95 dB.

El órgano de la audición es uno de los cinco sentidos fundamentales que nos permiten relacionarnos con el medio. En el caso particular de la especie humana, la audición cumple un rol de vital relevancia en la correcta adquisición y desarrollo del lenguaje verbal, el principal método de comunicación y a su vez pilar fundamental en el desarrollo adecuado del pensamiento (1). El lenguaje a su vez

corresponde a una de las capacidades cognitivas más complejas del ser humano, el cual comienza su adquisición en el período intrauterino, teniendo su etapa crítica los primeros meses de vida hasta los 2 a 3 años (1, 17).

De manera paralela y como requisito para la adquisición del lenguaje, el desarrollo normal de la audición humana también comienza en la etapa intrauterina (29). El oído interno en particular, el cual contiene la porción sensorial de la audición, se desarrolla a partir de la lámina germinal llamada ectodermo, en la cual ya en la cuarta semana de desarrollo embrionario se puede detectar un inicio de desarrollo auditivo, y a partir de las 25 semanas ya se encuentra en estado funcional (29). Este desarrollo auditivo continúa luego del nacimiento, siendo hasta los 2 a 3 primeros años de vida el periodo fundamental en el cual se desarrolla el procesamiento central auditivo. Por este motivo si la corteza auditiva no se estimula desde esta etapa inicial, esta no se desarrolla y es reemplazada por otra función como lo es la función visual. Además de este período crítico, la neuroplasticidad auditiva o modulación sináptica permanece aproximadamente hasta los 6 años de vida, etapa después de la cual no existe posibilidad de mayor desarrollo neuronal auditivo (1, 30, 31).

La consecuencia más evidente y a su vez discapacitante de la hipoacusia, independiente de su grado de severidad, es la dificultad en la adquisición normal del lenguaje oral, sin embargo, esta alteración va mucho más allá del lenguaje y la comunicación. Como consecuencia se altera el normal desarrollo del niño, generando alteraciones en el desarrollo del pensamiento y cognición, y a su vez se compromete el desarrollo afectivo, social, salud mental y la productividad laboral futura. La hipoacusia puede llegar incluso a estados de alteración del desarrollo mental en los casos severos no tratados, haciéndose evidente que la hipoacusia no pesquisada y tratada adecuadamente compromete la calidad de vida y su capacidad productiva a lo largo de toda la vida (1, 17, 26, 28). De esta forma si no se realiza una detección precoz de la pérdida auditiva, se produce un retraso generalizado en la adquisición normal del lenguaje oral, pensamiento y otras funciones cognitivas. Dadas estas características del órgano de la audición y su determinante influencia en el desarrollo normal del lenguaje oral y otras áreas

del desarrollo, es que los programas tendientes a pesquisar sus alteraciones, deben realizarse lo más precozmente posible en la vida del niño (10).

Se ha demostrado que la detección temprana, acompañada de una intervención e implementación adecuada de dispositivos de ayuda auditiva de acuerdo a la pérdida de audición, permite un desarrollo del lenguaje y el pensamiento similar a como se desarrollan los niños normo oyentes, mejorando su calidad de vida y productividad general (1, 32). La detección de hipoacusia antes de los 6 meses de vida, seguida por intervención antes de 12 meses, muestra mejoría en el desarrollo del lenguaje y habilidades cognitivas en pacientes con pérdida significativas de la audición (17). Si se estimula a un niño sordo desde los 6 meses y se implementa una intervención efectiva antes del año se desarrollará como un normo oyente (1, 10, 17). Es más, el Comité Conjunto sobre Audición Infantil (JCIH) que reúne a la Academia Americana de Audiología, Academia Americana de Pediatría, Asociación Americana del Habla, Lenguaje y Audición, entre otros, recomienda que la audición de todos y cada uno de los recién nacidos, tengan o no factores de riesgo asociados, debe ser vigilada y tamizada no más allá del mes de vida con protocolos de screening. Para aquellos niños que no superen esta prueba, deben contar con una evaluación audiológica diagnóstica no más allá de los 3 meses de edad, y aquellos en que se haya confirmado el diagnóstico de HSNBC, la JCIH recomienda que se les entregue una intervención auditiva efectiva acompañada de profesionales con experiencia en educación de niños con discapacidad auditiva como máximo a los 6 meses de vida (10, 33-35).

Luego de presentar los aspectos conceptuales generales de la hipoacusia del recién nacido y de reforzar la importancia trascendental de su pesquisa precoz y de forma universal, pasaremos a revisar su presentación clínica, la cual el personal de salud y la comunidad que se relaciona con los recién nacidos deben conocer con el fin de orientar su sospecha y posterior diagnóstico.

2. *Presentación clínica de la hipoacusia del recién nacido.*

En lo que se refiere a su presentación clínica, la gran mayoría de las veces la hipoacusia pasa desapercibida al momento de nacer o bien en los primeros

controles sanos de los niños, ya que carece de síntomas o signos específicos que generen algún grado de sospecha por parte del clínico o de sus padres. Esta sospecha recién aparece luego de 2, 3 o en ocasiones más años, cuando los padres notan que sus hijos no han superado hitos del desarrollo del lenguaje o bien simplemente no han aprendido a hablar. Este hecho ha sido corroborado al evidenciarse que antes de la implementación de los programas de pesquisa precoz de hipoacusia, la edad promedio de diagnóstico era entre los 2 y 3 años, para reducirse a los 5 a 7 meses de vida con la implementación de programas de pesquisa (1, 17, 35).

Este hecho reafirma que la HSNBC es una discapacidad invisible a los ojos de sus examinadores y que en el caso de que no sea buscada y evaluada de manera dirigida y sistemática no es posible su detección oportuna. De manera típica se presenta en un recién nacido de aspecto normal y saludable sin que existan elementos que llamen la atención o bien que orienten a su presencia. Más aun la hipoacusia es una discapacidad que en general tampoco es sospechada por el personal de salud que atiende a los recién nacidos y niños en sus primeros años de vida, dado que existe escasa conciencia y conocimiento real de su magnitud y nefastas consecuencias en el caso de su no diagnóstico e intervención precoz.

Por otro lado la JCiH establece una serie de factores de riesgo de presentar hipoacusia que permiten sospecharla y evaluarla dirigidamente (10). Entre estos factores de riesgo se encuentran la preocupación de los padres respecto a la audición, habla o desarrollo normal de su hijo, antecedentes familiares de hipoacusia, permanencia en una unidad de cuidados intensivos neonatales por más de 2 días o con necesidad ventilación mecánica, exposición a fármacos ototóxicos o hiperbilirrubinemia que haya requerido transfusión, infecciones congénitas como toxoplasmosis, meningitis bacteriana, sífilis, rubeola, citomegalovirus y herpes, alteraciones craneofaciales, síndromes asociados a hipoacusia como la neurofibromatosis, osteopetrosis y otros síndromes como los de Usher, Waardenburg, Alport, Pendred y Lange-Nielson (10, 26). Estas causas

sindromáticas de hipoacusia representan entre el 15 y 30% de las hipoacusias (36, 37).

En estos pacientes con factores de riesgo asociados, la frecuencia de hipoacusia aumenta en 10 a 20 veces (38, 39). Sin embargo, al considerar todos los recién nacidos con hipoacusia, se debe tener presente que el 50% de ellos no presentan ninguno de estos factores de riesgo (40). Por otro lado se ha demostrado que los programas de pesquisa de hipoacusia enfocados solo en los recién nacidos con factores de riesgo son capaces de detectar el 50% de la totalidad de los casos, dejando al restante 50% sin diagnóstico (1, 20, 21).

Luego de revisar las generalidades y la presentación clínica de la hipoacusia del recién nacido en las secciones previas, pasaremos a analizar la magnitud y epidemiología del problema tomando como referencias la vasta experiencia internacional en el tema, y las aisladas experiencias que existen a nivel nacional.

3. *Epidemiología*

La HSNBC tiene una alta prevalencia, siendo por mucho la patología congénita más frecuente. Desde una perspectiva internacional múltiples estudios han reportado cifras entre 1 y 2 en 1000 recién nacidos vivos, en tanto otros refieren cifras mayores de hasta entre 1 y 5 por cada 1000 recién nacidos vivos con distintos grados de severidad (1, 2, 4, 5). De esta forma se estima que la hipoacusia congénita de grado severo y profundo afecta a 1 en 1000 recién nacidos, moderadas entre 1 y 3 en 1000, y todas las formas de hipoacusia a 5 en 1000 recién nacidos vivos (38, 41).

Desde la perspectiva nacional, en Chile no se tienen cifras certeras de la prevalencia de la hipoacusia del recién nacido, sin embargo, de la encuesta CASEN 2009 se desprende que del total de personas que reportaba algún grado de hipoacusia, el 16,6% era una condición de nacimiento, lo cual alcanza a casi 25.000 personas (42). En una experiencia realizada en una clínica privada nacional, en la cual se realiza screening universal, se revisó la experiencia de 10.000 recién nacidos tamizados, logrando determinar una prevalencia de 2,8

recién nacidos hipoacúsicos en 1000 nacidos vivos, cifra similar a la mayoría de las experiencias internacionales (7).

Si extrapolamos estas cifras, nos podemos dar cuenta que con una tasa de 250.000 nacimientos anuales que se producen actualmente en Chile y una prevalencia estimada de 2 de cada 1000 recién nacidos al año con algún grado de discapacidad auditiva, actualmente nacen cerca de 500 niños sordos, de los cuales 250 no están siendo pesquisados por el actual programa selectivo de detección de hipoacusia y por ende no se encuentran con tratamiento y habilitación auditiva.

A modo de comparación y ejemplo, en Chile existe la experiencia con otras patologías que sí son pesquisadas de manera específica y universal, sin embargo, presentan prevalencias significativamente menores a la hipoacusia congénita. Entre ellas destaca el programa de búsqueda masiva de Fenilcetonuria e Hipotiroidismo congénito que el Ministerio de Salud de Chile desarrolla desde 1992. Luego de 16 años del programa de búsqueda masiva de estas enfermedades, se ha determinado que Chile tiene una incidencia de 1 en 21.000 recién nacidos vivos con Fenilcetonuria (43) y 1 en 3.500 recién nacidos vivos con Hipotiroidismo congénito (43, 44), cifras muy por debajo de las estimadas para la hipoacusia congénita.

De esta forma, y luego de conocer las generalidades, su presentación clínica y la gran magnitud del problema de falta de pesquisa de hipoacusia en el recién nacido, revisaremos las experiencias sobre cómo han reaccionado los distintos sistemas de salud en Chile y el mundo frente al problema.

4. *Respuesta del sistema frente al problema.*

En Estados Unidos de Norteamérica, existe de manera establecida hace años las políticas públicas y leyes para la implementación de diversos programas de pesquisa universal, seguimiento y tratamiento de las hipoacusias en los recién nacidos, iniciativas que también se realizan en Europa. En América Latina en cambio, las experiencias son muy dispares dependiendo del país. Mientras en Argentina desde 1997 partió con un programa piloto, ya desde el año 2001 existen

decretos que por ley se debe buscar, tratar y rehabilitar las hipoacusias desde el minuto de nacer a todos los recién nacidos. Por otra Brasil que si bien no cuenta con una ley específica al respecto, cuenta con uno de los programas de pesquisa de hipoacusia universal más antiguos de Latinoamérica, abarcando 237 centros de screening a lo largo de 22 de sus 27 estados (4). En Colombia desde el año 2005 se aplica una ley de pesquisa universal de hipoacusia en recién nacidos, que si bien aún no está del todo implementada, existen las leyes que al menos declaran la voluntad de realizarse. En otros países de América Latina en cambio, aun se considera a la hipoacusia una condición con baja prioridad (4).

