



UNIVERSIDAD
NACIONAL
DE COLOMBIA

Costo efectividad del tamizaje auditivo neonatal con otoemisiones acústicas y/o potenciales evocados auditivos automatizados comparados con potenciales evocados auditivos de tallo cerebral, para la detección de hipoacusia congénita bilateral e inicio temprano del tratamiento en recién nacidos sanos, a término sin factores de riesgo

Yudy Andrea Medina Torres

Universidad Nacional de Colombia
Facultad de Medicina, Instituto de Investigaciones Clínicas
Bogotá, Colombia

2017

Costo efectividad del tamizaje auditivo neonatal con otoemisiones acústicas y/o potenciales evocados auditivos automatizados comparados con potenciales evocados auditivos de tallo cerebral, para la detección de hipoacusia congénita bilateral e inicio temprano del tratamiento en recién nacidos sanos, a término sin factores de riesgo

Yudy Andrea Medina Torres

Tesis o trabajo de investigación presentada(o) como requisito parcial para optar al título
de:

Magister en Epidemiología Clínica

Director:

QF. Ms. Jorge Augusto Díaz Rojas

Codirector:

MD. Ms. Oscar Andrés Gamboa Garay

Universidad Nacional de Colombia

Facultad de Medicina, Instituto de Investigaciones Clínicas

Bogotá, Colombia

2017

Dedico este trabajo a mi familia, mi novio y a todas las personas que han estado a mi lado durante este proceso brindándome apoyo incondicional, paciencia, amor y constante motivación.

Agradecimientos

Agradezco a Dios inicialmente por brindarme la oportunidad de continuar con mi formación académica en la Universidad Nacional de Colombia, junto con excelentes docentes y compañeros.

Agradezco a mis tutores, Jorge Augusto Díaz, Oscar Andrés Gamboa Garay y al ingeniero Alexander Moreno por sus enseñanzas durante la ejecución de la investigación.

Agradezco a las Dras. Liliana Akli, Ghina González, Lizeth Páez, Andrea Caro y al Dr. Gilberto Marrugo por el apoyo brindado para la identificación de los eventos generadores de costos usados en el trabajo.

Agradezco al Instituto para la Evaluación de la Calidad y Atención en Salud (IECAS) por brindarme su apoyo durante esta investigación y permitirme continuar con mi formación personal, académica y profesional.

Resumen

Objetivo: Evaluar la costo efectividad de la tamización auditiva neonatal con otoemisiones acústicas (OEA), potenciales evocados auditivos automatizados (PEAA) y OEA+PEAA, para la detección y tratamiento temprano de hipoacusia congénita bilateral moderada, severa o profunda en recién nacidos sin factores de riesgo, desde la perspectiva del Sistema de Salud colombiano.

Metodología: Análisis de costo efectividad mediante un modelo de árbol de decisión. Las características operativas de las pruebas y la efectividad del inicio temprano del tratamiento, se obtuvieron mediante búsquedas sistemáticas de la literatura. Los costos se derivaron de manuales tarifarios y consulta a expertos. La medida de desenlace fueron AVAD evitados. El horizonte temporal fue la expectativa de vida en Colombia. La tasa de descuento para los costos y beneficios fue del 5%. Se realizaron análisis de sensibilidad determinísticos y probabilísticos.

Resultados: La tamización auditiva neonatal universal evita un mayor número de AVADs en la población en comparación con la ausencia de un programa de tamización. El costo por AVAD evitado/persona con cada prueba comparada con la no-tamización fue de COP\$28.475.516 con PEAA y COP \$34.077.391 con OEA+PEAA. Comparando las dos estrategias dominantes (PEAA versus OEA+PEAA), los PEAA fueron costo efectivos para un umbral de disposición a pagar de 3 PIB per cápita.

Conclusión: PEAA es una estrategia costo efectiva para la tamización auditiva neonatal universal en Colombia. Sin embargo, con una disponibilidad a pagar \geq COP30.000.000, la probabilidad que la estrategia OEA+PEAA sea costo efectiva comparada con PEAA, es del 50-80%.

Palabras clave: Tamización auditiva neonatal, Costo efectividad, potenciales evocados auditivos automatizados, otoemisiones acústicas

Abstract

Objective: To evaluate the cost effectiveness of neonatal hearing screening with otoacoustic emissions (OAEs), automated auditory brainstem response (AABR) and OAEs + AABR, for the early detection and treatment of moderate, severe or profound bilateral congenital hearing loss in newborns with no risk factors, from the perspective of the Colombian Health System.

Methodology: Cost effectiveness analysis using a decision tree model. The operational characteristics of tests and effectiveness of early treatment were obtained through systematic searches of the literature. The costs were derived from tariff manuals and expert consultation. Outcome included was DALYs averted. An expectation of lifetime horizon was used and costs and benefits were discounted at 5%. Deterministic and probabilistic sensitivity analysis were performed.

Results: Universal neonatal hearing screening prevents a greater number of DALYs in the population compared to the absence of a screening program. The cost per DALY avoided / person with each test compared with non-screening was COP \$\$ 28,475,516 with AABR and COP \$ 34,077,391 with OEA + PEAA. Comparing the two dominant strategies (PEAA versus OAS + PEAA), the PEAA were cost effective for a willingness to pay threshold of 3 per capita GDP.

Conclusion: PEAA is a cost-effective strategy for universal neonatal hearing screening in Colombia. However, with a willingness to pay \geq COP30,000,000, the probability that the OAS + PEAA strategy is cost effective compared to PEAA, is 50-80%.

Keywords: Neonatal hearing screening, Cost-Benefit Analysis, otoacoustic emissions, automated auditory brainstem response

Contenido

	Pág.
Resumen	VII
Lista de figuras	XIII
Lista de tablas	XIV
Lista de Símbolos y abreviaturas	XVI
Introducción	1
Justificación	5
1. Objetivos	8
1.1 Objetivo general.....	8
1.2 Objetivos específicos	8
2. Marco Teórico	9
2.1 Anatomía y fisiología de la audición.....	9
2.2 Definición de hipoacusia	12
2.3 Factores de riesgo	13
2.4 Fisiopatología	16
2.5 Sintomatología en recién nacidos y niños con pérdida auditiva	16
2.6 Diagnóstico.....	17
2.6.1 Potenciales evocados auditivos de tallo cerebral	18
2.6.2 Otoemisiones acústicas	19
2.6.3 Potenciales evocados auditivos automatizados.....	21
2.7 Tamización auditiva neonatal.....	23
2.8 Tratamiento	25
2.8.1 Intervenciones tecnológicas	25
2.8.2 Opciones de comunicación	26
2.9 Pronóstico.....	27
2.10 Normatividad vigente respecto al tamizaje auditivo neonatal y recomendaciones de guías de práctica clínica nacionales	30
2.11 Evaluaciones económicas en salud	37
2.11.1 Tipo de evaluaciones económicas en salud	37
2.11.2 Metodología para la realización de estudios de evaluación económica.....	39
3. Metodología	45
3.1 Tipo de estudio	45

3.2	Revisión sistemática de características operativas y seguridad de las estrategias de tamización para la detección de hipoacusia congénita bilateral	45
3.2.1	Criterios de elegibilidad de la evidencia	46
3.2.2	Búsqueda de la evidencia	47
3.2.3	Tamización de referencias y selección de estudios	48
3.2.4	Actualización de la búsqueda de estudios primarios	48
3.2.5	Evaluación de la calidad de la evidencia	49
3.2.6	Extracción de datos y síntesis de la evidencia	49
3.2.7	Análisis estadístico	49
3.3	Revisión sistemática de efectividad y seguridad del inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita bilateral.....	50
3.3.1	Criterios de elegibilidad de la evidencia	51
3.3.2	Búsqueda de la evidencia	51
3.3.3	Tamización de referencias y selección de estudios	52
3.3.4	Evaluación de la calidad de la evidencia	52
3.3.5	Actualización de la búsqueda de estudios primarios	52
3.3.6	Actualización de la búsqueda de estudios primarios	53
3.3.7	Análisis estadístico	53
3.4	Evaluación económica.....	53
3.4.1	Análisis de costo efectividad	53
3.4.2	Estimación de costos	55
3.4.3	Modelo de historia natural de la hipoacusia congénita	55
3.4.4	Estimación de años de vida ajustados por discapacidad (AVAD).....	56
4.	Resultados	59
4.1	Revisión sistemática de las características operativas y seguridad de las estrategias de tamización para la detección de hipoacusia congénita bilateral	59
4.1.1	Búsqueda de evidencia.....	59
4.1.2	Tamización de referencias y selección de estudios	59
4.1.3	Calidad de la evidencia	60
4.1.4	Síntesis de la evidencia	60
4.1.5	Descripción de los estudios	60
4.1.6	Características operativas y seguridad	60
4.2	Revisión sistemática de efectividad y seguridad del tratamiento temprano para la hipoacusia congénita.....	61
4.2.1	Búsqueda de evidencia de revisiones sistemáticas	61
4.2.2	Tamización de referencias y selección de estudios de revisiones sistemáticas	62
4.2.3	Calidad de la evidencia de las revisiones sistemáticas	62
4.2.4	Búsqueda de evidencia de ensayos controlados con asignación aleatoria	63
4.2.5	Tamización de referencias y selección de ensayos controlados con asignación aleatoria	63
4.2.6	Búsqueda de evidencia de cohortes analíticas	64
4.2.7	Tamización de referencias y selección de estudios de cohortes analíticas	64
4.2.8	Calidad de los estudios de cohortes analíticas.....	64
4.2.9	Síntesis de la evidencia	64
4.2.10	Descripción de los estudios	64
4.3	Estudio de costo efectividad	65
4.3.1	Diseño protocolo de tamización auditiva neonatal	65