Contextualizando el problema a nivel país, en el sistema público en el marco de las garantías explícitas en salud (GES) como apoyo y seguimiento a los recién nacidos prematuros, en Chile el año 2005 se elaboraron las guías técnicas del programa selectivo de pesquisa temprana de hipoacusia en el recién nacido prematuro que entró en marcha al año siguiente. En este programa se incluyen a los recién nacidos que hayan tenido menos de 32 semanas de edad gestacional, o bien hayan pesado menos de 1500 gramos al nacer (4, 17). Pese a estos importantes esfuerzos y avances, como se ha mencionado previamente, se tiene el antecedente y es sabido por numerosas experiencias internacionales que los programas de pesquisa de hipoacusia enfocados en una población de riesgo es capaz de detectar sólo al 50% de los niños hipoacúsicos (1, 40, 45), razón de peso que justifica la implementación de programas de pesquisa que sean universales abarcando a la totalidad de los recién nacidos.

En Chile existen algunas experiencias de tamizaje universal, sin embargo, por diversas razones estos no se han logrado masificar persistiendo aun el problema de la búsqueda de hipoacusia casi de manera exclusiva en el recién nacido prematuro. En el sistema de salud público chileno existe la experiencia en pesquisa de hipoacusia de manera universal en el Hospital Dr. Sótero del Río, centro donde se gestó y partió la iniciativa de realizar pesquisas auditivas en el recién nacido y en el cual se implementó un programa universal desde el año 2005 y que actualmente es un referente nacional en la materia. Por otro lado en el sector privado en la actualidad se realiza pesquisa universal de hipoacusia en el

recién nacido en diversas clínicas y centros médicos, la mayoría de las veces incluidos en el paquete de la prestación de atención del parto y recién nacido hace varios años (7, 46), dada la importancia de la detección desde el momento de nacer y la significativa sencillez y facilidad de aplicación de las respectivas pruebas de screening.

En lo que se refiere a cómo responder y enfrentar a un paciente con el diagnóstico de hipoacusia, se debe plantear un tratamiento adecuado de acuerdo a la pérdida auditiva específica. El tratamiento de la hipoacusia en el recién nacido consiste fundamentalmente en la utilización de la tecnología a través de audífonos, que en la actualidad corresponden a dispositivos electrónicos digitales que amplifican y modulan las diferentes características del sonido con potencias diferenciales de acuerdo a las pérdidas auditivas. Se debe recordar que si existe una pérdida auditiva bilateral, de igual forma se deben implementar audífonos digitales adecuados de forma bilateral lo más precozmente posible.

En los casos de pérdidas auditivas severas o profundas, en quienes no se hayan encontrado beneficios del uso de audífonos, contamos con la tecnología de los implantes cocleares, que también corresponden a dispositivos electrónicos auditivos, que en este caso tienen la característica de reemplazar la función del oído interno, introduciéndose directamente en la cóclea del paciente para transmitir las señales auditivas a la vía nerviosa auditiva y posteriormente a la corteza cerebral, por medio de una intervención quirúrgica. Ambos sistemas requieren ser implementados lo más tempranamente posible y se encuentran disponibles en Chile, contándose con los profesionales competentes, capacitados y entrenados para la implementación, seguimiento y rehabilitación con este tratamiento.

Además de esta terapia amplificadora y moduladora, se debe mencionar que el desarrollo del lenguaje oral debe ser apoyado fuertemente de una terapia de rehabilitación fonoaudiológica auditiva verbal, aprovechando todas las potencialidades auditivas desde el momento de la implementación del tratamiento para asegurar un éxito terapéutico.

Con estos antecedentes se ha podido corroborar que en el sector privado el problema de la hipoacusia del recién nacido ha sido en buena parte resuelto dada la presencia de programas de pesquisa universal funcionando asociado a la existencia de un tratamiento efectivo disponible. En este sector existe una importante experiencia en la implementación con audífonos, implantes cocleares y terapia auditivo verbales en centros rehabilitadores asociados (7), quedando aún pendiente tener la misma oportunidad en el sector público.

Luego de analizadas las diferentes alternativas de respuesta frente al problema de pesquisa de hipoacusia en la sección anterior, pasaremos a revisar las condiciones que debe cumplir un programa de pesquisa de hipoacusia de acuerdo a las distintas recomendaciones internacionales, y las técnicas implementadas para la realización de las pruebas de tamizaje.

5. *Condiciones necesarias para un programa de screening auditivo.*

Los métodos de pesquisa, screening o tamizaje en salud deben cumplir una serie de requisitos para ser considerados antes de su eventual implementación. Esta metodología fue descrita por Wilson y Jungner en 1968 en una comunicación de la Organización Mundial de la Salud (47), la cual ha sido reafirmada por diversos tipos de screening que se realizan en numerosas patologías como requisitos estándar (48).

Entre estos requisitos destaca que deben ser métodos que cuenten con una elevada sensibilidad y escasos o bien nulos falsos negativos. Además debe existir disponibilidad de pruebas de confirmación diagnóstica, que a diferencia de las pruebas de tamizaje deben tener una alta especificidad en el diagnóstico, costos asociados aceptables y contar con intervenciones efectivas de manejo, tratamiento y rehabilitación si corresponde. Por otro lado se debe conocer la historia natural de la enfermedad y sus pronósticos en caso de intervenir o no en ella.

Todos estos requisitos previamente enunciados son ampliamente cubiertos en el caso de la hipoacusia del recién nacido. Para justificar la necesidad de contar con programas de pesquisa universal, se debe tomar en consideración que la hipoacusia sensorineural congénita cuenta con una pesquisa fácil de implementar, con técnicas de screening y técnicas diagnósticas que poseen una sensibilidad y especificidad elevadas. Por otro lado, y como se ha mencionado previamente existen intervenciones efectivas y disponibles que corrigen la condición detectada. Además se debe recalcar que la condición en estudio no es detectable por otros parámetros clínicos y a modo de reforzar la justificación de su implementación, la pesquisa, el diagnóstico y el tratamiento temprano resultan en un significativo mejor pronóstico de la condición de base. A nivel nacional la implementación de un programa universal de hipoacusia sería además en un rango de costo efectividad aceptable (25).

En la actualidad existen diversas estrategias de tamizaje auditivo, las cuales se basan en 2 técnicas y/o combinaciones de ellas (49-51) ampliamente utilizadas y aceptadas por sistemas de salud internacionales. Estas técnicas corresponden a las pruebas de screening auditivo con emisiones otoacústicas (EOA) (52) y potenciales evocados auditivos de tronco cerebral (PEAT) (53). Ambas técnicas han demostrado eficacia en la detección precoz de hipoacusia, con elevada sensibilidad y especificidad, asociado a prácticamente nulo porcentaje de falsos negativos.

Las EOA corresponden a energía generada por las células ciliadas externas del órgano de Corti que se producen en respuesta a estímulos sonoros, existiendo las EOA transientes generadas por un estímulo de clic y las EOA por productos de distorsión. Estas tienen la ventaja de poder ser medidas de manera no invasiva por personal no especialista dada su sencillez, y ser capaces de detectar pérdidas auditivas desde los 20 dB con altísima sensibilidad. Como “desventaja” de las EOA se puede mencionar que estas no son capaces de evaluar la indemnidad de la vía auditiva, por lo que están indicadas solamente para el grupo de recién nacidos sin factores de riesgo conocidos, que corresponden al grueso de la

población (motivo por el que se utilizan las comillas en la palabra desventaja). Las EOA han reportado una sensibilidad de hasta el 98% para detectar hipoacusias severas y profundas, con una especificidad del 80% (26, 51).

Por otro lado los PEAT corresponden a la señal eléctrica que se presenta a lo largo de la vía auditiva en respuesta a estímulos sonoros y que es evaluada a través de electrodos que se ubican en distintos puntos de la superficie del cráneo bajo sueño fisiológico del recién nacido. Existen 2 modalidades en que se utilizan los PEAT, por una parte están los PEAT automatizados, utilizados como método de screening en los neonatos que poseen factores de riesgo, y los PEAT extendidos, clínicos o diagnósticos que se utilizan en la confirmación diagnóstica de HSNBC. Si bien los PEAT también se miden a través de métodos no invasivos y relativamente sencillos, en el caso de los PEAT extendidos se requiere un entrenamiento y experiencia en su interpretación, asociado a un ambiente de aislamiento eléctrico y acústico relativo que es posible conseguir en salas de exámenes adecuadas o unidades de neonatología bien implementadas. Los PEAT al igual que los EOA cuentan con una elevada sensibilidad (98%), pero con la ventaja de una especificidad del 96%; la concordancia entre EOA y PEAT se ha estimado en un 91% (49, 51, 54).

Luego de analizadas las secciones previas de diversos temas relevantes en relación al problema de cobertura de la pesquisa de hipoacusia, a continuación se revisará una última sección referente a aspectos económicos y su importancia en la toma de decisión en la implementación del screening universal auditivo como política pública.

6. Aspectos económicos y análisis de costos

Entre los factores que frecuentemente actúan como barreras para la implementación de programas de salud y en el programa de pesquisa de hipoacusia en el recién nacido en particular, se incluyen la falta de financiamiento,

falta de equipos de tamizaje y equipos diagnósticos, falta de conciencia de la opinión pública sobre el tema y falta de personal capacitado suficiente para atender de manera correcta a los neonatos (4). Pese a estas y otras múltiples barreras y obstáculos en la implementación de estos programas, se ha enfatizado que una de las principales barreras que han impedido su ingreso para la pesquisa de forma universal, corresponde a la barrera económica y su financiamiento. Es así que en lo que respecta a los análisis económicos en salud, se ha planteado una preocupación permanente en el sector público y profesional por reducir y contener los costos asociados a las prestaciones en salud (23, 55), y de tal forma se han buscado estrategias para el uso de los recursos de la manera más eficiente y que hayan demostrado su costo efectividad en el mediano y largo plazo.

Dado este contexto, es conveniente recordar que las evaluaciones económicas en salud corresponden a los análisis comparativos que se realizan frente a diferentes opciones a tomar en relación a sus costos y posibles consecuencias (23, 56). A su vez surge la problemática de los costeos en patologías o distintas atenciones de salud, que cada vez han adquirido mayor preponderancia dada la complejidad y diversidad de las distintas patologías y la gran cantidad de posibles caminos a seguir tendientes a su manejo y resolución, lo que plantea la imperiosa necesidad de evaluar las distintas alternativas analizando sus respectivos costos para tomar las decisiones más informadas posibles.

Los costeos en salud corresponden a los procesos por los cuales se estiman los valores efectivamente incurridos en una determinada prestación de salud. En estos procesos, los costos económicos se basan en el concepto del costo de oportunidad, el cual es un concepto que se apoya en un análisis relativo respecto del contexto específico en que se toma una decisión de realizar una prestación con mayor prioridad en relación a otra (56). De esta forma el verdadero costo de una inversión en salud no corresponde a la cantidad de dinero que se gasta en la misma, sino a los beneficios que se dejan de obtener mediante la mejor alternativa posible que se deja de realizar, es decir, el costo de oportunidad

corresponde al mejor valor al que se debe renunciar por tomar una determinada decisión (57-58).

Es así como existen distintas estrategias metodológicas para las evaluaciones de costos dependiendo del objeto que este tenga. Por este motivo resulta fundamental definir correctamente el objetivo del costeo de forma clara y precisa, previo a realizar otros análisis dado que dependiendo de su objetivo, la metodología de costeo será diferente. De esta forma y por mencionar algunos tipos de costeos nos encontramos por ejemplo con los sistemas de costeo basado en actividades ABC (Activity Based Costing), costeo por protocolo, costeo por procesos, costeo por paciente/patología como también los llamados Grupos Relacionados de Diagnóstico (GRD), entre otros (59).

En lo que respecta al análisis económico del screening auditivo puntualmente, se ha buscado cuál sería la estrategia más conveniente en cuanto a su costo efectividad, y diversos estudios han sugerido que las EOA, seguidas por PEAT automatizados en los casos que resulten con alteración de las EOA, parecen ser la alternativa más costo efectiva.

Los casos de recién nacidos con factores de riesgo conocidos, sobre todo en aquellos casos que requieren manejo en unidades de cuidados intensivos neonatales, tienen mayor posibilidad de tener daño neural o disincronía auditiva, por lo que en ellos es fundamental realizar PEAT para evitar los falsos negativos que habría solo con las EOA (10, 60). Estos costos asociados a estos protocolos de screening disminuyen con el aumento en el número de nacidos vivos pesquisados. Estos estudios, sin embargo, han enfatizado que los programas de tamizaje universal son costo efectivos en el largo plazo solo si un número importante de recién nacidos con hipoacusia mejora su lenguaje y su productividad (3).

Al analizar las barreras para la implementación de programas de pesquisa universal de hipoacusia en el resto de Latinoamérica, también destacan los obstáculos referentes al financiamiento, sin embargo, se observan diferencias

entre países con altos o con bajos ingresos económicos. En el caso particular de Chile llama la atención que sea uno de los países latinoamericanos con mayor ingreso nacional bruto per cápita, y cuente solamente con un programa selectivo de pesquisa de hipoacusia (4). Además destaca que Chile posee características inmejorables para ampliar este programa, no solo en lo que se refiere a su destacada y ejemplar economía y estabilidad sociopolítica, sino que posee uno de los mejores índices sanitarios del continente en lo que a atención del parto y recién nacido se refiere. En este sentido contamos con cerca del 100% de nacimientos institucionalizados (4), tema realmente relevante, ya que es durante la hospitalización por el parto el momento más indicado para realizar la pesquisa de hipoacusia.

Con el actual programa chileno, como se ha mencionado en las secciones previas, cerca del 50% de los recién nacidos con algún grado de discapacidad auditiva no está siendo pesquisado. Este hecho acarrea consecuencias no del todo consideradas por los tomadores de decisiones, no siendo fáciles de cuantificar e interpretar dichas consecuencias, dado que se comprometen cifras significativas en cuanto a costos sociales y económicos que conlleva el hecho de no habilitar tempranamente a un niño con discapacidad auditiva, y como consecuencia de esto tener que habilitar a un niño sordo sin capacidades de adquirir lenguaje por un diagnóstico tardío. A la luz de estos antecedentes resulta claro que la hipoacusia sensorineural bilateral congénita es un problema de salud pública actual a nivel país, y lo seguirá siendo mientras no se amplíe el actual programa de pesquisa y a su vez se aumente la cobertura y seguimiento.

Como respuesta a este problema y de forma pionera en el servicio público, el Hospital Dr. Sótero del Río está implementado un programa de detección universal de hipoacusia, el cual podría ser tomado como programa piloto y ser replicado en otros centros públicos del país, siendo un importante antecedente y motor para la implementación de esta medida como una política pública con miras de cobertura a nivel nacional.

De igual forma como respuesta al problema y a las barreras económicas que estarían involucradas en que no se haya implementado un programa de pesquisa e intervención precoz de hipoacusia neonatal, el Ministerio de Salud, a través del Departamento de Economía de la Salud, han realizado recientemente un estudio de costo efectividad (25). Los resultados de dicho estudio han sido enfáticos y claros de que en Chile un programa de detección e intervención precoz de hipoacusia en el recién nacido sería costo efectivo.

Luego de haber desarrollado los principales temas referentes a la hipoacusia del recién nacido, y particularmente a la toma de decisión de realizar una pesquisa universal temprana de la misma, pasaremos a redondear y reforzar los principales conceptos que deben internalizarse y a su vez dar una justificación coherente y de peso para desarrollar la presente tesis.

7. Resumen del marco teórico y justificación del desarrollo de la presente tesis.

La hipoacusia del recién nacido no solo corresponde a la patología congénita más frecuente constituyendo un real y justificable problema de salud pública pendiente por resolver, sino que además es una enfermedad que compromete el desarrollo integral de la persona que la padece a lo largo de toda su vida. Si bien la principal alteración de su presencia se relaciona con alteraciones del desarrollo del lenguaje oral, el compromiso del desarrollo que ésta produce, trasciende largamente a la solo adquisición del mismo. El hecho de no pesquisar un niño sordo no solo significa privarlo de un manejo integral y efectivo que actualmente está disponible en Chile, sino que además significa privarlo de un desarrollo e integración intelectual, social, profesional y productivo a lo largo de toda la vida, que a la larga termina por marginarlo de lo algo tan básico en el ser humano como lo es su característica eminentemente de *ser social*.

No son novedad las grandes brechas socio económicas existentes en nuestro país y ya nadie se asombra mayormente de las gigantescas inequidades e injusticias que en Chile ya se han tomado por costumbre o como un mal hábito, sin estrategias que hayan sido efectivas en disminuirlas. El problema del acceso a la salud no debería ser víctima de estas inequidades ni distinguir entre ingresos o clases sociales, sin embargo, el caso de la hipoacusia del recién nacido al igual que muchas otras patologías hasta la actualidad consideradas de “baja prioridad” por las autoridades de turno, son sometidas al régimen de inequidades que afecta hace décadas a Chile. Los tomadores de decisión aún no han sido capaces de magnificar lo que muchos países desarrollados ya lo hicieron hace bastante. Nuestros tomadores de decisiones aún no han podido ver más allá del, sin duda gran esfuerzo, que significa la implementación de un programa de tamizaje universal de las características que requiere la pesquisa de hipoacusia. Aún no han logrado darse cuenta de los enormes costos sociales, económicos, personales y de toda índole a lo largo de la vida de cada uno de los niños que pierden gran parte de su desarrollo por la falta de acceso.

En la actualidad el problema de falta de pesquisa de hipoacusia en el recién nacido en Chile es un problema que se presenta casi de forma exclusiva en el sector público de salud, dado fundamentalmente por las políticas públicas implementadas por los gobiernos chilenos que privilegiaron la pesquisa selectiva, que a la luz de las evidencias actuales es un política obsoleta, cara y poco costo-efectiva. En la otra cara de la moneda, gran parte del sector de salud privado chileno se ha apoyado de la evidencia, mayoritariamente extranjera, y ha sido capaz de resolver con éxito y con dividendos positivos el problema de pesquisa y tratamiento de la hipoacusia del recién nacido.

Afortunadamente aún hay mucho que se puede trabajar y existen las estrategias y medios para abordar el problema. Creemos firmemente que con el desarrollo de esta tesis se puede aportar con evidencia y datos significativos que apoyen la postura de ampliar la cobertura del programa de pesquisa de hipoacusia a la mayoría de los recién nacidos en Chile y de esta forma optar por una política

pública que esperemos que más temprano que tarde se haga una realidad en nuestro país. Solo de esta forma estaremos avanzando de forma efectiva, equitativa, igualitaria y justa para todos los recién nacidos en nuestro país, independientemente del lugar donde nazcan o de la familia que provengan, y como consecuencia de ello, de las oportunidades que el medio y la sociedad en su conjunto somos capaces de ofrecerles.

IV. OBJETIVOS

El propósito de este estudio consiste en desarrollar una revisión actualizada de la evidencia que apoye la ampliación de un programa de pesquisa universal e intervención precoz de hipoacusia sensorineural bilateral congénita en Chile, desde un programa selectivo a uno de carácter universal.

1. OBJETIVO GENERAL

Desarrollar una revisión de la evidencia para sustentar un programa de pesquisa universal e intervención precoz de hipoacusia sensorineural bilateral congénita en Chile.

2. OBJETIVOS ESPECÍFICOS

- a) Sistematizar la información sobre aspectos clínicos y epidemiológicos relevantes respecto de la hipoacusia sensorineural bilateral congénita en Chile y el mundo.
- b) Sistematizar la información sobre las modalidades de respuesta frente a la hipoacusia sensorineural bilateral congénita.
- c) Discutir respecto de las condiciones necesarias para la implementación de un programa de pesquisa universal e intervención precoz de hipoacusia sensorineural bilateral congénita en Chile.
- d) Publicar los resultados de la búsqueda y revisión actualizada del problema de la hipoacusia sensorineural bilateral congénita en Chile, en forma de un artículo en una revista científica relevante.

V. METODOLOGÍA

Para llevar a cabo los objetivos de este estudio, asociado a la intención de poner en discusión en la comunidad el problema de salud pública actual que significa la hipoacusia neonatal, se llevó a cabo una revisión actualizada de la evidencia que se encuentra disponible en los diversos formatos existentes en la actualidad. De esta forma se procedió a realizar una revisión tanto de la literatura oficialmente publicada en medios científicos formales y programas ministeriales, así como en fuentes de datos de literatura gris, reportes diversos, tesis de pre y postgrado de carreras afines, conferencias científicas, opiniones de expertos y actores relevantes y otras fuentes no oficialmente publicadas.

Para cumplir con estos propósitos se realizó primariamente una búsqueda telemática vía internet con diversos Meta-buscadores (buscadores telemáticos de buscadores de bases de datos de información). Entre los Meta-buscadores utilizados se encuentran los ampliamente utilizados para la confección y búsqueda de información y literatura científica como SumSearch y TripDatabase, para a su vez utilizar las bases de datos de Medline, Embase, Lilacs, Scielo, Cochrane Collaboration y Evipnet, dentro de sus criterios de búsqueda. Se utilizó adicionalmente como criterios de búsqueda a todo tipo de estudios, independiente de su metodología de trabajo o su grado de evidencia científica.

De igual forma se consideró dentro de la búsqueda a todos aquellos estudios que hubiesen sido redactados en idioma inglés y español, dentro del período comprendido entre los años 1980 a 2014. De este modo se incluyó reportes de todos los lugares del mundo que cubran las bases de datos mencionadas, que consideran prácticamente toda la literatura científica disponible a nivel mundial.

Así mismo se eligió estudios que consideraran como pacientes a recién nacidos. A su vez se buscó estudios en que se aplicaran programas de pesquisa

de hipoacusia, tipos de pesquisa de hipoacusia utilizados (selectiva y/o universal), aplicación e implementación de programas de pesquisa de hipoacusia, manejo de pacientes con diagnósticos sospechados, manejo de pacientes con diagnósticos confirmados, pronóstico de pacientes con hipoacusia con/sin diagnóstico precoz, pronóstico de pacientes con hipoacusia con/sin implementación de audífonos en forma precoz, pronóstico de pacientes con hipoacusia con/sin implementación de implantes cocleares en forma precoz, estudios de costo efectividad en programas de pesquisa y tratamiento precoz, entre otros.