4.3.2	Estimación de costos	68
4.3.3	Modelo de historia natural de la hipoacusia congénita	76
4.3.4	Modelo de decisión diseñado para el estudio.....	80
4.3.5	Supuestos considerados para el modelo.....	81
4.4	Análisis de costo efectividad.....	86
4.4.1	Análisis de costo efectividad en la población de recién nacidos sin factores de riesgo.....	87
4.4.2	Análisis de costo efectividad en la población total, incluyendo recién nacidos con factores de riesgo.....	90
4.5	Análisis de incertidumbre.....	93
4.5.1	Análisis de sensibilidad determinísticos.....	93
4.5.2	Análisis de sensibilidad probabilístico	95
5.	Discusión.....	99
6.	Conclusiones.....	104
A.	Anexo: Registros sanitarios vigentes para las tecnologías de interés	107
B.	Anexo: Reportes de búsqueda de evidencia en bases de datos electrónicas para revisión de características operativas	111
C.	Anexo: Reportes de búsqueda de evidencia para actualización de evidencia de características operativas.....	117
D.	Anexo: Reportes de búsqueda de revisiones sistemáticas en bases de datos electrónicas para la revisión efectividad de inicio temprano del tratamiento	120
E.	Anexo: Reportes de búsqueda de evidencia para actualización de evidencia de efectividad de inicio temprano de tratamiento.....	125
F.	Anexo: Reportes de búsqueda de ensayos controlados con asignación aleatoria en bases de datos electrónicas para la revisión efectividad de inicio temprano.....	130
G.	Anexo: Reportes de búsqueda de cohortes analíticas en bases de datos electrónicas para la revisión efectividad de inicio temprano del tratamiento	136
H.	Anexo: Diagrama de flujo de la búsqueda, tamización y selección de evidencia de revisión de características operativas (búsqueda de novo)	140
I.	Anexo: Diagrama de flujo de la actualización de evidencia de revisión de pruebas diagnósticas.....	141
J.	Anexo: Diagrama de flujo de la búsqueda, tamización y selección de revisiones sistemáticas de efectividad del inicio temprano del tratamiento (búsqueda de novo).....	142
K.	Anexo: Diagrama de flujo de la búsqueda, tamización y selección de ensayos controlados con asignación aleatoria sobre la efectividad de inicio temprano del tratamiento (búsqueda de novo)	143
L.	Anexo: Diagrama de flujo de la búsqueda, tamización y selección de cohortes analíticas (búsqueda de novo)	144

M. Anexo: Listado de estudios incluidos en la evaluación.....	145
N. Anexo: Listado de estudios excluidos y razones para su exclusión	146
O. Anexo: Calidad de las revisiones sistemáticas incluidas en la evaluación de pruebas diagnósticas (herramienta AMSTAR).....	151
P. Anexo: Calidad de las revisiones sistemáticas revisadas durante la evaluación de efectividad y seguridad de inicio temprano del tratamiento (herramienta AMSTAR)	153
Q. Anexo: Calidad de los estudios de cohortes analíticas incluidos en la evaluación de efectividad de inicio temprano del tratamiento (Riesgo de sesgo de la Colaboración Cochrane).....	160
R. Anexo: Características de la revisión sistemática incluida en la síntesis de evidencia de características operativas	162
S. Anexo: Características de los estudios incluidos en la síntesis de evidencia de efectividad y seguridad de inicio temprano del tratamiento.....	164
T. Anexo: Perfil de evidencia GRADE de las otoemisiones acústicas	167
U. Anexo: Perfil de evidencia GRADE de potenciales evocados auditivos automatizados. 170	
V. Anexo: Perfil de evidencia GRADE de efectividad del inicio temprano del tratamiento en hipoacusias congénita	173
W. Anexo: Reportes de búsqueda de evidencia de literatura económica.....	176
X. Anexo: Diagrama de flujo de búsqueda de literatura económica.....	179
Y. Anexo: Listado de estudios incluidos en la revisión de literatura económica para el diseño del modelo de historia natural.....	180
Z. Anexo: Listado de estudios excluidos en la revisión de literatura económica para el diseño del modelo de historia natural.....	182
AA. Anexo: Evaluación de calidad de evaluaciones económicas con la herramienta QUES. 185	
BB. Anexo: Modelo de decisión para el análisis de costo efectividad del tamizaje auditivo neonatal en el contexto colombiano.	188
Bibliografía	193

Lista de figuras

	Pág.
Figura 4-1: Flujograma de atención para el programa de tamización auditiva neonatal. .	67
Figura 4-2: Plano de costo efectividad de las estrategias en evaluación para el caso base, en la población sin factores de riesgo.....	87
Figura 4-3: Plano de costo efectividad de las estrategias de tamización para la población total de recién nacidos en Colombia.....	89
Figura 4-4: Plano de costo efectividad de las estrategias en evaluación para el caso base, en la población con y sin factores de riesgo.	90
Figura 4-5: Análisis de tornado para el análisis de costo efectividad incremental entre la estrategia OEA+PEAA versus PEAA.....	94
Figura 4-6: Análisis de sensibilidad univariado (valores predictivos positivos).....	95
Figura 4-7: Análisis de sensibilidad probabilístico para la comparación de OEA+PEAA versus PEAA.	96
Figura 4-8: Curva de aceptabilidad entre las estrategias OEA + PEAA versus PEAA. ...	96
Figura 4-9: Curva de aceptabilidad, incluyendo todas las estrategias de tamización disponibles.	97

Lista de tablas

	Pág.
Tabla 2-1: Clasificación del grado de severidad de las pérdidas auditivas.	13
Tabla 2-2: Factores de riesgo asociados a hipoacusia congénita.	15
Tabla 2-3: Impacto de la pérdida auditiva en niños según el acuerdo al grado de severidad.	28
Tabla 2-4: Legislación y recomendaciones adaptadas al contexto colombiano para el desarrollo de programas de tamización auditiva neonatal.	33
Tabla 3-1: Estructura PICOT de la revisión sistemática de características operativas.	46
Tabla 3-2: Criterios de elegibilidad para la selección de estudios en la revisión de pruebas diagnósticas.	47
Tabla 3-3: Estructura PICOT de la revisión sistemática de efectividad del inicio temprano del tratamiento.	50
Tabla 3-4: Criterios de elegibilidad para la evaluación de efectividad y seguridad del inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita bilateral.	51
Tabla 3-5: Elementos considerados para el análisis de costo efectividad.	54
Tabla 3-6: Pesos promedio de discapacidad para la pérdida auditiva por el umbral.	57
Tabla 4-1: Identificación, medición y valoración de recursos relacionados con la gestión del programa de tamización auditiva.	69
Tabla 4-2: Identificación, medición y valoración de recursos relacionados con la etapa de diagnóstico.	70
Tabla 4-3: Identificación, medición y valoración de recursos relacionados a la etapa de evaluación, selección y adaptación de ayudas auditivas, rehabilitación y seguimiento en pérdidas auditivas de grado moderado.	71
Tabla 4-4: Identificación, medición y valoración de recursos empleados durante la evaluación, selección, procedimiento quirúrgico, activación de ayudas auditivas, rehabilitación y seguimiento de pérdidas auditivas severas y profundas.	72
Tabla 4-5: Costo anual RN con pérdida auditiva moderada.	75

Tabla 4-6: Costo anual RN con pérdida auditiva severa o profunda.	75
Tabla 4-7: Parámetros incluidos en el modelo.	83
Tabla 4-8: Distribuciones de probabilidad empleadas en el modelo.	86
Tabla 4-9: Resultados caso base, en la población sin factores de riesgo.	88
Tabla 4-10: Resultados del caso base aplicados al total de la población de recién nacidos sin factores de riesgo de hipoacusia en el año 2016.	89
Tabla 4-11: Resultados caso base en la población total, con y sin factores de riesgo. ...	91
Tabla 4-12: Resultados del caso base aplicados al total de la población de recién nacidos en el año 2016.....	92

Lista de abreviaturas

Abreviatura	Término
ACE	Análisis de Costo efectividad
AVAC	Años de vida ajustados por calidad
AVEIP	Análisis del valor esperado de la información perfecta
CAE	Conducto auditivo externo
CCE	Células ciliadas externas
CCI	Células ciliadas internas
CVRS	Calidad de vida relacionada con salud
DANE	Departamento Administrativo Nacional de Estadística
EQ-5D	Escala EuroQol
IC	Implante coclear
IETS	Instituto de Evaluación Tecnológica en Salud
INSOR	Instituto Nacional para Sordos
JCIH	Joint Committee on Infant Hearing”
NAD*	Asociación Nacional de Sordos de Estados Unidos
NIDCD	National Institute on Deafness and Other Communication Disorders
OEA	Otoemisiones acústicas
OEAPD	Otoemisiones acústicas por producto de distorsión
OEAT	Otoemisiones acústicas transitorias
OM	Oído medio
OMS	Organización mundial de la salud
ORL	Otorrinolaringólogo

Abreviatura	Término
PAC	Pérdida auditiva congénita
PAC	Pérdida auditiva congénita
PEA	Potenciales evocados auditivos
PEAA	Potenciales evocados auditivos automatizados
PEATC	Potenciales evocados auditivos de tallo cerebral
PIB	Producto Interno Bruto
QHES	Quality of Health Economic Studies
RICE	Razón incremental de costo efectividad
RLCPD	Registro para la Localización y Caracterización de personas con Discapacidad
RN	Recién nacido
UCI	Unidad de cuidados intensivos
VPN	Valor predictivo negativo
VPP	Valor predictivo positivo
VRA*	Audiometría por refuerzo visual

Introducción

La pérdida de la audición es la condición más común que afecta a los recién nacidos (RN) en los países desarrollados, con 1 a 3 bebés por cada 1.000 nacidos con pérdida auditiva neurosensorial. Cuando los niños con alteraciones auditivas no cuentan con oportunidades apropiadas para aprender el lenguaje, suelen presentar un menor desempeño comunicativo, cognitivo y desarrollo socio-emocional en comparación con los niños oyentes; incluso en la edad adulta, esto puede dar lugar a niveles educativos y laborales más bajos (1,2).

Diferentes investigaciones han demostrado que la identificación temprana de alteraciones auditivas permite una intervención oportuna y optimiza la amplificación con audífonos o implante coclear (IC). Se ha reportado que en los niños cuya adaptación auditiva se ha realizado antes de los 18 meses de edad, se presentan tasas de mejoría más rápidas en los desenlaces de habla y lenguaje comparados con los niños identificados tardíamente (3–5).

Históricamente, las pérdidas auditivas de grado moderado a severo en los RN no eran detectadas sino tiempo después del período neonatal, y las pérdidas de audición leve o las pérdidas unilaterales se detectaban hasta que los niños alcanzaban la edad escolar. Desde el año 1993 el *National Institute on Deafness and Other Communication Disorders* (NIDCD) en Estados Unidos estableció que todos los recién nacidos admitidos a unidad de cuidados intensivos (UCI) deberían recibir tamización auditiva antes del egreso hospitalario, y que la tamización universal (tamización en todos los RN incluso en los que no presentan factores de riesgo de hipoacusia) debería implementarse para todos los bebés dentro de los tres primeros meses de vida (2).