Dentro de las palabras clave que a priori se utilizaron en la búsqueda se encontraron: hipoacusia (hearing loss), neonatal (newborn), tamizaje (screening), diagnóstico precoz (early diagnosis), intervención precoz (early intervention), epidemiología (epidemiology), tamizaje neonatal (neonatal screening), políticas en salud (health policy). Sin embargo, estas resultaron ampliadas en función de los resultados que se fueron obteniendo en las diferentes etapas del desarrollo de la revisión. Este tipo de búsqueda informática no se enmarca en la metodología utilizada para criterios de revisión sistemática por lo que no se debe considerar como tal.

Una vez adquirido un pool de fuentes de datos en forma de artículos de revistas científicas, reportes, comunicaciones, capítulos de libros, entre otros, se procedió a filtrar la información en función de su calidad, relevancia e impacto en la comunidad científica. De esta forma se contó con la suficiente cantidad de información para elaborar un reporte de buena calidad, sin perderse en información irrelevante ni redundante.

Finalmente se sistematizó la evidencia disponible que se encontró respecto a la implementación de programas existentes de tamizaje universal en Chile y el mundo, para a continuación sintetizar dicha información y desarrollar un texto en forma de artículo científico, para luego ser publicado en una revista científica relevante de nuestro medio local.

VI. ASPECTOS ÉTICOS

El presente estudio busca aportar evidencias que apoyen la ampliación del programa de pesquisa de hipoacusia del recién nacido hacia la universalidad. En algunos sectores de Chile, fundamentalmente en el sector privado, el problema de fondo de cobertura y financiamiento que plantea este estudio está resuelto hace ya bastante tiempo. En este sector no es una novedad un programa de pesquisa universal de hipoacusia, fundamentalmente dado por la simplicidad de procedimiento en su ejecución como por los evidentes beneficios económicos y sociales que ha demostrado a lo largo de experiencias internacionales. Estas medidas de pesquisa universal se realizan hace varios años en centros y clínicas privadas con excelentes resultados (7, 35, 46) y de manera aislada en el sector público en el Hospital Dr. Sótero del Río.

Referente al tamizaje universal la OMS hace un especial énfasis desde el punto de vista ético sobre los “Derechos de las personas con discapacidades”, o bien capacidades diferentes, específicamente en que la rehabilitación de estos debe ser promovida de la forma más precozmente posible (61). De igual forma es éticamente relevante que si se pretende implementar un programa de tamizaje universal, se debe proponer que el Estado financie el manejo de los casos en que las redes de apoyos familiares y personales no puedan asumir dicho esfuerzo financiero.

En este estudio no se consideró la participación directa o indirecta de los pacientes, por lo que no entro en conflicto con la reciente implementación de la ley de derechos y deberes de los pacientes (62).

Desde el punto de vista de igualdad de oportunidades o bien oportunidad de acceso a las diferentes prestaciones de salud, el presente estudio pone de manifiesto la inequidad que vive actualmente el país en materia de acceso a un diagnóstico e intervención oportuna en una discapacidad que determina una carga

social y económica a toda la sociedad en su conjunto con un claro desmedro del sector público al compararlo con el privado. Si bien los objetivos del presente estudio no apuntan hacia la comparación de programas entre el sector privado versus el público, en él quedan de manifiesto las grandes diferencias e inequidades mencionadas que tienden a perpetuar las grandes brechas entre los diferentes grupos socioeconómicos del país.

A opinión del autor, la actual situación del screening auditivo en Chile se debería más a una desinformación de las reales magnitudes y consecuencias de la hipoacusia no pesquisada, además de la desinformación sobre los ahorros que ha demostrado en otras experiencias, que a sus costos actuales en su implementación. No debemos cansarnos de repetir que los discapacitados auditivos son una gran carga social y económica para todo Chile que tiene solución y está en nuestras manos y sobre todo voluntad materializarla.

Finalmente se debe mencionar que el presente estudio no contempla la evaluación diferencial de oportunidades en cuanto a manejos terapéuticos con pacientes ni tampoco conflictos de intereses con ninguna institución, por lo que no encontramos conflictos de la esfera ética a cuestionar.

VII. RESULTADOS

A continuación se expondrán los resultados de la búsqueda, revisión y actualización del problema en forma de artículo científico, tal como se planteó dentro de los objetivos específicos. De esta forma queda reflejada y sintetizada la información que fue publicada en la Revista Médica de Chile, en la sección de Salud Pública en su número de agosto de 2013, la cual finalmente salió a circulación durante el mes de Octubre del mismo año en formato papel y vía telemática en su página web.

De esta forma se eligió y prefirió esta modalidad para presentar los resultados, a modo de reflejar el impacto de la productividad académica de esta tesis. En consecuencia dicho artículo tuvo que aprobar todos y cada uno de los pasos, normas y exigencias que una revista de estas características tiene, más aun para destacarse dentro de una revista en la cual los temas principales publicados son aquellos directamente relacionados con otras áreas de la salud como lo es la medicina interna.

Así, adicionalmente los resultados fueron sometidos a la evaluación y manejo de revisores y editores externos que luego del proceso de rigor de editorial científica, consideraron que estos contaban con la relevancia, contingencia y calidad suficiente para ser divulgados y publicados en una revista de sus características e importancia a nivel local.

Título: Programa de Tamizaje Universal e Intervención Precoz (PTUIP) en Hipoacusia Sensorineural Bilateral Congénita. Tarea pendiente desde la perspectiva de Políticas Públicas de Salud en Chile.

Título abreviado: Tamizaje Universal e Intervención Precoz en Hipoacusia Congénita, Política Pública pendiente.

Nicolás Albertz¹, Felipe Cardemil^{2, 3}, Maritza Rahal^{3, 4}, Francisca Mansilla^a, Rodrigo Cárdenas^a, Pedro Zitko⁵

¹ Médico, Magister (c) en Salud Pública Universidad de Chile, Santiago, Chile, Becario CONICYT.

² Médico, Programa de Doctorado en Salud Pública Universidad de Chile, Santiago, Chile, Becario CONICYT.

³ Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Barros Luco Trudeau, Santiago, Chile.

⁴ Jefe de Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Barros Luco Trudeau. Programa de Implantes Cocleares, Hospital Barros Luco Trudeau – MINSAL, Santiago, Chile.

^a Fonoaudiólogo, Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Barros Luco Trudeau, Santiago, Chile.

⁵ Médico, Magíster en Epidemiología, Unidad de Estudios Asistenciales, Hospital Barros Luco Trudeau, Santiago Chile.

Autor responsable de correspondencia:

Nicolás Albertz

Dirección: Las Verbenas 9000, Depto 1105, Las Condes, Santiago, Chile.

Teléfono: (+56 9) 9822 5859

Email: nalbertz@ug.uchile.cl

El presente estudio se realizó sin ningún tipo de apoyo financiero ni presenta conflictos de interés.

Tablas adjuntas: 2

Figuras adjuntas: 0

Recuento de Palabras: 2774

Resumen

La hipoacusia congénita consiste en la incapacidad total o parcial de percibir sonidos a través de los oídos. Corresponde a la discapacidad más frecuente del recién nacido en Chile y el mundo, y posee un carácter permanente. La consecuencia directa en aquellos niños que no son pesquisados adecuadamente son alteraciones en la adquisición del lenguaje y cognitivas, disminuyendo su inserción social y escolar, y a su vez comprometiendo su potencial profesional y productivo a lo largo de la vida. Para el diagnóstico es clave contar con programas de tamizaje universal de hipoacusia, debido a que el 50% de los recién nacidos con hipoacusia no tiene ningún factor de riesgo conocido. Se ha demostrado que el tamizaje antes del mes de vida, la confirmación antes de los 3 meses, y la intervención efectiva antes de los 6 meses, permite el desarrollo de estos niños tal como si tuviesen una audición normal. En Chile se dispone de un programa selectivo de detección para recién nacidos de menos de 32 semanas y/o 1500 gramos, como parte de las Garantías Explícitas en Salud; sin embargo, esto cubre sólo al 0,9% de los recién nacidos por año, por lo que queda una gran mayoría de niños sin diagnóstico. El objetivo de esta revisión es comparar la situación de Chile respecto a otros países, plantear la necesidad de avanzar hacia un programa de tamizaje universal de hipoacusia neonatal, y proponer condiciones necesarias en términos de justificación e implementación de una política pública de tamizaje universal.

Palabras clave: Hipoacusia, tamizaje universal, política pública.

Abstract

Congenital hearing loss is the total or partial inability to hear sounds through the ears. It is the most common disability in newborns in Chile and the world, and is a permanent condition. The direct impact on children who are not adequately diagnosed is the alteration in acquisition of language and cognitive skills, decline their social and school insertion, and compromising their professional and potentially productive life. For diagnosis is key to have universal screening programs for hearing loss, because 50% of infants with hearing loss have no known risk factor. It has been shown that screening before one month of age, confirmation before 3 months, and effective intervention before 6 months, allows the development of these children as if they had normal hearing. In Chile there is a selective program of screening for infants less than 32 weeks or 1,500 grams, as part of Explicit Health Guarantees, but this covers only 0.9% of newborns per year, so there is a large majority of children that remain without diagnosis. The aim of this review is to compare the situation in Chile to other countries, raising the need to move towards a universal neonatal hearing loss screening program, and propose necessary conditions in terms of justification and implementation of a universal screening public policy.

Key words: Hearing loss, mass screening, public policy

Definición y relevancia del problema

La hipoacusia sensorineural bilateral congénita (HSNBC), corresponde a la discapacidad más frecuente del recién nacido. Tiene un carácter permanente e irreversible y actualmente permanece como un problema de salud pública pendiente por resolver en Chile(1). Consiste en la incapacidad total o parcial de percibir sonidos, secundario a una alteración y/o disfuncionalidad a nivel de los receptores auditivos en el oído interno, o bien a la alteración de la vía auditiva nerviosa en cualquiera de sus niveles hasta llegar a la corteza cerebral(2-3).

Las consecuencias directas en aquellos niños que no son pesquisados e implementados adecuadamente son la generación de alteraciones en la adquisición del lenguaje y cognitivas, disminuyendo su inserción social y escolar, y a su vez comprometiendo su potencial profesional y productivo a lo largo de toda la vida(4-7). Por su parte, los objetivos de los programas de pesquisa precoz de hipoacusia

consisten en el tamizaje, diagnóstico e implementación de los afectados con el fin de optimizar la comunicación, los resultados sociales, académicos y profesionales para cada niño con pérdida auditiva, habiéndose demostrado que la detección antes de 3 meses de vida, acompañada de una intervención efectiva antes de los 6 meses, permite el desarrollo de estos niños tal como si tuviesen una audición normal, resultado que se incrementaría mientras más temprano se realice el diagnóstico y tratamiento(4-5, 7-8).

- Presentación clínica e historia natural

El 50% de los casos corresponden a recién nacidos sanos sin factores de riesgo, presentándose de manera típica como un recién nacido de aspecto saludable sin que existan elementos que orienten a su presencia o generen algún grado de sospecha(9). Por este motivo la mayoría de las veces la hipoacusia pasa desapercibida al momento de nacer o en los primeros controles sanos.

La sospecha recién aparece luego de varios meses o incluso algunos años, cuando los padres notan que sus hijos no han superado hitos del desarrollo del lenguaje o no han aprendido a hablar. Esto lleva a que muchos casos de hipoacusia moderada se detecten recién en la edad escolar(10), sospechada por profesores basados en un bajo rendimiento académico, siendo muchas veces confundida con déficit atencional, retraso mental, autismo u otros diagnósticos neurológicos. Este hecho ha sido corroborado al evidenciarse que antes de la implementación de programas de pesquisa precoz de hipoacusia, la edad promedio de diagnóstico era entre los 2 y 3 años, para reducirse a los 5 a 7 meses con su implementación(1, 11-12).

El manejo incluye el uso de audífonos para casos de hipoacusia en grado leve y moderado, e implantes cocleares para severa y profunda, con algunas excepciones. A esto hay que sumar las horas de terapeutas de lenguaje, médico, psicólogo e insumos clínicos y

operatorios, entre otros. Pese a ello, en series de Estado Unidos de Norteamérica se ha visto que un niño correctamente implementado, que logre desarrollar audición que le permita escuchar, podrá aprender como un niño sin hipoacusia(13), requerirá menos horas de educación especial(14), mejorará su calidad de vida(15), y se infiere que a largo plazo se podrá desarrollar como una persona sin discapacidades, lo que tiene un impacto en menores costos al país y mayor productividad(14).

- ***Epidemiología***

Múltiples estudios han reportado cifras entre 1 y 5 casos cada 1000 nacidos vivos en sus distintos grados de severidad (1, 16-18). En Chile no se tienen estimaciones certeras respecto de la incidencia, ni del total de niños con hipoacusia. Sin embargo, en base a la encuesta CASEN 2009, se estima que cerca de 25 mil personas viven actualmente en Chile con hipoacusia desde el nacimiento(19). Una serie de Clínica Las Condes, institución que realiza tamizaje universal, reportó una incidencia de 2,8 casos cada 1.000

nacidos vivos con un diagnóstico a los 3 meses de 88,5%(20). Tomando como base 250.000 nacimientos anuales en nuestro país, se puede plantear que nacen actualmente en Chile hasta 1250 niños con hipoacusia, de los cuales un porcentaje importante no son oportunamente diagnosticados ni habilitados.

- ***Programas de
pesquisa en el mundo.***

Al comparar la situación local con la de países de la región, se aprecian situaciones disimiles: Argentina posee un programa de tamizaje universal implementado desde 1997, con legislación vigente desde 2001 que establece el derecho a recibir tratamiento adecuado desde 2005(21); Brasil posee un sistema que cubre el 4% de las maternidades(22); Colombia posee una legislación referente a la pesquisa universal desde 2005, que actualmente se encuentra en implementación(16); Puerto Rico es el único otro país además de Argentina que posee tamizaje universal de hipoacusia neonatal(16).

En otras regiones, como en Estados Unidos de Norteamérica, el año 1993 el National Institutes of Health realizó un consenso en que se impulsó el tamizaje universal(23). Posteriormente, el Joint Committee on Infant Hearing ha elaborado posiciones oficiales de manera de reglamentar y evaluar la estrategia(4, 24). China también posee un programa universal de tamizaje, aunque al igual que EE.UU., no es obligatorio. Existen programas universales obligatorios en Alemania, Filipinas, y en implementación en Australia. En Europa, la mitad de los países tienen programas de tamizaje universal(22).

En Chile desde el año 2005, en el contexto de las garantías explícitas en salud (GES), contamos con el programa de pesquisa de hipoacusia selectivo en el recién nacido prematuro menor de 32 semanas y/o de peso al nacer menor a 1500 gramos(11). Sin embargo, este programa sólo realiza tamizaje a un 0,99% de los recién nacidos vivos por año, de acuerdo a cifras del programa de seguimiento de prematuros, ya

que se restringe a sólo dos factores de riesgo. Esto corresponde a 1.467 recién nacidos por año en estas condiciones(25). La Encuesta de Discapacidad del año 2004 informó que la hipoacusia era la segunda causa de discapacidad en Chile. Otros resultados indican que el 70,1% de las personas con hipoacusia mayores de 15 años no realizaban actividad remunerada, que el 43% de las personas con hipoacusia tiene educación básica incompleta y que sólo el 6% de las personas con hipoacusia ha tenido acceso a la educación superior(26). De esta forma los pacientes con hipoacusias severas y profundas cuentan con pensión de invalidez o bien doble asignación familiar antes de los 18 años, siendo considerados discapacitados. Considerando que la mitad de los casos no tiene ningún factor de riesgo, hay una gran proporción de recién nacidos con hipoacusia que estarían quedando sin ser detectados.

Pese al avance local, cada vez son más los estudios y evidencias de la esfera clínica, epidemiológica y

económica que apuntan a la universalidad del programa, ya que se ha logrado identificar que los programas basados en la pesquisa dirigida en la población de mayor riesgo de hipoacusia dejan una gran proporción de casos sin diagnóstico(4, 11, 27-31). Esta es una importante razón que justifica la implementación de programas de pesquisa que abarquen a la totalidad de los recién nacidos.

En este contexto se hace evidente que la cobertura del actual programa público chileno de pesquisa de hipoacusia, que abarca sólo a 2 de los múltiples factores de riesgo conocidos, es un conflicto de importancia significativa en salud pública por la gran carga social y económica que significa habilitar a un niño hipoacúsico no pesquisado de forma precoz.

- ***Iniciativas de tamizaje en Chile.***

En Chile existen iniciativas de tamizaje diversas. En el sector público el Hospital Dr. Sótero del Río cuenta con un programa de Tamizaje

Universal en funcionamiento desde el año 2005(32). En Temuco desde septiembre del mismo año se realiza detección en Puerperio y en Neonatología del Hospital Dr. Hernán Henríquez Aravena; en el Hospital Las Higueras de Talcahuano se realiza tamizaje neonatal universal desde el año 2000. Además el Hospital Barros Luco Trudeau cuenta con un programa piloto de implantes cocleares desde el año 2003, el Hospital Luis Calvo Mackenna es centro de derivación de implantes cocleares de JUNAEB, y el Hospital Naval de Viña del Mar también es centro de derivación del MINSAL.

Por otro lado, en el ámbito privado, Clínica Las Condes tiene un programa de tamizaje universal ininterrumpido desde el año 2001 y un programa de implantes cocleares y rehabilitación desde 1994(20). Además, Clínica Alemana de Santiago tiene un programa establecido de tamizaje e implantes cocleares desde hace algunos años, el Hospital Clínico de la Universidad de Chile y las clínicas Santa María y Tabancura, el Hospital Militar, el

Hospital Naval y el de la Universidad Católica de Chile también tienen programas de tamizaje. Posiblemente, otras instituciones privadas, tanto en Santiago como en provincias también posean programas establecidos de tamizaje, pero no existen reportes formales de sus experiencias.

Hacia un Programa de Tamizaje Universal e Intervención Precoz (PTUIP) en Hipoacusia Sensorineural Bilateral Congénita.

Los métodos de tamizaje en salud deben cumplir una serie de requisitos (Tabla 1) que en el caso de la HSNBC son ampliamente cubiertos. Cobra gran relevancia el hecho de que ésta no es detectable de manera precoz por otros parámetros clínicos(10). Por esta razón, adquiere importancia la implementación de PTUIP en hipoacusia neonatal(22). Siguiendo estos principios, se recomienda que la detección de hipoacusia no sea realizada con estrategias basadas en

poblaciones de riesgo, debido a su limitada efectividad(33) ya que el tamizaje universal permite una mejor derivación, diagnóstico y oportunidad de acceso a tratamiento(13).

- **Métodos de pesquisa**

En relación a los métodos de tamizaje, se utilizan fundamentalmente dos: otoemisiones acústicas (OEA) y potenciales evocados auditivos de tronco abreviados (PEAT-A). Ambos son exámenes fisiológicos, no invasivos, y pueden ser realizados junto a la cama del recién nacido(34). Las OEA evalúan la vía auditiva desde el conducto auditivo externo hasta el oído interno, y se encuentran presentes en el 99% de los oídos sanos. Los PEAT-A evalúan la vía auditiva desde el conducto auditivo externo hasta el tronco cerebral(34). En la mayoría de los programas de tamizaje universal se ha implementado una estrategia en dos pasos, por ser costo efectiva y más certera(34):.Lo habitual es la realización de OEA en todos los niños como primer paso, y la realización de PEAT-A en los niños que no pasen

las OEA, y en casos de niños con factores de riesgo conocidos para hipoacusia(35).

- **Aspectos económicos**

Entre los factores que actúan como barreras para la implementación de programas de salud, y en los PTUIP en particular, se incluyen la falta de financiamiento, equipos de tamizaje y diagnósticos, falta de conciencia de la opinión pública sobre el tema (*awareness*), y falta de personal capacitado suficiente(16).

En relación a la costo-efectividad de un programa de tamizaje universal, se debe considerar que los costos de tener personas con hipoacusia son considerablemente altos para la sociedad. Se han realizado estudios que comparan los costos que significa tener un discapacitado auditivo a lo largo de su vida, con sus implicancias académicas y productivas, versus un individuo socialmente activo. Los PTUIP han significado ahorro en millones a los Estados, y al sector salud un ahorro

de prestaciones sanitarias a lo largo de toda la vida(36).

En Inglaterra se estimaron gastos adicionales de cerca de USD 14.000 en niños hipoacúsicos versus niños sanos para el período entre el nacimiento y los 9 años, que aumentan en la medida que existen menores habilidades de lenguaje oral(36). En Canadá un reporte informó que el costo de implementación total de un programa de pesquisa universal de hipoacusia fue de USD 5.200.000, pero con un beneficio en términos de ahorro por año de USD 1.700.000 principalmente por concepto de ahorro educacional y prestaciones sanitarias(34).

Las fuentes de financiamiento de los programas de tamizaje tienen diferentes modalidades. Existen aportes del Estado o de las familias con su aporte de bolsillo, o bien modalidades de financiamiento mixto por ambas partes de acuerdo al centro de atención específico. En países como Argentina, India, Serbia y parcialmente Brasil, el Estado es la principal fuente de financiamiento en

hospitales públicos. En China y EEUU, son las familias las que deben hacer el mayor esfuerzo financiero(16, 22). En el caso chileno a nivel público los programas de pesquisa y la implementación son financiados principalmente por el Ministerio de Salud. En el sector privado son las familias las encargadas de financiar la pesquisa, diagnóstico y tratamiento de la HSNBC.

- ***Implementación del programa***

Las diferencias entre los sistemas de salud de los distintos países que han implementado programas de tamizaje, generan diferentes planteamientos respecto a la implementación. Pese a ello, la OMS promueve los factores que estarían asociados con mejores resultados en los programas de tamizaje de hipoacusia (Tabla 2)(22).

Se debe tener en consideración que el programa de tamizaje debe estar vinculado a un sistema efectivo y oportuno de diagnóstico, intervención, y apoyo

familiar, que son los siguientes pasos de la cadena(22). Además, existe evidencia respecto a que los niños con hipoacusia son mejor manejados por equipos multidisciplinarios(34).

Es necesario realizar el debate respecto a los pasos para la implementación de un PTUIP. Como se mencionó, actualmente existen iniciativas de tamizaje en múltiples centros, tanto públicos como privados, vinculados o no a Universidades. Es importante rescatar todas estas experiencias al momento de plantear un eventual programa de carácter nacional.

Para avanzar hacia un PTUIP nacional, se puede lograr mediante un programa piloto universal distrital (hospitalario, servicio de salud, o regional) bien diseñado y planificado, con resultados intermedios de gestión y clínicos para evaluar la viabilidad de la política, o mediante un programa piloto de detección basado en todos los factores de riesgo conocidos, que sea monitorizado con los mismos indicadores(37). En cualquier caso, no estaría recomendado implementar de inmediato un PTUIP nacional sin

la experiencia previa formal de un programa piloto inicial.