De acuerdo al comunicado emitido en el año 2000 por el *Joint Committee on Infant Hearing* (JCIH) se establecieron ciertos principios para la tamización auditiva neonatal. Se determinó que todos los RN deberían tener acceso a la tamización auditiva mediante mediciones fisiológicas durante el primer mes de edad; todos los RN que no pasaran la tamización auditiva inicial, requerirían una segunda confirmación con una prueba de tamización y posteriormente deberían tener una evaluación audiológica y médica para

confirmar la presencia de alteraciones auditivas, antes de los 3 meses de edad; todos los niños con pérdida auditiva permanente confirmada deberían recibir servicios de intervención temprana tan pronto como sea posible después del diagnóstico, a más tardar a los 6 meses de edad (2).

A nivel mundial se han elaborado varios análisis económicos para evaluar el impacto social y económico de la tamización auditiva y para determinar las estrategias apropiadas en cada país, de acuerdo a la prevalencia y disponibilidad a pagar; sin embargo, en Colombia aún no se han realizado este tipo análisis. Los análisis económicos realizados en otros países sugieren que la tamización auditiva neonatal puede ser costo efectiva, dependiendo del tipo de programa de tamización (universal o selectivo), el tipo de estrategia empleada (tamización en una etapa versus dos etapas), el equipo de tamización empleado (otoemisiones acústicas o PEAA) y el desarrollo económico de cada país.

En Reino Unido, el costo aproximado de la estrategia universal de tamización auditiva se estimó en £2.3 millones y permitiría detectar 63 casos adicionales; sin embargo, en países como India, en los que la prevalencia es más alta, la carga económica asociada a un programa universal es más alta (6). En Chile la tamización auditiva neonatal universal se considera una estrategia costo efectiva, con una Razón Incremental de Costo Efectividad (RICE) de \$331.368,22 (umbral de disposición a pagar de 1 producto interno bruto [PIB] per cápita para Chile de 6,97 millones para el 2011) en relación a la estrategia de tamización selectiva (7). En China, se observó que tanto la tamización selectiva como la universal son estrategias costo efectivas, principalmente en ciudades desarrolladas; sin embargo ningún tamizaje es costo efectivo en países en desarrollo (8). De acuerdo a otro análisis de costo efectividad realizado en el año 2002 en Estados Unidos, la tamización auditiva universal puede generar ahorros de costos a largo plazo; sin embargo, esto dependería de la proporción de recién nacidos de bajo riesgo que desarrollarían habilidades normales de lenguaje y la productividad asociada de por vida. Si la proporción de recién nacidos que desarrollarían habilidades normales del lenguaje fuera inferior al 60%, o si el aumento de la productividad durante la vida fuera inferior al 64% de la estimación del caso base, la tamización selectiva o por factores de riesgo, supondría un ahorro. La no detección se consideraría una estrategia dominante cuando el aumento de la productividad durante toda la vida fuese menor al 15% de la estimación del caso base (9).

Considerando que las conclusiones obtenidas en los estudios realizados en otros países no pueden ser extrapoladas al contexto colombiano debido a las diferencias en los precios relativos, sistemas de prestación de los servicios de salud y perfiles epidemiológicos de la población (10), la presente investigación tiene como objetivo determinar cuál estrategia de tamización auditiva neonatal resulta costo efectiva para el contexto colombiano en el marco de un programa de tamización auditiva neonatal y establecer si el inicio temprano de la intervención favorece la calidad de vida de los niños y la reducción de los costos del tratamiento a futuro. Se empleó la metodología sugerida por la Colaboración Cochrane y el Instituto de Evaluación Tecnológica en Salud (IETS) para la elaboración de evaluaciones de efectividad, seguridad y validez diagnóstica (11,12) y para la elaboración de evaluaciones económicas en Colombia (10).

Se espera que este análisis sea de utilidad para los tomadores de decisiones en salud en el país y para los profesionales en salud, con el fin de elegir una estrategia de tamización óptima, altamente sensible que favorezca una asignación eficiente de los recursos disponibles y permita identificar de manera oportuna niños con alteraciones auditivas que se beneficiarían de una intervención temprana, incluso en su adultez, al disminuir la discapacidad que esta condición generaría al no recibir tratamiento o al obtener una intervención tardía.

Justificación

La audición es una función crítica para el desarrollo del habla, lenguaje, social y emocional (13). La pérdida auditiva congénita (PAC) es una condición de mayor prevalencia a nivel mundial (1 a 3 por cada 1.000 recién nacidos) (14) comparada con otras condiciones genéticas evaluadas al nacimiento como el hipotiroidismo congénito (2 a 3 casos por cada 10.000) (15).

La Organización Mundial de la Salud (OMS) en el año 2012 estimó 360 millones de personas con pérdida auditiva discapacitante (5,3% de la población mundial) y 32 millones (9%) correspondían a la población infantil; en Latinoamérica y el Caribe la prevalencia es del 9% y el 1,6% (2,6 millones) son niños (16). La incidencia de PAC bilateral en los países desarrollados (pérdida auditiva neurosensorial > 40dB) es de 2 a 4 por cada 1.000 nacidos vivos, la cual es mayor que en los países en desarrollo (≥ 6 por cada 1.000), resultando en el nacimiento de por lo menos 720.000 bebés al año con un problema auditivo significativo (17). La prevalencia de la discapacidad auditiva disminuye exponencialmente a medida que el Ingreso Nacional Bruto aumenta linealmente y con el incremento de la tasa de alfabetización de los adultos (16).

Actualmente en Colombia se desconoce la incidencia y/o prevalencia exacta de la PAC en RN; sin embargo, de acuerdo al Departamento Administrativo Nacional de Estadística (DANE) en el Registro para la Localización y Caracterización de personas con Discapacidad (RLCPD) a febrero de 2015, se registraron 27.673 personas sordas a nivel nacional, de los cuales el 4,8% (1.337) eran niños en edad escolar (3-17 años) (18). En Bogotá, durante el año 2010 se reportaron 5.744 personas con alteración auditiva, de los cuales 170 se encontraban en el rango de edad de 0 a 4 años (19).

El Instituto Nacional para Sordos (INSOR) reporta que en la población sorda a nivel nacional se observa una relación entre pobreza y discapacidad debido a que presentan condiciones socioeconómicas que las ubica en mayor riesgo de vulneración y exclusión

social, esto se observa en aspectos relacionados con el estrato, vivienda propia, empleo, edad al ingreso escolar y máximo nivel educativo alcanzado (18).

La identificación de la pérdida auditiva y la posterior intervención temprana es vital para la mejora del desarrollo del lenguaje de los niños sordos o con problemas de audición (20). La detección tardía puede producir secuelas sobre la inteligencia y el lenguaje, requiriendo rehabilitación y educación especial que se hubiera podido evitar con un diagnóstico oportuno (21).

En la normatividad vigente colombiana se reconoce la importancia de la detección temprana de pérdida auditiva en niños, como se establece en la ley 982 de 2005 en el artículo 42: *“Todo niño recién nacido tiene derecho a que se estudie tempranamente su capacidad auditiva y se le brinde tratamiento en forma oportuna si lo necesitare”* y en el artículo 43 *“Será obligatoria la realización de los estudios que establezcan para tal efecto las normas emanadas por el Ministerio de la Protección Social conforme al avance de la ciencia y la tecnología para la detección temprana de la hipoacusia, a todo recién nacido, antes del primer año de vida”* (22).

En el proyecto de acuerdo 257 de 2012, respaldado por el Plan de Desarrollo Distrital “Bogotá Humana” 2012-2016, se estableció la obligatoriedad del tamizaje universal neonatal auditivo y visual para los recién nacidos y residentes en la ciudad de Bogotá D.C, pertenecientes a la población en estado de pobreza y vulnerabilidad (estratos 1, 2 y no afiliados al régimen contributivo de seguridad social en salud) con el objetivo de identificar de forma precoz a los niños con pérdida auditiva y/o visual para que sean intervenidos antes de los 18 meses de edad (22).

De acuerdo a lo reportado en la literatura, el tamizaje auditivo selectivo o basado en factores de riesgo solo identifica aproximadamente el 50% de los niños con pérdida auditiva significativa (23) por lo que aún se encuentran niños diagnosticados tardíamente. En 2014 en Bogotá se registró que el 70,80% de la población infantil sorda tuvo un diagnóstico oportuno y el 72,99% recibió una orientación acerca de su discapacidad (18).

El Ministerio de Salud de Colombia establece en la “Norma Técnica para la Detección de las Alteraciones de Crecimiento y Desarrollo en el Menor de 10 Años” la obligatoriedad de incluir la valoración de la capacidad auditiva y del lenguaje en los programas de atención para la detección precoz de alteraciones del crecimiento y desarrollo en niños

que presenten factores de riesgo de hipoacusia neonatal, mediante Potenciales Evocados Auditivos Automatizados (PEAA) o Potenciales Evocados Auditivos de Tallo cerebral (PEATC), los cuales están incluidos dentro del plan obligatorio de salud en Colombia tanto del régimen subsidiado como el contributivo (24). Durante el periodo de Julio a Diciembre de 2010 en la ciudad de Bogotá, se llevó a cabo un estudio de corte transversal que evaluó el cumplimiento de la norma respecto a la valoración auditiva; se revisaron 2.741 historias clínicas de niños nacidos durante este periodo en dos instituciones y se observó que de los 291 niños identificados con factores de riesgo para hipoacusia neonatal, en ninguna de las dos instituciones se realizó remisión a Potenciales Auditivos Evocados, como estrategia de detección temprana de la Hipoacusia Neonatal (25).

A pesar de la normatividad dispuesta para la detección e inicio del tratamiento temprano de la hipoacusia congénita y de las recomendaciones establecidas en las guías de práctica clínica para el manejo del recién nacido sano y prematuro adaptadas para el país, se observa que en la práctica clínica aún no se han estandarizado las estrategias de tamización auditiva. El análisis de efectividad y de costos de un programa de tamización auditiva neonatal es fundamental para determinar la viabilidad de su implementación, por lo cual se requiere llevar a cabo una evaluación económica en la que se analice cuál estrategia de tamización es apropiada y eficiente para desarrollar un programa de tamización auditiva neonatal en el contexto colombiano, con el objetivo de apoyar el proceso de toma de decisiones en salud, desde la perspectiva del sistema.

1. Objetivos

1.1 Objetivo general

Evaluar la razón de costo efectividad de las estrategias de tamización auditiva neonatal universal (otoemisiones acústicas y potenciales evocados auditivos automatizados) para la detección de pérdida auditiva congénita bilateral en recién nacidos y del inicio temprano del tratamiento, dentro del contexto hospitalario en Colombia.

1.2 Objetivos específicos

1. Identificar las características operativas de las estrategias de tamización de interés, mediante una búsqueda sistemática de estudios de pruebas diagnósticas.
2. Determinar la efectividad del inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita bilateral, mediante una búsqueda sistemática de la literatura.
3. Identificar, cuantificar y valorar los eventos generadores de costos asociados a la tamización auditiva neonatal, al tratamiento y rehabilitación de hipoacusia congénita, desde la perspectiva del sistema de salud colombiano.
4. Diseñar un modelo de decisión adaptado al contexto colombiano para sintetizar la evidencia de características operativas de las pruebas, efectividad del tratamiento temprano, desenlaces y costos de las estrategias a comparar.
5. Determinar la razón de costo efectividad de las estrategias de tamizaje auditivo e inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita, desde la perspectiva del tercer pagador.

2. Marco Teórico

A continuación se presenta una síntesis de los conceptos teóricos relevantes para el desarrollo de la investigación. Se incluye una breve introducción acerca de los aspectos anatomofisiológicos de la audición, se define el término de hipoacusia, sus niveles de severidad y se describen sus factores de riesgo. Adicionalmente se describe el proceso de detección, diagnóstico y tratamiento de la hipoacusia en recién nacidos o menores de cinco años y se presenta la normatividad vigente en Colombia relacionada con la tamización auditiva. Posteriormente se presentan los conceptos claves para el desarrollo de análisis económicos en salud, como los tipos de evaluaciones económicas, perspectivas de análisis, definición del horizonte temporal, aplicación de tasas de descuento, tipos de desenlaces sugeridos para los análisis económicos en salud, metodologías disponibles para la realización del costeo, tipos de modelos económicos y tipos de análisis para evaluar la incertidumbre de los resultados.

2.1 Anatomía y fisiología de la audición

La audición es el complejo proceso mediante el cual el ser humano es capaz de analizar, integrar e interpretar las señales acústicas que provienen del medio externo, y lo más importante, desarrollar el lenguaje (26). Anatómicamente, en el oído se distinguen tres partes bien diferenciadas:

- Oído externo: Está conformado por el pabellón auricular y el conducto auditivo externo (CAE). El pabellón auricular recibe y transmite las ondas sonoras hacia el CAE, participa en la localización del sonido debido a la pequeña diferencia temporal y de intensidad entre la llegada del sonido a un pabellón auricular u otro desde su punto de origen (efecto sombra de la cabeza), amplifica las frecuencias comprendidas entre 400 a 5000 kHz (26). El CAE se encarga de conducir la onda sonora hasta el tímpano (27).

- Oído medio: El oído medio (OM) está constituido por la caja timpánica, la Trompa de Eustaquio y el sistema neumático del hueso temporal (celdillas mastoideas). El tímpano y la cadena oscicular transforman la onda sonora en vibraciones mecánicas y transmiten la energía mecánica recibida en el CAE al oído interno a través de la membrana oval; El OM adapta la baja impedancia del medio aéreo por la que circula inicialmente la onda sonora, a la alta impedancia del medio líquido (40-50 veces mayor que la del aire) del interior de la cóclea, y protege al oído interno de los sonidos de muy alta intensidad, evitando lesiones irreversibles del sistema auditivo (27). La trompa de Eustaquio equilibra la presión aérea entre el exterior y el oído medio, asegurando la ventilación del mismo (26), lo cual facilita la transmisión de la onda sonora a la cadena de huesecillos (27).
- Oído interno: Se encuentra situado profundamente en la porción petrosa del temporal; dentro de él se diferencia un laberinto óseo, excavado en el hueso, que aloja en su interior el laberinto membranoso, donde se localizan las células receptoras del sonido y del equilibrio y, entre las paredes óseas y las estructuras membranosas, queda el espacio perilinfático, lleno de perilinfa, mientras que el interior de las vesículas membranosas está lleno de endolinfa (28). Las principales funciones del oído interno realizadas en la cóclea son la discriminación tonal del sonido y la transducción, la cual consiste en la transformación de la energía acústica en bioeléctrica (26). Al introducirse la platina del estribo en la ventana oval se produce un desplazamiento de los líquidos perilinfáticos de la rampa vestibular (26), los cuales hacen vibrar la membrana basilar, transmitiendo ese movimiento ondulatorio al órgano de Corti y a la endolinfa (28). La membrana basilar funciona como un analizador frecuencial pasivo de baja selectividad (tonotopía coclear) y mediante la acción de las células ciliadas externas (CCE), amplifican el sonido para aumentar la capacidad de discriminación frecuencial (26); este análisis frecuencial se debe a las variaciones estructurales que presenta la membrana basilar desde el ápex, de manera que las frecuencias agudas se analizan desde la espina basal y las graves en el ápex (27).

El desplazamiento de la membrana basilar provoca la elevación y proyección del órgano de Corti hacia la membrana tectoria, este fenómeno provoca que al elevarse la membrana basilar, los estereocilios se orienten hacia la estría vascular y las CCE abran sus canales iónicos permitiendo la entrada de K^+ y, por tanto, la activación celular,

mientras que cuando los estereocilios se orientan en sentido inverso (cuando la membrana basilar desciende) las células se inactivan; cuando las CCE se despolarizan (activan) inician una serie de movimientos contráctiles rápidos y lentos, que hacen que las CCE atraigan la membrana tectoria a la superficie del órgano de Corti, dependiendo de la intensidad del sonido (cuando las contracciones son rápidas, se amplifican los sonidos de muy baja intensidad al aumentar el número de contactos por unidad de tiempo entre la superficie celular y la membrana tectoria) (27). El receptor auditivo u órgano de Corti, realiza la transducción mecanoeléctrica que convierte la onda sonora en un mensaje neural que, a través de las vías nerviosas de la vía auditiva, llegará a la corteza cerebral (27).

Las células ciliadas internas (CCI) se activan cuando los estereocilios de su superficie sufren un desplazamiento hacia la estría vascular, este desplazamiento sólo se produce cuando la membrana tectoria entra en contacto con la superficie de la CCI correspondiente, proceso que se facilita con la contracción de las CCE, que acercan la membrana a la superficie del órgano de Corti; el desplazamiento de los estereocilios de las CCI también provocan la apertura de sus canales iónicos, la entrada de K⁺ y la activación celular (27). La despolarización celular permite la liberación de glutamato (principal neurotransmisor activador del sistema nervioso de los mamíferos) por el polo basal de las CCI hacia la endidura intersináptica; este neurotransmisor actúa sobre receptores específicos (N-methyl-D-aspartato, NMDA y no NMDA) de las fibras aferentes de tipo I que, a su vez, se despolarizan (generación del potencial de acción compuesto del nervio auditivo) e inicia un mensaje neural que, a través del nervio auditivo, llega a los núcleos cocleares, desde donde es remitido a la corteza cerebral auditiva remiten el mensaje auditivo al sistema nervioso central (27,29).

Las fibras aferentes de tipo I envían el mensaje auditivo, que llega a las neuronas de los núcleos cocleares, que, a su vez, se encargan de remitirlo a la corteza cerebral a través de la vía auditiva ascendente (27). Finalmente, la información sonora percibida, es integrada, asociada, analizada y recobrada para ser interpretada y darle significado a un mensaje mediante el procesamiento central auditivo; este procesamiento también involucra habilidades superiores como atención, análisis, almacenamiento y recuperación de la información (30).

2.2 Definición de hipoacusia

Hipoacusia significa pérdida de audición, la cual se produce cuando hay una interrupción en el proceso fisiológico auditivo (26). La pérdida de la sensibilidad auditiva significa que el o los oídos no son sensibles a la detección de un sonido a intensidad normal; es causada por un desorden que altera la transmisión normal del sonido hasta el cerebro, como resultado de factores que afectan el oído externo, el OM o el oído interno (30). Las hipoacusias se clasifican según la localización de la lesión y el grado de pérdida auditiva, además se pueden describir de acuerdo a su origen, duración de la alteración y compromiso:

Según la localización de la lesión:

- Hipoacusia de transmisión o de conducción: La lesión se localiza a nivel del oído externo o medio. Se altera el mecanismo de conducción del sonido a través del pabellón auricular, CAE, membrana timpánica o cadena oscicular (26).
- Hipoacusia neurosensorial o de percepción: La lesión puede localizarse en la cóclea, dando lugar a las hipoacusias cocleares o sensoriales, pero también puede ser en el VIII par craneano o en la porción auditiva del tallo cerebral, produciendo las hipoacusias retrococleares o neurales (26).
- Hipoacusia mixta: Se presenta un compromiso tanto en el sistema mecánico de transmisión del sonido, como el oído interno y la vía auditiva (31).

Según el grado de pérdida auditiva:

Existen diferentes criterios para determinar el grado de pérdida auditiva en un individuo, sin embargo, la clasificación desarrollada por Stach (1998) se emplea con mayor frecuencia en la práctica clínica (32):

Tabla 2-1: Clasificación del grado de severidad de las pérdidas auditivas.

Grado de pérdida	Rango en dB HL
Audición normal	-10 a 10
Hipoacusia mínima	10 a 25
Hipoacusia leve	25 a 40
Hipoacusia moderada	40 a 55
Hipoacusia moderada-severa	55 a 70
Hipoacusia severa	70 a 90
Hipoacusia profunda	> 90

Fuente: Stach 1998. Clinical Audiology: An Introduction.

Según el tiempo de aparición o su origen (30):

- Congénita: presente al nacer.
- Adquirida: después del nacimiento (antes del desarrollo del lenguaje).
- Tardía: no congénita, adquirida después del nacimiento (después del desarrollo del lenguaje).

Según la duración o el proceso del desorden (30):

- Aguda: de aparición súbita y aparición corta. Crónica: de duración larga.
- Súbita: de aparición rápida.
- Gradual: ocurre en forma progresiva a través del tiempo.
- Temporal: limitada en su duración.
- Permanente: Irreversible.
- Progresiva: avanza gradualmente.
- Fluctuante: los cambios graduales son variables.

Según el compromiso de un oído o ambos (30):

- Unilateral: afecta solamente a un oído.
- Bilateral: afecta ambos oídos.