Para la implementación de una política pública en el manejo de la hipoacusia, se consideran cinco etapas: sospecha de hipoacusia, diagnóstico, implementación de ayuda auditiva (que puede ser con audífonos o implante coclear), habilitación, y seguimiento(11). Estas 5 etapas podrían ser consideradas como paquetes de prestaciones que pudieran ser valorizadas por los tomadores de decisiones, de manera de promover la generación de un futuro programa de política pública.

Conclusiones

Chile es uno de los países latinoamericanos con mayor ingreso nacional per cápita, y cuenta con escasos programas de pesquisa de hipoacusia. A su vez, posee características inmejorables para ampliar el programa nacional actual, no sólo en lo que se refiere a su estabilidad económica y sociopolítica, sino que posee uno de los mejores índices sanitarios del continente en lo

que a atención del parto y recién nacido se refiere, tema relevante, ya que es durante la hospitalización por el parto el momento más indicado para realizar la pesquisa de hipoacusia(16).

Las estrategias de tamizaje han generado descenso en la edad de identificación y diagnóstico, y descenso en la edad de inicio de implementación de terapia o habilitación(4) Existen 2 revisiones sistemáticas de la literatura que apoyan el hecho que los niños que son sometidos a un programa de tamizaje universal son diagnosticados precozmente y reciben tratamiento antes(13, 38). Lo relevante de esto es que mientras antes se haga el diagnóstico, antes se puede intervenir, lo que es fundamental en audición ya que a mayor edad de intervención, peores resultados en términos del desarrollo de lenguaje y otras habilidades cognitivas(4).

Respecto a la alternativa del tamizaje universal, desde el punto de vista ético, la convención de la OMS sobre “Derechos de las personas con discapacidades” hace énfasis en los

derechos de los niños con discapacidades, específicamente en relación a que la rehabilitación debe ser promovida lo más precoz posible(22). En este punto, surge un dilema ético en el sentido de que si se pretende implementar un programa de tamizaje universal de hipoacusia, se debe plantear la posibilidad que el Estado financie el tratamiento para los casos en que la familia no pueda asumirlos.

Es relevante que esta situación se esté abordando desde las políticas públicas en salud. Se requerirá un esfuerzo conjunto por múltiples equipos de trabajo que partan desde la atención primaria, las unidades obstétricas y neonatales, los equipos otorrinolaringológicos y audiológicos, la cooperación materna, entre muchos otros, ya que la tarea es compleja. Sin embargo, con el funcionamiento del GES ya se cuenta con una experiencia que puede ser facilitadora para este nuevo proceso.

En Chile este es un problema relevante, muchas veces subestimado por los medios y los tomadores de decisión, que tiene

potencialmente solución, ya que existe la experticia técnica y eventualmente los recursos para concretarlo. Para esto se requiere implementar un programa de tamizaje con el apoyo de personal e infraestructura dedicada al programa. A su vez, se debe contar con un sistema de registro y seguimiento adecuado, y evaluaciones de costo y pronóstico de los casos detectados de manera de evaluar el verdadero impacto.

Tabla N° 1: Condiciones necesarias para un programa de tamizaje

1. Métodos de pesquisa con elevada sensibilidad.
2. Disponibilidad de pruebas de confirmación diagnóstica con elevada especificidad.
3. Costos asociados aceptables.
4. Intervenciones efectivas de tratamiento.
5. Intervenciones efectivas de rehabilitación.
6. Conocimiento del pronóstico e historia natural en caso de intervenir o no.

Tabla N° 2: Condiciones necesarias para un programa de tamizaje

1. Programas con objetivos, roles y responsabilidades bien definidas.
2. Persona a cargo con responsabilidades respecto al funcionamiento del programa.
3. Protocolo de tamizaje claro, basado en circunstancias locales y socializadas con los actores relevantes.
4. Monitoreo periódico para verificar la correcta ejecución del programa.
5. Entrenamiento adecuado del personal que ejecute el screening.
6. Comunicación efectiva desde el personal hacia los padres.
7. Procedimientos de aseguramiento de calidad del programa.
8. Seguimiento de los casos y los resultados.

Referencias

1. Yoshinaga-Itano C, Sedey AL, Coulter DK, Mehl AL. Language of early- and later-identified children with hearing loss. *Pediatrics*. 1998 Nov;102(5):1161-71.
2. Parving A. Congenital hearing disability--epidemiology and identification: a comparison between two health authority districts. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 1993 May;27(1):29-46.
3. Mehra S, Eavey RD, Keamy DG, Jr. The epidemiology of hearing impairment in the United States: newborns, children, and adolescents. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2009 Apr;140(4):461-72.
4. 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.
5. Kennedy CR, McCann DC, Campbell MJ, Law CM, Mullee M, Petrou S, et al. Language ability after early detection of permanent childhood hearing impairment. *N Engl*

J Med. 2006 May 18;354(20):2131-41.

6. Controlled trial of universal neonatal screening for early identification of permanent childhood hearing impairment. Wessex Universal Neonatal Hearing Screening Trial Group. Lancet. 1998 Dec 19-26;352(9145):1957-64.

7. Holden-Pitt L, Albertorio J. Thirty years of the Annual Survey of Deaf and Hard-of-Hearing Children & Youth: a glance over the decades. Am Ann Deaf. 1998 Apr;143(2):72-6.

8. Carney AE, Moeller MP. Treatment efficacy: hearing loss in children. J Speech Lang Hear Res. 1998 Feb;41(1):S61-84.

9. Connolly JL, Carron JD, Roark SD. Universal newborn hearing screening: are we achieving the Joint Committee on Infant Hearing (JCIH) objectives? Laryngoscope. 2005 Feb;115(2):232-6.

10. Kerschner JE. Neonatal hearing screening: to do or not to do. Pediatrics Clinics of North America 2004; 51: 725–736.

11. Pittaluga E. Guia clinica: hipoacusia neurosensorial bilateral del prematuro. Gobierno de Chile,

Ministerio de Salud. 2009. Citado el 20 de diciembre de 2011: Disponible en:

http://www.supersalud.gob.cl/difusion/572/articles-6447_recurso_1.pdf.

12. Alvo A, Der C, Delano P. Tamizaje universal de hipoacusia en el recién nacido. Rev Hosp Clin Univ Chile. 2010;21:170-6.

13. Nelson HD, Bougatsos C, Nygren P. Universal newborn hearing screening: systematic review to update the 2001 US Preventive Services Task Force Recommendation. Pediatrics. 2008 Jul;122(1):e266-76.

14. Francis HW, Koch ME, Wyatt JR, Niparko JK. Trends in educational placement and cost-benefit considerations in children with cochlear implants. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 1999 May;125(5):499-505.

15. Cheng AK, Rubin HR, Powe NR, Mellon NK, Francis HW, Niparko JK. Cost-utility analysis of the cochlear implant in children. JAMA. 2000 Aug 16;284(7):850-6.

16. Gerner de Garcia B, Gaffney C, Chacon S, Gaffney M. Overview of newborn hearing screening activities

in Latin America. Rev Panam Salud Publica. 2011 Mar;29(3):145-52.

17. Morton CC, Nance WE. Newborn hearing screening--a silent revolution. N Engl J Med. 2006 May 18;354(20):2151-64.

18. Vohr B. Overview: Infants and children with hearing loss-part I. Ment Retard Dev Disabil Res Rev. 2003;9(2):62-4.

19. Encuesta de Caracterización Socio Económico Nacional (CASEN) 2009. Citada el 10 de enero de 2012: Disponible en: <http://www.ministeriodesarrollosocial.gob.cl/casen2009>.

20. Nazar G, Goycoolea M, Godoy J, Ried E, Sierra M. Evaluación auditiva neonatal universal: Revisión de 10.000 pacientes estudiados. Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello. 2009;69:93-102.

21. Asociación Argentina de Logopedia Foniatría y Audiología. Consenso Argentino de intervención temprana de la hipoacusia infantil. Buenos Aires: CEIDHI. Citado el 13 de diciembre del 2011: Disponible en: <http://www.ceidhi.org.ar/novedades.php>.

22. World Health Organization. Newborn and Infant Hearing screening. Current issues and guiding principles for action. Outcome of a WHO informal consultation held at WHO headquarters, Geneva, Switzerland, 09-10 November 2009. Citado el 25 de febrero de 2012: Disponible en: http://www.isa-audiology.org/pdf/Newborn_and_Infant_Hearing_Screening.pdf.

23. Early Identification of Hearing Impairment in Infants and Young Children. NIH Consens Statement 1993; 11(1):1-24.

24. Joint Committee on Infant Hearing (JCIH): Joint Committee on Infant Hearing Year 2000 Position Statement: Principles and guidelines for early hearing detection and intervention programmes. Pediatrics 2000, 106:798-817.

25. Recién Nacidos con menos de 32 semanas de edad gestacional. Sistema Nacional de Servicios de Salud de Chile. Quinquenio 2000-2004. Citado el 13 de diciembre del 2011: Disponible en: <http://www.prematuros.cl/webmarzo08/InformeRN.pdf>.

26. Primera Encuesta de Discapacidad, ENDISC, FONADIS 2004. Citado el 20 de febrero de 2012: Disponible en: http://www.ine.cl/canales/chile_estadistico/encuestas_discapacidad/pdf/apartadotematicodeficienciaauditivaytrastornosseverosdelacom.pdf.
27. Keren R, Helfand M, Homer C, McPhillips H, Lieu TA. Projected cost-effectiveness of statewide universal newborn hearing screening. *Pediatrics*. 2002 Nov;110(5):855-64.
28. Gorga MP, Neely ST. Cost-effectiveness and test-performance factors in relation to universal newborn hearing screening. *Ment Retard Dev Disabil Res Rev*. 2003;9(2):103-8.
29. Wrightson AS. Universal newborn hearing screening. *Am Fam Physician*. 2007 May 1;75(9):1349-52.
30. Erenberg A, Lemons J, Sia C, Trunkel D, Ziring P. Newborn and infant hearing loss: detection and intervention. *American Academy of Pediatrics. Task Force on Newborn and Infant Hearing, 1998- 1999. Pediatrics*. 1999 Feb;103(2):527-30.
31. Iñíguez R, Cevo T, Fernández F, Godoy C, Iñíguez R. Detección precoz de pérdida auditiva en niños con factores de riesgo. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello*. 2004;64:99-104.
32. Godoy C, Bustamante L. Evaluación de la fase de screening auditivo en menores con factores de riesgo. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello*. 2006;66:103-6.
33. Olusanya BO. Making targeted screening for infant hearing loss an effective option in less developed countries. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2011; 75: 316–321.
34. Patel H, Feldman M. Universal newborn hearing screening. *Paediatrics & Child Health*. 2011;16(5).
35. McManus MA, Levto R, White KR, Forsman I, Foust T, Thompson M. Medicaid Reimbursement of Hearing Services for Infants and Young Children. *Pediatrics* 2010; 126: S34.
36. Schroeder L, Petrou S, Kennedy C, McCann D, Law C, Watkin PM, et al. The economic costs of congenital bilateral permanent childhood hearing impairment. *Pediatrics*. 2006 Apr;117(4):1101-12.

37. Grill E, Hessel F, Siebert U, Schnell-Inderst P, Kunze S, Nickisch A, et al. Comparing the clinical effectiveness of different new-born hearing screening strategies. A decision analysis. BMC Public Health. 2005 Jan 31;5:12.

38. Bielecki I, Horbulewicz A, Wolan T. Risk factors associated with hearing loss in infants: an analysis of 5282 referred neonates. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2011 Jul;75(7):925-30.