2.3 Factores de riesgo

La pérdida auditiva congénita puede ser causada por factores genéticos o no genéticos:

- Factores no genéticos: Corresponden alrededor del 25% de los casos de pérdida auditiva congénita; los factores conocidos que causan este tipo de pérdida auditiva incluyen: Infecciones maternas (rubeola, citomegalovirus, herpes simple, sífilis y toxoplasmosis), prematurez, bajo peso al nacer, lesiones al nacer, consumo de toxinas por la madre durante el embarazo incluyendo drogas y alcohol, complicaciones asociadas con el factor Rh en la sangre/ictericia, diabetes materna, toxemia durante el embarazo y falta de oxígeno (anoxia) (33,34).
- Factores genéticos (hereditarios): Generan más del 50% de todas las pérdidas auditivas. Las pérdidas auditivas asociadas a estos factores pueden estar presentes al nacimiento o desarrollarse posteriormente; además, la mayoría de las pérdidas de audición genéticas pueden describirse como autosómicas recesivas o autosómicas dominantes (34). Otros tipos más raros de pérdida auditiva genética incluyen las recesivas ligadas al cromosoma X y por la herencia mitocondrial (35). La pérdida de audición hereditaria puede ser conductiva, neurosensorial, o una combinación de ambas; sindrómica (asociada a malformaciones del oído externo o de otros órganos o con problemas médicos relacionados con otros sistemas) o no sindrómicas (sin anomalías visibles asociadas del oído externo o problemas médicos relacionados) (35). En las pérdidas de audición autosómicas recesivas, ambos padres son portadores del gen recesivo y se lo transmiten al niño; este tipo de patrón de herencia representa alrededor del 70% del total de la pérdida de audición genética (34). Las pérdidas auditivas de tipo no sindrómicas son autosómicas recesivas en un 75% a 80%; el tipo más común de pérdida auditiva no sindrómica es causada por defectos en el gen *connexin 26*, que comprende aproximadamente el 50% de las pérdidas auditivas autosómicas recesivas no sindrómicas (36). Una pérdida auditiva autosómica dominante, ocurre cuando un gen anormal de uno de los padres es capaz de causar la pérdida, aunque el gen paralelo de audición del otro padre sea normal; el padre de familia que lleva el gen dominante también puede tener la pérdida, así como otros signos y síntomas que conforman un síndrome genético de la audición (34). El patrón autosómico dominante representa el 15% de todos los casos de pérdida de audición genéticos (34). Finalmente el 25% de los casos de sordera tienen una etiología incierta (37). Existen muchos síndromes genéticos que incluyen la pérdida de audición como uno de los síntomas, por ejemplo, síndrome de Down, síndrome de Usher, síndrome de Treacher Collins, síndrome de Crouzon, síndrome de Alport,

síndrome de Waardenburg, microsomía hemifacial, síndrome de Stickler, síndrome braquio-oto-renal, síndrome de Pendred y neurofibromatosis tipo II (34,38).

En un estudio de cohorte de 26.341 RN en el que se evaluó la asociación entre los factores de riesgo de hipoacusia establecidos por el JCIH en 2007 y la ocurrencia de hipoacusia congénita o de inicio tardío mediante un análisis de regresión logística múltiple, se identificaron 90 niños con pérdida auditiva permanente y 16 con hipoacusia de inicio tardío, con una prevalencia de 3,4 por 1.000. Se observó que la estancia en la UCI neonatal durante más de 5 días, la exposición a diuréticos de asa, el bajo peso al nacer (<800 gr), oxigenación por membrana extracorpórea y la hernia diafragmática congénita no están asociados con una mayor posibilidad de identificar una pérdida auditiva (23) (Tabla 2-2).

Tabla 2-2: Factores de riesgo asociados a hipoacusia congénita.

Factor de Riesgo	Odds Ratio ajustado (IC 95%)
Antecedentes familiares de pérdida auditiva infantil permanente	11.2 (5.0 – 25.1)
Estancia UCIN > 5 días	0.61 (0.29 – 1.13)
Oxigenación por membrana extracorpórea	2.9 (0.79 – 10.3)
Ventilación asistida > 14 días	5.6 (2.5 – 12.4)
Exposición a diuréticos de asa	0.64 (0.31 – 1.3)
Exposición a aminoglucósidos	2.9 (1.7 – 5.1)
Hiperbilirrubinemia que requiere transfusión sanguínea	38.4 (10.2–144.7)
Infecciones in utero	25.7 (3.2–206.8)
Anomalías craneofaciales	29.1 (13.3–63.6)
Condición sindrómica asociada a pérdida auditiva	18.0 (8.2–39.4)
Meningitis	15.6 (4.8–50.4)
Hernia diafragmática congénita	1.4 (0.13–14.0)

Bajo peso al nacer (<800 gr)

1.9 (0.50–7.3)

2.4 Fisiopatología

La hipoacusia congénita en los niños puede ser de tipo neurosensorial, que a su vez puede ser de origen coclear (por lesión en la cóclea) o de origen retrococlear por lesión desde la cóclea al córtex cerebral; o de transmisión por agenesias o malformaciones del OM y/o externo o debido a otros problemas de OM (39).

Entre las causas de las pérdidas auditivas conductivas se incluyen las malformaciones del oído externo, las cuales pueden afectar el pabellón auricular, el CAE o ambos, además, se pueden dar de forma aislada o asociada a otras malformaciones craneofaciales; entre las malformaciones más frecuentes se encuentran las apéndices, fistulas y quistes preauriculares, fístulas y quistes de la primera hendidura branquial, atresias del oído y orejas en asa (26). Otras causas pueden ser obstrucción del canal auditivo (cerumen/cuerpo extraño, osteomas/exostosis, colesteatoma, tumor), efusión del OM, disfunción o fijación de la cadena de oscicular, rigidez de los componentes (miringoesclerosis, timpanoesclerosis, otoesclerosis) y pérdida de la presión diferencial a través de la membrana timpánica (perforación) (38).

Algunas de las causas que pueden producir pérdidas auditivas neurosensoriales son: daños vasculares/metabólicos, efecto de masa, infección e inflamación, trauma acústico, pérdida auditiva inducida por ruido, anomalías en el hueso temporal (dehiscencia del conducto vestibular largo o del canal superior, o Mondini) (38).

2.5 Sintomatología en recién nacidos y niños con pérdida auditiva

Los niños con pérdida auditiva pueden presentar los siguientes signos: ausencia de sobresalto ante sonidos fuertes, no voltea ante el sonido de una voz o ante la imitación de sonidos después de los 6 meses de edad, ausencia de balbuceo a los 9 meses de edad, no emplea palabras sueltas a los 18 meses de edad, emplea gestos en vez de

palabras para expresar sus necesidades y el desarrollo del lenguaje es más lento que sus pares (40).

Los bebés y los niños pequeños con sensibilidad auditiva normal generalmente desarrollan habilidades comunicativas y de escucha en una secuencia de desarrollo predecible según la edad; un retraso en estos hitos pueden ser signo de pérdida de la audición (41). Los niños con pérdida auditiva severa a profunda desarrollan habilidades prelingüísticas a un ritmo normal y emiten vocalizaciones hasta los 6 a 9 meses, tiempo en el que comienzan a perder estas habilidades y no progresan más en su desarrollo lingüístico y presentando retraso del habla y del lenguaje. También se puede observar que los niños no hacen contacto visual cuando se les habla y pueden presentar retraso al sentarse, gatear y caminar (36).

Las cuatro principales formas en que la pérdida de audición afecta a los niños son (42):

- Causa retraso en el desarrollo de las habilidades comunicativas receptivas y expresivas (habla y lenguaje).
- El déficit en el lenguaje causa problemas en el aprendizaje, los cuales se traducen en la reducción de los logros académicos.
- Las dificultades de comunicación a menudo conducen al aislamiento social y pobre concepto de sí mismo.
- Puede tener un impacto en las elecciones vocacionales.

2.6 Diagnóstico

La sordera congénita y de inicio temprano en la infancia puede afectar la vía auditiva si no se ofrecen intervenciones adecuadas y óptimas durante el periodo crítico del desarrollo de la vía auditiva central, por lo tanto, la detección temprana es un elemento importante para favorecer un óptimo desarrollo emocional, del habla y del lenguaje (16,43).

Los primeros métodos para la detección de pérdida auditiva en niños menores de 2 años de edad se basaban en la observación de determinados cambios de conducta en aparente respuesta a un estímulo, sin embargo estos resultados estaban influidos por el sesgo del observador, falta de estandarización, la experiencia o destreza del examinador

e irregularidades de las condiciones del examen, por lo que el método fallaba entre un 22 a 60% en detectar alteraciones auditivas (44).

En los años setentas aparecieron dos pruebas objetivas para valorar el sistema auditivo: el Crib-o-grama y los potenciales evocados auditivos (PEA) (45); el Crib-o-grama fue criticado desde el principio porque no detectaba sorderas leves o moderadas y tenía una tasa elevada de falsos positivos (hasta el 30%), además su sensibilidad y especificidad era baja (64 y 77%, respectivamente) (44). Los PEATC se consideraron como el mejor procedimiento para el diagnóstico de pérdida auditiva en niños ya que median la respuesta auditiva electrofisiológica, informando el “umbral audiológico”, sin embargo, se reportaban inconvenientes como el tiempo requerido, su interpretación y su precio por lo que inicialmente solo se empleaban en niños con factores en riesgo (45).

Posteriormente se desarrollaron otros métodos como los Potenciales Evocados Auditivos Automatizados (PEAA) y las otoemisiones acústicas (OEA) para la valoración de hipoacusia en lactantes, lo cual permitió la puesta en marcha de programas de detección temprana de pérdida auditiva. Actualmente, se recomienda para la evaluación audiológica de niños entre los 0 y 6 meses realizar los exámenes anteriormente mencionados, incluyendo la inmitancia acústica de frecuencias altas, con la cual se evalúa el estado del oído medio empleando un tono de sonda que sobrepase los 680 Hz, idealmente 1000 Hz; y los reflejos de los músculos del oído medio, con el cual se realiza una evaluación inicial de la función de la vía auditiva (43).

2.6.1 Potenciales evocados auditivos de tallo cerebral

Es una herramienta no quirúrgica que permite determinar la integridad del VIII par craneal y el funcionamiento normal de ciertas áreas y estructuras del tallo cerebral que participan en la vía auditiva, además, confirma y cuantifica el grado de hipoacusia en la población infantil y es indispensable en los procesos de amplificación (30,43).

Los PEATC son altamente sensibles y permiten realizar una detección y una remisión temprana para iniciar el tratamiento adecuado en recién nacidos con deterioro auditivo; permiten evaluar cada oído por separado y la utilización de estímulos por conducción vía aérea y ósea (30).

Los PEATC cerebral se clasifican según su latencia (32):

- Potenciales precoces: 10 mseg órgano de Corti al tallo cerebral
- Potenciales medios: 10 – 50 mseg sobre el tallo cerebral
- Potenciales tardíos: 50 – 500 mseg estructuras corticales

Durante el examen se requiere que el niño esté dormido o se encuentre muy quieto y se realiza colocando unos electrodos en la cabeza del paciente y enviando un estímulo sonoro tipo click al oído que se estimula, lo que da lugar a una serie de ondas que representan distintas áreas de la vía auditiva onda I, onda III y onda V; el umbral auditivo se calcula con la onda V y mide fundamentalmente la frecuencia de 3.000 Hz (39). La onda I se atribuye a la actividad del nervio auditivo, la onda II al núcleo coclear, la onda III a la oliva superior en la protuberancia y el complejo IV-V con onda IV, al núcleo lateral del lemnisco y onda V, al colículo inferior (46). Es importante tener en cuenta que la ausencia de los PEATC en lactantes no es un indicador infalible de pérdida auditiva severa periférica, ya que la ausencia de los PEATC puede deberse a la inmadurez del sistema nervioso central y, por lo tanto, a la falta de sincronización neural (30). En conclusión, los PEATC, son útiles en las siguientes situaciones (30):

- En la evaluación de recién nacidos o niños pequeños cuando hay sospecha de pérdida auditiva.
- En la evaluación de pacientes inconscientes, en estado de coma, bajo sedación o anestesia general.
- Para el monitoreo durante la administración de medicamentos ototóxicos.
- En el diagnóstico de tumores del ángulo pontocerebeloso.
- Para realizar monitoreo intraoperatorio.
- Está indicado cuando en la evaluación audiológica comportamental no se obtiene la información suficiente.
- Es útil en adultos cuando la evaluación audiológica se encuentra un patrón de pérdida auditiva asimétrica.
- En niños menores de 6 años con trastornos en el desarrollo.

2.6.2 Otoemisiones acústicas

Las OEA son sonidos de baja intensidad que se producen en el oído interno espontáneamente, como señales de tonos de banda estrecha durante o después de la

estimulación acústica (30). Cuando el sonido estimula la cóclea, las CCE vibran y esta vibración produce un sonido casi inaudible que hace eco de nuevo en el OM (47). Esta técnica permite medir la vía auditiva periférica, incluida la cóclea (46).

Fueron descubiertas en 1978 por Kemp, quien descubrió que las OEA evocadas se identificaban en el 90 a 100% de los oídos sanos y podían ser visualizadas en neonatos normales, lo que las convirtió en un método de tamizaje, sin embargo, reconoció sus limitaciones para identificar lesiones retrococleares y detectar el umbral audiológico (45).

Son útiles en clínica para detectar sordera en niños, diferenciar alteración coclear de la retrococlear, valorar la enfermedad de Menière, reconocer hipoacusia súbita o inmunitaria, vigilar la ototoxicidad de la cóclea, valorar la audición en pacientes poco colaboradores y reconocer en fase temprana traumatismo acústico en músicos o personas expuestas a niveles altos de contaminación por ruido (48).

Esta prueba tiene una sensibilidad del 70-90% y una especificidad de 70-80% (en varios estudios se reportan rangos amplios y distintos), es una prueba rápida (2 a 3 minutos por oído), sencilla de realizar, con simplicidad de interpretación en los resultados y económica (46).

Se han identificado dos clases de otoemisiones, las espontáneas y las provocadas; estas últimas incluyen las transitorias y las de producto de distorsión (30), sin embargo, solo las transitorias son empleadas para tamización:

- Otoemisiones acústicas transitorias (OEAT):

Son respuestas evocadas producidas por una estimulación de la cóclea, en frecuencias de 500 a 5000 Hz (48). Se registran a través de una sonda en el CAE, por medio de un micrófono y una bocina miniaturizados; el estímulo utilizado es un click con duración de 80 mseg, y la intensidad es de 70 dB (HL nivel de audición) ó 45 dB supraumbral tonal audiométrico; la respuesta promediada y analizada espectralmente se presenta como una serie de ondas (componentes no lineales) dentro de una ventana de 20 mseg (30). Esta prueba depende fundamentalmente del estado del oído durante la prueba, por lo que se puede ver afectada por condiciones del oído externo y del OM (por ejemplo, estenosis del canal, cerumen u otros residuos en el canal externo, o efusión del oído medio) y por el ruido de fondo presente durante el examen (30,36). Las OEAT se han utilizado en programas de tamización de hipoacusia neonatal con el criterio de que las

OEAT con reproducibilidad mayor del 50% son indicativas de audición en 30 dB o más (30). Durante este examen no es necesaria la colaboración del niño ya que la prueba es objetiva y el analizador coclear proporciona las respuestas al final de la prueba; en recién nacidos, se ejecuta durante el sueño fisiológico, después del amamantamiento (37). Se debe tener en cuenta que los niños con pérdida auditiva progresiva, generalmente pasaran la tamización auditiva neonatal con esta prueba y los niños con trastorno del espectro neuropatía auditiva, típicamente tendrán OEA presentes, pero PEATC ausentes o anormales, por lo cual, el uso único de OEA, sería insuficiente para su diagnóstico (36). Los resultados se presentan como ausente y presente (36). En un estudio en el que se evaluó el desempeño diagnóstico de las OEAT, OEA por producto de distorsión (OEAPD) y de las respuestas auditivas del tallo cerebral obtenidas mediante PEATC, comparado con los resultados de la valoración audiológica comportamental mediante audiometría por refuerzo visual (VRA, en sus siglas en inglés), se obtuvo un rendimiento similar en las tres pruebas; sin embargo, este estudio presenta algunas falencias metodológicas respecto a la población seleccionada dado que las pruebas solo se aplicaron en niños con factores de riesgo y además no se empleó un patrón de oro adecuado (realización de VRA a los 8 a 12 meses, independientemente del resultado obtenido en las pruebas iniciales). El PEATC fue más exitoso en determinar el estado auditivo en 1kHz, comparado con las OEAT, sin embargo, el desempeño diagnóstico fue similar en las tres pruebas cuando se emplearon para identificar pérdidas auditivas entre 2 a 4 kHz. Aunque no se logró evaluar perfectamente el rendimiento de la prueba, la sensibilidad para cada medida aumento con la magnitud de la pérdida auditiva, lo que sugiere que las tres pruebas presentan un mejor desempeño al identificar pérdidas auditivas en las cuales se recomendaría inmediatamente la intervención (49). En un ensayo clínico se reportó que la eficacia y efectividad de la tamización con OEA, seguida de la prueba de AABR en casos de OEA anormales, tiene una sensibilidad del 92% y una especificidad del 99% (50).

2.6.3 Potenciales evocados auditivos automatizados

El primer dispositivo automatizado diseñado específicamente para la tamización auditiva neonatal, el ALGO-1, fue introducido durante la mitad de 1980. Este equipo comparaba la forma de la onda de la respuesta auditiva del tronco cerebral (PEATC) de un niño, con un modelo derivado de la composición de PEATC de una serie de niños con sensibilidad

auditiva normal confirmada; los resultados de este dispositivo fueron validados contra un “gold estándar”, el cual consistía en un promedio de PEATC realizado en el laboratorio, a partir de los datos recolectados de encefalografías y en la interpretación por un audiólogo experimentado, quien desconocía los resultados de la tamización (51).

Cuando se administra esta prueba para la tamización auditiva de recién nacidos, el análisis de las ondas resultantes se limita a la identificación de un componente confiable de la onda V dentro de la región de latencia esperada para un solo nivel de intensidad de un estímulo (por ejemplo, 35dB nHL) (52); En los PEAA, la intensidad y frecuencia de los estímulos están predefinidos para detectar pérdida de audición leve (36).

Los dispositivos de PEAA determinan la presencia o ausencia de PEATC empleando un método como un “equipo de puntuación”, el cual realiza un procesamiento de la información recolectada mediante un algoritmo de verificación estadística del desenlace e indica si el recién nacido “pasa” o “falla” la prueba (51).

Los PEAA en comparación con las OEA proveen una valoración superior del sistema auditivo y una mejor detección de niños con neuropatía auditiva; sin embargo, deben ser realizados por personal entrenado, con experiencia, requieren de un mayor tiempo y son más costosos que las OEA (53).

En la tamización con PEAA en población de recién nacidos sanos, las tasas de fracaso (o de referencia) y de falsos positivos son igual o menores al 4% y 2%, respectivamente; las tasas de referencia están indirectamente correlacionadas con la experiencia del evaluador, a mayor número de recién nacidos tamizados, menor es el promedio de la tasa de “referencia” (51).

Si un bebé no pasa esta prueba, se puede realizar una prueba completa PEATC mediante la cual es posible obtener información acerca del grado específico de pérdida auditiva (leve a profundo) y la frecuencia del sonido de la pérdida auditiva (frecuencias bajas o altas) (36).

2.7 Tamización auditiva neonatal

La iniciativa de realizar tamizaje auditivo neonatal comenzó en Estados Unidos a finales de 1960, empleando técnicas comportamentales, en las que se presentaban estímulos sonoros de intensidades moderadas y altas a los recién nacidos para elicitare respuestas comportamentales, sin embargo, sus resultados fueron poco satisfactorios debido a que las respuestas obtenidas eran altamente subjetivas. En el año 1970 se introdujeron las técnicas de Crib – o – grama y el PEATC, con las cuales se obtenían respuestas fisiológicas. El PEATC se convirtió en la técnica por excelencia para la tamización auditiva neonatal en Unidades de Cuidados Intensivos Neonatales debido a su factibilidad clínica (51).

En 1973 el JCIH publicó la primera lista del “Registro de Alto Riesgo” para la hipoacusia, con el objetivo de realizar las pruebas auditivas solo en niños con antecedentes de riesgo, debido a que su probabilidad de tener sordera era 10 veces mayor que en la población general (45). Aunque este enfoque fue un medio eficiente para identificar aproximadamente el 50% de RN con pérdida auditiva permanente, en 1980, se reconoció que su principal limitación era su imposibilidad para detectar pérdidas auditivas tempranas en el otro 50% de los niños (aquellos que nacieron sanos, sin factores de riesgo evidentes), ya que se estimó que entre la población de niños sanos, 1 a 3 niños por cada 1000 tienen una pérdida auditiva permanente suficiente para interferir con la adquisición normal del habla y del lenguaje (51).