VIII. DISCUSIÓN

Los objetivos de este estudio, apuntaban a desarrollar una revisión actualizada de la evidencia que apoyara la ampliación de un programa de pesquisa universal e intervención precoz de hipoacusia sensorineural bilateral congénita en Chile, partiendo de la realidad local actual, desde un programa selectivo, hacia uno de carácter universal. De igual manera se buscó concientizar a la opinión pública relevante en la gestión de políticas públicas, primero sobre la existencia de este problema, para a continuación contribuir con información relevante que fuera dirigida a la búsqueda y posterior confección de estudios y evidencias locales que apoyaran la causa.

De esta forma, la presente tesis presentó como resultado principal la información sistematizada en formato de artículo científico publicado en la Revista Médica de Chile (63). En dicho artículo se plantea de manera fundamental que en Chile se dispone de un programa selectivo de detección para recién nacidos de menos de 32 semanas y/o 1500 gramos, como parte de las Garantías Explícitas en Salud; sin embargo, este programa cubre solamente al 0,9% de los recién nacidos por año, por lo que una gran mayoría de niños afectados de esta condición quedan sin diagnóstico. El objetivo de esta revisión consistió en comparar la situación de Chile respecto a otros países, plantear la necesidad de avanzar hacia un programa de tamizaje universal de hipoacusia neonatal, y por último proponer condiciones necesarias en términos de justificación e implementación de una política pública de tamizaje universal.

De esta forma pudimos confirmar que el manejo de la hipoacusia congénita del recién nacido es un tema actual y vigente con el cual la salud pública chilena permanece en deuda. Se han planteado múltiples barreras para que este problema persista dentro de los cuales encontramos falta de conciencia del problema por parte del personal sanitario, falta de recursos y asignación de los mismos para la resolución del problema, falta de asignación de personal

especializado dirigido para el desarrollo y mantención de un programa de pesquisa y tratamiento precoz, falta de evidencia y estudios locales, entre otros.

Con el desarrollo de la presente tesis se pretendió aportar con la evidencia disponible y apoyar a los tomadores de decisiones utilizando el formato de un artículo científico. De esta forma el fin último consistió en aportar datos en la búsqueda de ampliar la cobertura hacia la universalidad del actual programa de pesquisa de hipoacusia chileno que funciona en el marco del GES, que persiste siendo un programa por definición selectivo y focalizado en el programa del prematuro, y por lo tanto insuficiente y obsoleto en su propósito de resolver el problema a nivel poblacional.

Es así que utilizando este enfoque de revisión y sistematización de la evidencia que sustenta la necesidad de abordar el problema, se lograron diversos aportes encaminados al objetivo de resolverlo. Primero que nada, y tal como mencionábamos previamente se logró avanzar bastante en la concientización del problema de salud en particular de forma global, y se lograron resultados inesperados muy positivos y firmemente encaminados hacia la ampliación del programa de pesquisa de hipoacusia neonatal hacia la universalidad.

Es así como de forma paralela a la realización de la presente tesis, el tesista pudo participar activamente desde diferentes momentos, sosteniendo diversas conversaciones y reuniones de trabajo con diferentes actores relevantes en el tema. De esta forma mientras se realizó la tesis, autoridades de la Sociedad Chilena de Otorrinolaringología, expertos neonatólogos dedicados al manejo de la hipoacusia del recién nacido y otros profesionales dedicados al tema, sostuvieron reuniones con autoridades del Ministerio de Salud, que luego de mucho perseverar se gestó la realización de un estudio financiado por el mismo y comandado por profesionales del Departamento de Economía de la Salud (DESAL), que buscara evidencias a nivel local que apoyaran la ya idea transversal de que el programa de pesquisa de hipoacusia se debe universalizar.

De esta forma se realizó este estudio de costo efectividad a modo de búsqueda de evidencia local que apoyara o no la toma de decisión de implementar o no un programa de pesquisa universal e intervención precoz en hipoacusia neonatal. El estudio fue financiado por el Ministerio de Salud y ejecutado por el DESAL (25), y consistió en un estudio de costo-utilidad que permitiera evaluar la costo-efectividad de pasar de la situación actual de un screening selectivo de hipoacusia, a un programa de screening universal de la misma, todo desde la perspectiva del sector público del sistema de salud. La información epidemiológica del estudio se obtuvo de fuentes oficiales del Ministerio de Salud, de la literatura disponible y de encuestas solicitadas a expertos de esta condición, dentro los cuales el autor de esta tesis fue convocado y consultado, pudiendo de esta forma participar y alimentar la realización de dicho estudio. Los resultados del mismo fueron claros y robustos en considerar que la ampliación del programa de pesquisa de hipoacusia serían costo efectivos e incluso costo ahorrativos bajo determinadas situaciones y supuestos considerados.

Por otro lado, e igualmente de forma paralela al desarrollo de la tesis, se trabajó en la publicación de un artículo que buscara mostrar el problema a la comunidad y concientizar a las autoridades sanitarias, poniendo el problema particular en discusión. Es así que se buscó publicar este artículo en una revista de impacto a nivel nacional, y que su público mayoritario fuera especialmente personal de salud no especialista en el manejo de la condición en cuestión. De esta forma que se desarrolló un artículo junto con colaboradores especialistas en la materia procedentes del Hospital Barros Luco Trudeau, el cual fue publicado en la Revista Médica de Chile (63), revista de mayor impacto a nivel nacional, que buscara mostrar que el problema de la hipoacusia neonatal es un problema de gran relevancia y una tarea pendiente de la salud pública chilena desde la perspectiva de Políticas Públicas en Salud. Así se buscó conseguir que un problema desconocido y considerado de baja prioridad por la mayoría, esté siendo discutido de manera formal y concreta por los tomadores de decisión, y de esta

forma esté dando que hablar en la comisión de Hacienda del Senado de la República.

Luego de haber obtenido estos excelentes resultados a modo global ahora se abren nuevos horizontes hacia la resolución del problema. El siguiente paso lógico será crear un programa piloto nacional y evaluar la factibilidad técnica y de recursos a asignar en la ampliación del programa de pesquisa de hipoacusia.

De manera conjunta se deberá realizar una evaluación de las tecnologías sanitarias que se pretenden ampliar y aplicar. Las evaluaciones de tecnologías sanitarias (ETESA) son especialmente relevantes en el análisis de la implementación de un programa de pesquisa universal de hipoacusia en el recién nacido en particular (64). Esto dado que ellas permiten el análisis de políticas públicas estudiando las consecuencias clínicas, sociales, económicas y éticas del desarrollo, utilización y difusión de nuevas tecnologías, sirviendo estas evaluaciones de apoyo fundamental a la toma de decisiones respecto de su conveniencia o no de utilizarlas (65).

Es así que en los últimos años las ETESA han adquirido gran relevancia dada la incorporación creciente de nuevas estrategias diagnóstico-terapéuticas. De esta forma si queremos promover la incorporación de forma responsable de las tecnologías necesarias para la pesquisa y tratamiento de la hipoacusia, se debe realizar una apropiada evaluación de los beneficios adicionales que estas nuevas tecnologías nos ofrecen en relación a los costos que el sistema de salud deberá incurrir en su adquisición.

Es de esta forma como los objetivos planteados por el autor se lograron cumplir, y se consiguió con creces el objetivo de concientizar a la comunidad científica y ministerial en el problema de esta condición, la cual se tradujo en el financiamiento y ejecución del estudio de costo efectividad mencionado. Esto nos reafirma que afortunadamente esta condición tiene solución, y contamos con los profesionales preparados y capacitados para enfrentarlo y ahora contamos con las

voluntades de las autoridades para priorizarlo y en consecuencia resolverlo activamente.

De igual forma y para finalizar se debe mencionar que pese a que se consiguieron importantes avances, este estudio no está exento de debilidades y sesgos. Se debe considerar que la información utilizada se basó en literatura mayoritariamente publicada en medios oficiales, por lo que no se puede descartar que exista un sesgo de publicación con aquellos estudios y reportes que no hayan sido publicados al no haber mostrado efectos positivos del tamizaje e intervención precoz de la hipoacusia congénita. En la misma línea, se trabajó con expertos dedicados al manejo de la hipoacusia neonatal, los cuales de por sí mismos están fuertemente interesados en la implementación y desarrollo de una política pública tendiente a la ampliación del programa, tal como se realiza en países desarrollados.

Asimismo se debe mencionar que el presente estudio no presentó las características propias de una revisión sistemática, razón por la cual no presenta el mismo grado de evidencia y robustez que estas últimas pueden llegar a adquirir.

IX. CONCLUSIONES

Con la evidencia disponible que genera esta tesis referente a la problemática actual de la pesquisa e intervención precoz de hipoacusia congénita, adicionado al estudio de costo efectividad que desarrolló el Ministerio de Salud para la realidad chilena del mismo problema, nos parece que existen suficientes antecedentes y elementos para tomar una decisión que apunte hacia una implementación de una política pública que amplíe el actual programa ministerial de hipoacusia del recién nacido.

De esta forma, se concluye que pese a los grandes avances aún quedan tareas pendientes por resolver. Ahora queda pendiente que se utilicen activamente las evidencias aportadas por los diferentes actores para que se resuelvan problemas que beneficiarán a muchos chilenos y chilenas que actualmente nacen condenados a desarrollarse y vivir en el silencio y subdesarrollo.

En Chile estamos en una posición privilegiada del punto de vista sanitario, económico y político, y actualmente contamos con las herramientas y evidencias locales que permitan implementar una política pública que generará bien estar para muchos, pero ganancias y de esta forma desarrollo y plenitud para todos.

X. REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Yoshinaga-Itano C, Sedey AL, Coulter DK, Mehl AL. Language of early- and later-identified children with hearing loss. *Pediatrics*. 1998;102(5):1161-71.
2. Vohr B. Overview: Infants and children with hearing loss-part I. *Ment Retard Dev Disabil Res Rev*. 2003;9(2):62-4.
3. Keren R, Helfand M, Homer C, McPhillips H, Lieu TA. Projected cost-effectiveness of statewide universal newborn hearing screening. *Pediatrics*. 2002;110(5):855-64.
4. Gerner de Garcia B, Gaffney C, Chacon S, Gaffney M. Overview of newborn hearing screening activities in Latin America. *Rev Panam Salud Publica*. 2011;29(3):145-52.
5. Morton CC, Nance WE. Newborn hearing screening--a silent revolution. *N Engl J Med*. 2006;354(20):2151-64.
6. Parving A. Congenital hearing disability--epidemiology and identification: a comparison between two health authority districts. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 1993;27(1):29-46.
7. Nazar G, Goycoolea M, Godoy J, Ried E, Sierra M. Evaluación auditiva neonatal universal: Revisión de 10.000 pacientes estudiados. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello*. 2009;69:93-102.
8. Mehra S, Eavey RD, Keamy DG, Jr. The epidemiology of hearing impairment in the United States: newborns, children, and adolescents. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2009;140(4):461-72.
9. Grill E, Hessel F, Siebert U, Schnell-Inderst P, Kunze S, Nickisch A, et al. Comparing the clinical effectiveness of different new-born hearing screening strategies. A decision analysis. *BMC Public Health*. 2005;5:12.
10. Joint Committee on Infant Hearing. Year 2007 position statement: Principles and guidelines for early hearing detection and intervention programs. *Pediatrics*. 2007;120(4):898-921.
11. Holden-Pitt L, Albertorio J. Thirty years of the Annual Survey of Deaf and Hard-of-Hearing Children & Youth: a glance over the decades. *Am Ann Deaf*. 1998;143(2):72-6.
12. Carney AE, Moeller MP. Treatment efficacy: hearing loss in children. *J Speech Lang Hear Res*. 1998;41(1):S61-84.
13. Kennedy CR, McCann DC, Campbell MJ, Law CM, Mullee M, Petrou S, et al. Language ability after early detection of permanent childhood hearing impairment. *N Engl J Med*. 2006;354(20):2131-41.
14. Davis A, Bamford J, Wilson I, Ramkalawan T, Forshaw M, Wright S. A critical review of the role of neonatal hearing screening in the detection of congenital hearing impairment. *Health Technol Assess*. 1997;1(10):i-iv, 1-176.
15. Controlled trial of universal neonatal screening for early identification of permanent childhood hearing impairment. Wessex Universal Neonatal Hearing Screening Trial Group. *Lancet*. 1998;352(9145):1957-64.