En 1998, la Conferencia Europea de Consenso sobre el Desarrollo de la Tamización Auditiva Neonatal en Milán, confirmó que la incidencia de la discapacidad auditiva infantil permanente era un grave problema de salud pública, por lo que recomendó que la prueba neonatal se realizara en los hospitales de maternidad; señalaron adicionalmente, que aunque la tamización solo en población en riesgo reducía costos, el 40 al 50% de los casos no eran identificados (54). De acuerdo a las estadísticas realizadas en Estados Unidos y Europa, se ha visto que aproximadamente el 0,6% de los recién nacidos presentan algún tipo de pérdida auditiva y el 10% de los bebés con criterios de alto riesgo de hipoacusia, presentan algún tipo de disminución auditiva permanente, por lo que se concluyó que es indispensable establecer programas de tamización incluso en niños sin antecedentes de pérdida auditiva (43).

Considerando las implicaciones técnicas y económicas al aplicar el tamizaje auditivo a todos los RN, se diseñaron dos pruebas: Los PEAA y las OEA, las cuales permitían llevar a cabo el tamizaje auditivo de forma costo eficiente, en un gran número de recién nacidos, sin requerir personal especializado en audiología (51).

El objetivo general de la tamización auditiva neonatal es identificar lo antes posible alguna deficiencia auditiva que pueda afectar la adquisición normal del habla y del lenguaje en los niños, con el fin de favorecer una intervención temprana, antes de los seis meses de edad (49,51). De acuerdo al JCIH, la detección de alteraciones auditivas y el inicio de una intervención temprana, maximiza las competencias lingüísticas y comunicativas, y el desarrollo de la alfabetización para los niños sordos o con dificultades auditivas, debido a que la falta de oportunidades para aprender el lenguaje afectan la cognición y el desarrollo socioemocional, en comparación con niños oyentes (55).

Actualmente, los programas de tamizaje auditivo neonatal e infantil en cada país, presentan algunas diferencias de acuerdo a sus condiciones financieras, la disponibilidad de equipos y de personal capacitado para su realización.

Países como Estados Unidos, Canadá, Inglaterra, India, China, Brasil, entre otros, han desarrollado programas nacionales de tamización auditiva, sin embargo, solo en algunos países se han establecido de forma universal y han recibido un apoyo por parte de entidades gubernamentales. Cada programa ha desarrollado sus propios protocolos y procedimientos con estándares de calidad, de acuerdo a las características de la población y la disponibilidad técnica y profesional que poseen; las pruebas diagnósticas auditivas generalmente empleadas son las OEA, PEAA o pruebas auditivas comportamentales, además, se establece un esquema de seguimiento aproximadamente hasta los 24 meses, a partir de la primera prueba realizada dentro del área hospitalaria o comunitaria (33).

En varios estudios se ha demostrado que en cuanto menor es el grado objetivo de pérdida de la audición en los programas de tamización, mayor es el número de falsos positivos y resulta más costoso el programa de tamizaje (49). La efectividad de un programa de tamización universal se basa en implementar estrategias de seguimiento tanto en los que fueron detectados durante la primera prueba, hasta los 12 meses de edad y en aquellos que superaron el examen (54). Dentro de los efectos adversos solo

se reporta ansiedad de los padres por falsos positivos, que se observó más frecuentemente cuando tenían algún familiar con alteraciones de audición (56–59).

2.8 Tratamiento

Una vez la pérdida auditiva ha sido identificada, se deben tomar medidas para reducir al mínimo la duración de la pérdida de audición y/o maximizar la función de la audición residual o función coclear (36). Mientras se identifiquen y se traten los problemas del habla y lenguaje del niño de forma oportuna, menor probabilidad habrá de que estos problemas persistan o empeoren, por lo cual, la intervención temprana puede ayudar a los niños a lograr mayor éxito en la lectura, la escritura, el trabajo escolar y las relaciones interpersonales (60).

Para el niño la rehabilitación auditiva puede incluir: el diagnóstico audiológico completo, la adaptación de una amplificación auditiva adecuada, la percepción del habla y el entrenamiento específico en estrategias de comunicación que comprenden: intervención relacionada con el habla, el lenguaje y el desempeño académico, incluyendo la literalidad (procesos de lectura y escritura); incluso, los miembros de la familia del niño, deben quedar amparados en un programa de rehabilitación (30).

Actualmente existe controversia respecto a cuál método de rehabilitación de niños con dificultades en la recepción del lenguaje produce resultados óptimos, sin embargo, se debe elegir aquel que le permita al niño adquirir el lenguaje, le facilite un intercambio natural, significativo y abundante para favorecer su desarrollo intelectual, ya que de esto dependerá su éxito escolar y su progreso en la vida (30,61).

2.8.1 Intervenciones tecnológicas

Las intervenciones tecnológicas para un niño con pérdida auditiva incluyen audífonos por vía aérea o por vía ósea, IC y sistemas de frecuencia modulada FM. Los audífonos proporcionan acceso al sonido amplificado y pueden ser utilizados por los niños tan pronto como se diagnostican con una pérdida auditiva; los IC en cambio no amplifican el sonido, pero estimulan directamente el nervio auditivo con impulsos eléctricos, que

permiten la percepción del sonido (61). Estas ayudas auditivas facilitan el acceso del lenguaje, favorecen la adquisición de vocabulario, proporcionan mayor familiaridad con la gramática e incluso permiten el desarrollo de estrategias para deducir el significado de algunas señales audibles (30). Adicionalmente se requiere un apoyo terapéutico para favorecer el desarrollo de dichas habilidades.

2.8.2 Opciones de comunicación

Se refieren a la modalidad o método mediante el cual los niños y sus familias recibirán y expresarán el lenguaje; estos pueden ser el oralismo, el lenguaje de señas o bilingüismo.

- Terapia auditiva – verbal: La meta de este enfoque para las personas con una pérdida auditiva es desarrollar su habilidad para reconocer el lenguaje, usando señales auditivas e interpretando experiencias auditivas (30). Durante esta terapia los padres participan en sesiones individualizadas con el niño para aprender como optimizar el aprendizaje auditivo de sus hijos en las situaciones diarias; se requiere el uso habitual de tecnología auditiva, como audífonos o IC para apoyar el desarrollo del lenguaje comprensivo y expresivo de los niños, y con ello permitir que participen en el mundo oyente tanto social y educativo (61). En este enfoque no se emplea comunicación manual y no se enseña al niño explícitamente a utilizar pistas visuales como la lectura labial (61).
- Terapia auditivo - oral: Este enfoque también se basa en un uso óptimo de la tecnología auditiva, el desarrollo del lenguaje hablado, y la integración en la comunidad oyente, con la participación de la familia; la diferencia respecto al enfoque auditivo – verbal, es que este fomenta el uso de la lectura de labios, la expresión facial y gestos naturales (61).
- Lengua de señas: Es una lengua que constituye un sistema que contiene rasgos convencionales, posee una gramática de combinación y una semántica propia; puede estudiarse en todos los componentes lingüísticos: fonológico, morfológico, semántico y pragmático y desde las diferentes disciplinas lingüísticas, especialmente desde la psicolingüística y la sociolingüística (62). La amplificación no es un elemento necesario en este enfoque, sin embargo, este enfoque no excluye a los niños del uso de amplificación o del desarrollo de sus habilidades de escucha y lenguaje expresivo (61).

- Comunicación total: Incorpora el uso de cualquier y todos los medios de comunicación, incluyendo el lenguaje de señas, la lectura de labios, deletreo con los dedos, los gestos, el lenguaje corporal y la expresión facial, además del desarrollo de las habilidades de habla y escucha (61). El objetivo de este enfoque es proveer un ambiente comunicativo efectivo y menos restrictivo entre los niños que tienen pérdida auditiva y las personas con las que interactúan (61).

Algunos aspectos de los programas de tratamiento, que se supone tienen un impacto positivo en los resultados de los niños que tienen una pérdida auditiva incluyen (61):

- Detección temprana de la pérdida auditiva
- Uso óptimo de la tecnología auditiva apropiada
- Ingreso temprano en un programa de desarrollo de la comunicación
- Terapia individual
- Participación de los padres/familia/cuidadores
- Continuidad en el cuidado
- Ingreso regular y monitoreo
- Intervenciones basadas en el hogar (principalmente en familias desfavorecidas)
- Intervención basada en el centro (en combinación con la intervención basada en el hogar)
- Integración en las aulas de clase

2.9 Pronóstico

Entre más temprano ocurra la pérdida de audición en la vida del niño, más severos son los efectos sobre el desarrollo; del mismo modo, cuanto antes se identifica el problema y se inicia la intervención, menos serio es el impacto final (42). En un estudio se demostró que ante el inicio temprano de una intervención, menor es el desfase en el desarrollo de las habilidades comunicativas de los niños con pérdida auditiva con relación al desarrollo lingüístico de niños normo-oyentes (63).

Mediante la detección temprana es posible obtener efectos positivos sobre el desarrollo del niño sordo debido a que por una parte se logra un aprovechamiento óptimo del

llamado periodo crítico para la adquisición del lenguaje, el cual, según varios autores podría situarse dentro de los primeros 3 ó 4 años de vida y por otra, se logra evitar y/o reducir en esta etapa de mayor plasticidad neural, la reorganización funcional que ocurriría en el sistema nervioso en condiciones de privación auditiva (64).

Los efectos de una pérdida auditiva sobre la comunicación dependen de varios factores (30,61):

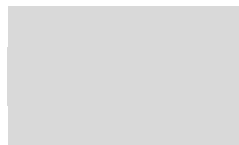
- Edad de aparición de la pérdida auditiva (prelingual o poslingual)
- Edad de detección de la pérdida auditiva
- Duración de la pérdida auditiva
- Grado de la pérdida auditiva
- Configuración audiométrica de la pérdida auditiva
- Tipo de pérdida auditiva (conductiva, sensorial, neural, central, funcional)
- Grado y naturaleza del problema de percepción del habla
- Forma de su aparición (gradual o súbita)
- Estrategias de compensación usadas por el individuo para suplir la pérdida auditiva
- Edad de implantación
- Necesidades comunicativas del sujeto.
- Educación (educación general o especial)

Sin embargo, el impacto de la pérdida auditiva en niños en el desarrollo del lenguaje y habla, educación y función psicosocial varía según el grado de pérdida auditiva (Tabla 2-3) (65).

Tabla 2-3: Impacto de la pérdida auditiva en niños según el acuerdo al grado de severidad.