16. Kennedy C, McCann D, Campbell MJ, Kimm L, Thornton R. Universal newborn screening for permanent childhood hearing impairment: an 8-year follow-up of a controlled trial. *Lancet*. 2005;366(9486):660-2.
17. Pittaluga E. Guía clínica: hipoacusia neurosensorial bilateral del prematuro. Gobierno de Chile, Ministerio de Salud. 2009 [Citado el 10 de agosto de 2011]. Disponible en: http://www.supersalud.gob.cl/difusion/572/articles-6447_recurso_1.pdf.
18. Gorga MP, Neely ST. Cost-effectiveness and test-performance factors in relation to universal newborn hearing screening. *Ment Retard Dev Disabil Res Rev*. 2003;9(2):103-8.
19. Wrightson AS. Universal newborn hearing screening. *Am Fam Physician*. 2007;75(9):1349-52.
20. Erenberg A, Lemons J, Sia C, Trunkel D, Ziring P. Newborn and infant hearing loss: detection and intervention. American Academy of Pediatrics. Task Force on Newborn and Infant Hearing, 1998- 1999. *Pediatrics*. 1999;103(2):527-30.
21. Iñíguez R, Cevo T, Fernández F, Godoy C, Iñíguez R. Detección precoz de pérdida auditiva en niños con factores de riesgo. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello*. 2004;64:99-104.
22. Jimenez J, Bastias G. El ámbito de la evaluación económica de intervenciones de salud. *Rev Med Chile*. 2010;138(Supl 2):71-5.
23. Lenz-Alcayaga R. Análisis de costos en evaluaciones económicas en salud: Aspectos introductorios. *Rev Med Chile*. 2010;138(Supl 2):88-92.
24. Uus K, Bamford J, Taylor R. An analysis of the costs of implementing the National Newborn Hearing Screening Programme in England. *J Med Screen*. 2006;13(1):14-9.
25. Costo-Efectividad del Screening y Tratamiento de Hipoacusia Bilateral en Recien Nacidos, Departamento de Economía de la Salud, División de Planificación Sanitaria, Subsecretaría de Salud Pública, Ministerio de Salud 2013. [Citado el 10 de enero de 2014]. Disponible en: http://desal.minsal.cl/wp-content/uploads/2013/09/Screening_hipocausia.pdf.
26. Thompson DC, McPhillips H, Davis RL, Lieu TL, Homer CJ, Helfand M. Universal newborn hearing screening: summary of evidence. *JAMA*. 2001;286(16):2000-10.
27. Becker W, Naumann HH, Pfaltz CR, Behrbohm H. Ear, nose, and throat diseases : with head and neck surgery. 3rd ed. Stuttgart ; New York: Thieme; 2009. x, 461 p. p.
28. Lee KJ. Essential otolaryngology : head & neck surgery. 7th ed. Stamford, Conn.: Appleton & Lange; 1999. xv, 1232 p. p.
29. Sadler TW, Langman J. Langman's medical embryology. 11th ed. Philadelphia: Lippincott William & Wilkins; 2010. ix, 385 p. p.
30. Manrique M, Cervera-Paz FJ, Huarte A, Perez N, Molina M, Garcia-Tapia R. Cerebral auditory plasticity and cochlear implants. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 1999;49 Suppl 1:S193-7.
31. Hernandez Muela S, Mulas F, Mattos L. Plasticidad neuronal funcional. *Rev Neurol*. 2004;38 Suppl 1:S58-68.

32. Moeller MP. Early intervention and language development in children who are deaf and hard of hearing. *Pediatrics*. 2000;106(3):E43.
33. Joint Committee on Infant Hearing, American Academy of Audiology, American Academy of Pediatrics, American Speech-Language-Hearing Association, and Directors of Speech and Hearing Programs in State Health and Welfare Agencies. Year 2000 position statement: principles and guidelines for early hearing detection and intervention programs. . *Pediatrics*. 2000;106(4):798-817.
34. Harlor AD, Jr., Bower C. Hearing assessment in infants and children: recommendations beyond neonatal screening. *Pediatrics*. 2009;124(4):1252-63.
35. Alvo A, Der C, Delano P. Tamizaje universal de hipoacusia en el recién nacido. *Rev Hosp Clin Univ Chile*. 2010;21:170-6.
36. Kochhar A, Hildebrand MS, Smith RJ. Clinical aspects of hereditary hearing loss. *Genet Med*. 2007;9(7):393-408.
37. Nance WE. The genetics of deafness. *Ment Retard Dev Disabil Res Rev*. 2003;9(2):109-19.
38. Comisión para la Detección de la Hipoacusia Infantil (CODEPEH). Propuesta para la detección e intervención precoz de la hipoacusia infantil. *An Esp Pediatr*. 1999;51(4):336-44.
39. Gonzalez de Dios J, Mollar Maseres J. Cribado universal de hipoacusia neonatal: evaluación de la prueba frente a evaluación del programa. *Acta Otorrinolaringol Esp*. 2005;56(7):331-4.
40. US Preventive Services Task Force. Universal screening for hearing loss in newborns: US Preventive Services Task Force recommendation statement. *Pediatrics*. 2008;122(1):143-8.
41. Moro M, Almenar A. Detección e intervención precoz de la hipoacusia en la infancia. ¿Es el momento del cambio? *An Esp Pediatr*. 1999;51(4):329-32.
42. Encuesta de Caracterización Socio Económico Nacional (CASEN) 2009. [Citado el 15 de noviembre de 2011]. Disponible en: <http://www.ministeriodesarrollosocial.gob.cl/casen2009/>.
43. Becerra C. Hipotiroidismo congénito y fenilcetonuria en el niño. *Rev Chil Pediatr*. 2008;79(Supl 1):96-102.
44. Lobo G, Ladrón de Guevara D, Arnello F, Pérez A, Vivanco X, Bruggendieck B, et al. Cintigrafía tiroidea con Tc99m- pertechnetato en recién nacidos con hipotiroidismo congénito. *Rev méd Chile*. 2003;131(3):283-9.
45. Yoshinaga-Itano C, Apuzzo ML. The development of deaf and hard of hearing children identified early through the high-risk registry. *Am Ann Deaf*. 1998;143(5):416-24.
46. Godoy J, Sierra M, Martínez J. El programa de screening auditivo en recién nacidos de Clínica Las Condes. *Rev Med Clin Condes*. 2003;14(1):34-7.
47. Wilson J, Jungner G. Principles and Practice of Screening for Disease. *Public Health Papers*, no. 34. Geneva, Switzerland: World Health Organization; 1968.
48. Acharya K, Ackerman PD, Ross LF. Pediatricians' attitudes toward expanding newborn screening. *Pediatrics*. 2005;116(4):e476-84.

49. Norton SJ, Gorga MP, Widen JE, Folsom RC, Sininger Y, Cone-Wesson B, et al. Identification of neonatal hearing impairment: evaluation of transient evoked otoacoustic emission, distortion product otoacoustic emission, and auditory brain stem response test performance. *Ear Hear.* 2000;21(5):508-28.
50. Trinidad-Ramos G, de Aguilar VA, Jaudenes-Casaubon C, Nunez-Batalla F, Sequi-Canet JM. Recomendaciones de la Comisión para la detección precoz de la hipoacusia (CODEPEH) para 2010. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2010;61(1):69-77.
51. Norton SJ, Gorga MP, Widen JE, Folsom RC, Sininger Y, Cone-Wesson B, et al. Identification of neonatal hearing impairment: summary and recommendations. *Ear Hear.* 2000;21(5):529-35.
52. Lonsbury-Martin BL, Martin GK. Otoacoustic emissions. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* 2003;11(5):361-6.
53. Wilkinson AR, Jiang ZD. Brainstem auditory evoked response in neonatal neurology. *Semin Fetal Neonatal Med.* 2006;11(6):444-51.
54. Hyde ML, Malizia K, Riko K, Alberti PW. Audiometric estimation error with the ABR in high risk infants. *Acta Otolaryngol.* 1991;111(2):212-9.
55. Alvis N, Valenzuela M. Los QALYs y DALYs como indicadores sintéticos de salud. *Rev Med Chile.* 2010;138(Supl 2):83-7.
56. Drummond M, O'Brien B, Stoddart G, Torrance G. Métodos para la Evaluación Económica de los Programas de Asistencia Sanitaria. Segunda Edición, Ediciones Díaz Santos S.A. Madrid. 1997.
57. Pinto JL. Métodos de evaluación económica en salud. En: Martínez FM, Antó JM, Castellanos PL, Gili M, Maset P, Navarro V, ed. *Salud pública.* Madrid: McGraw-Hill, 1998.
58. Cerda J. Glosario de términos utilizados en evaluación económica de la salud. *Rev Med Chile* 2010; 138 (supl 2): 76-78.
59. Duque M, Gómez L, Osorio J. Análisis de los sistemas de costos utilizados en las entidades del sector salud en Colombia y su utilidad para la toma de decisiones. *RIIC.* 2009(5):495-525.
60. Cañete O. Neuropatía auditiva, diagnóstico y manejo audiológico. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello.* 2009;69:271-80.
61. World Health Organization. Newborn and Infant Hearing screening. Current issues and guiding principles for action. Outcome of a WHO informal consultation held at WHO headquarters, Geneva, Switzerland, 09-10 November 2009. [Citado el 10 de febrero de 2012]. Disponible en: http://www.isa-audiology.org/pdf/Newborn_and_Infant_Hearing_Screening.pdf.
62. Ley que regula los Derechos y Deberes que tienen las personas en relación con acciones vinculadas a su atención de en salud, Ministerio de Salud, Subsecretaría de Salud

Pública. Biblioteca del Congreso Nacional, Ley 20.584. [Citado el 15 de noviembre de 2013]. Disponible en: <http://www.leychile.cl/N?i=1039348&f=2012-10-01&p=>.

63. Albertz N, Cardemil F, Rahal M, Mansilla F, Cárdenas R, Zítko P. Programa de tamizaje universal e intervención precoz (PTUIP) en hipoacusia sensorineural bilateral congénita. Tarea pendiente desde la perspectiva de políticas públicas de salud en Chile. *Rev Med Chile* 2013;141(8):1057-63.

64. Armstrong M, Maresh A, Buxton C, Craun P, Wowroski L, Reilly B, et al. Barriers to early pediatric cochlear implantation. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2013.

65. Boletín semestral de Economía y Salud, Ministerio de Salud, Departamento de Economía de la Salud, 2013; 7(1). [Citado el 18 de mayo de 2013]. Disponible en: <http://desal.minsal.cl/DOCUMENTOS/PDF/Boletines/boletin%20desal%207%201%202013.pdf>