Pérdida auditiva leve (26dB a 40dB HL)	Lenguaje y habla	<ul style="list-style-type: none"> • El grado de dificultad en el colegio dependerá del nivel de ruido del salón, la distancia del profesor y la configuración de la pérdida auditiva. • Los niños con pérdida auditiva de 35 dB o 40 dB pueden perder como mínimo el 50% de las discusiones en clase. • No escucharán las consonantes, en especial cuando la pérdida auditiva es en las frecuencias altas.
	Educación	<ul style="list-style-type: none"> • Se benefician con un audífono y el uso de un sistema de frecuencia modulada FM personal o campo libre en el salón. • Puede necesitar atención y apoyo especial en el desarrollo del vocabulario y del lenguaje, la articulación y la lecto-escritura.

Pérdida auditiva moderada (41 a 55 dB HL)	Función psicosocial	<ul style="list-style-type: none"> • Los niños pierden la habilidad de audición selectiva y tienen gran dificultad en suprimir el ruido de fondo, lo que hace que el aprendizaje sea muy tensionante. • Se suelen fatigar en el aula más que sus compañeros debido al esfuerzo que hacen para escuchar.
	Lenguaje y habla	<ul style="list-style-type: none"> • Sin amplificación, la cantidad de señal de habla que se pierde puede ser entre 50 a 75% con 40dB y entre 80 y 100% con 50dB. • Es posible que haya sintaxis defectuosa, vocabulario limitado, producción vocal imperfecta y cualidad de voz atonal
	Educación	<ul style="list-style-type: none"> • Es esencial la amplificación (audífonos y sistema FM). • Requieren apoyo fonoaudiológico, principalmente en primaria. • Generalmente es necesaria la terapia auditivo verbal.
	Función psicosocial	<ul style="list-style-type: none"> • Debido al uso permanente de audífono y/o sistema FM el niño puede ser juzgado por sus compañeros y adultos como aprendiz menos competente, dando como resultado un pobre concepto de sí mismo.
Pérdida auditiva severa (71 a 90dB)	Lenguaje y habla	<ul style="list-style-type: none"> • Si la adquisición de la pérdida es pre lingüística, es posible que el lenguaje oral y el habla no se desarrollen espontáneamente o estarán severamente retardados. Si la pérdida auditiva es postlingual es posible que se deteriore la cualidad de su habla y se vuelva atonal. • Sin amplificación puede oír voces fuertes solo a 30 cm del oído.
	Educación	<ul style="list-style-type: none"> • Necesita un programa de terapia durante todo el tiempo con énfasis en las habilidades auditivas, en desarrollo conceptual y en habla. • La amplificación (audífonos y sistema FM) se deben utilizar permanentemente. • Se necesita la capacitación del docente.
	Función psicosocial	<ul style="list-style-type: none"> • El niño o niña puede preferir otros niños con pérdida auditiva como amigos y compañeros. Esto puede aislarlos de la integración; sin embargo estas relaciones con compañeros pueden mejorar el concepto de sí mismo.
Pérdida profunda (91 dB HL o más)	Lenguaje y habla	<ul style="list-style-type: none"> • Son conscientes de las vibraciones más que del patrón de tonalidad. • Muchos niños dependen de la visión más que de la audición como principal guía de aprendizaje y comunicación. • La detección de los sonidos del habla depende de la configuración de la pérdida y del uso de amplificación.
	Educación	<ul style="list-style-type: none"> • Necesita un programa de terapia especial según las características individuales y el tipo de amplificación, con énfasis en todas las habilidades lingüísticas y las áreas académicas. • El programa necesita supervisión especial y servicios de apoyo adecuados. • La amplificación auditiva temprana es fundamental si forma parte de un programa terapéutico intensivo. • Puede ser candidato para implante coclear.



Función
psicosocial

- Dependiendo de la competencia auditiva oral, del uso de la lengua manual por sus compañeros, de la actitud de sus padres, el niño o la niña puede o no preferir la asociación con la cultura sorda.

Para que un niño con trastornos auditivos pueda desarrollar su capacidad comunicativa oral debe cumplir obligatoriamente ciertas condiciones: Un diagnóstico temprano, una correcta adaptación protésica, tratamiento fonoaudiológico especializado, entrenamiento auditivo e implicación tanto de la familia como de la escuela, sin embargo, cada niño es singular, y por tanto no puede aseverarse qué nivel exacto de competencias lingüísticas y de habla podrá adquirir sin conocer su caso en particular y su evolución (66).

El uso de IC se ha asociado con desenlaces favorables como lo son obtener puntuaciones positivas en términos de percepción del habla, la inteligibilidad del habla y menos problemas socio emocionales en comparación con los niños que no tienen implante coclear (61).

2.10 Normatividad vigente respecto al tamizaje auditivo neonatal y recomendaciones de guías de práctica clínica nacionales

En la tabla 2-4 se presenta una descripción de las normas, proyectos de ley y recomendaciones desarrolladas para el contexto colombiano para la inclusión de programas de tamización auditiva neonatal.

Tabla 2-4: Legislación y recomendaciones adaptadas al contexto colombiano para el desarrollo de programas de tamización auditiva neonatal.

Fuente	Descripción	Procedimiento
Proyecto de acuerdo 257 de 2012. Plan de Desarrollo Distrital "Bogotá Humana" 2012-2016 (13).	<p>Establecer la obligatoriedad del tamizaje universal neonatal auditivo y visual neonatal y residentes para todos los neonatos pertenecientes a la población en estado de pobreza y vulnerabilidad primordialmente los de estrato 1 y 2 que no se encuentren afiliados al régimen contributivo de seguridad social en salud, nacidos y residentes en la ciudad de Bogotá D.C. Se busca identificar de forma precoz a los niños que tengan pérdida auditiva y visual, para que sean intervenidos antes de los dieciocho meses de edad y se pueda realizar cualquier tipo de procedimiento quirúrgico que requiera el paciente de acuerdo a su patología de base.</p> <p>El presente proyecto se encuentra enmarcado en el artículo 46 del Plan de Desarrollo Distrital "Bogotá Humana" 2012 – 2014, dentro del programa "Garantía del desarrollo integral de la primera infancia", en la segunda meta de impacto, que señala "Destinar una partida para atender al 5% de la población nacida (50 mil niños) dentro del cuatrienio; y se busca implementar el tamizaje universal auditivo y visual neonatal gratuito para los menores de estratos 1 y 2".</p>	No se indican las estrategias de tamizaje a emplear.
Ley 982 de 2005, artículo 42 (14).	<p>Artículo 42: "Todo niño recién nacido tiene derecho a que se estudie tempranamente su capacidad auditiva y se le brinde tratamiento en forma oportuna si lo necesitare".</p> <p>Artículo 43: "Será obligatoria la realización de los estudios que establezcan para tal efecto las normas emanadas por el Ministerio de la Protección Social conforme al avance de la ciencia y la tecnología para la detección temprana de la hipoacusia, a todo recién nacido, antes del primer año de vida"</p> <p>Nivel de evidencia 2B.</p>	No se indican las estrategias de tamizaje a emplear.
Norma Técnica para la Detección de las Alteraciones de Crecimiento y Desarrollo en el Menor de 10 Años (15).	<p>En caso de detección de alteraciones auditivas o identificación de factores de riesgo de hipoacusia neonatal como: "Ventilación mecánica por más de cinco días, peso en el momento del nacimiento inferior a 1.500 gramos, hiperbilirrubinemia grave neonatal, malformaciones craneofaciales, meningitis bacteriana a cualquier edad, accidente hipóxico isquémico a cualquier edad, traumatismo craneoencefálico severo, empleo de medicamentos ototóxicos en ciclos sucesivos, presencia de otitis media aguda recidivante o crónica persistente durante más de tres meses y otras infecciones que se asocien a hipoacusia, antecedentes familiares de sordera neurosensorial", realizar valoración auditiva.</p>	PEA o PEATC en los primeros meses de vida.
Guía de práctica clínica:	Se recomienda hacer tamización universal para hipoacusia a los RN sanos, a término y sin	Se puede realizar con cualquiera

Detección de anomalías congénitas en el recién nacido (16).	<p>factores de riesgo, luego de las 24 horas de nacido o antes del egreso hospitalario.</p> <p>La escogencia del método depende de la disponibilidad local y la experiencia de cada institución.</p> <p>Los RN que por cualquier motivo han tenido que ingresar a UCI (prematuridad, bajo peso al nacer, ictericia, alteraciones de la transición, riesgo de infección, etc.) se consideran RN con "factores de riesgo". En estos RN se recomienda realizar las dos pruebas e interpretarlas en paralelo: anormal si cualquiera de las dos es positiva y normal solamente si ambas son negativas para hipoacusia.</p> <p>En caso de resultado anormal, en cualquiera de las dos pruebas, el paciente debe ser remitido para estudio confirmatorio y de etiología</p> <p>Fuerza de la recomendación: Fuerte a favor</p>	de los dos métodos aceptados: OEA o PEATC.
Guía de práctica clínica del recién nacido sano (17).	<p>Se debe realizar tamización para hipoacusia a todos los RN sanos, a término y sin factores de riesgo, ya que se calcula que uno de cada 1000 niños, nace con sordera bilateral profunda (mayor a 90 decibeles) y cinco de cada 1000 con otras formas de sordera (mayor a 40 decibeles)"(18).</p> <p>Efectos adversos se reporta ansiedad de los padres por falsos positivos, que se observó más frecuentemente cuando tenían algún familiar con alteraciones de audición (19–22).</p>	<p>“Administrar la tamización para hipoacusia luego de las 24 horas de nacido o antes del egreso hospitalario mediante OEA o PEATC y en caso de obtener un resultado anormal en cualquiera de las dos pruebas, el paciente debe ser remitido para estudio confirmatorio y de etiología (19). Realizar la tamización auditiva con PEAA y con OEA en paralelo.</p>
Guía de práctica clínica del recién nacido prematuro (23).	<p>La estrategia propuesta consiste en realizar dos pruebas de tamizaje en paralelo a los recién nacidos prematuros, ya que se incrementa la sensibilidad, sin embargo, en caso de obtener anormalidad en cualquiera de las pruebas el niño debe ser remitido para investigación.</p> <p>Si las pruebas no fueron realizadas en el periodo recomendado, o si el paciente egresa sin tamización auditiva, deben realizarse tan pronto como sea posible durante el seguimiento ambulatorio (24).</p>	<p>Se debe esperar a que el niño tenga al menos 34 semanas de edad postconcepcional e idealmente se realizarán a la semana 38 de edad gestacional.</p>

2.11 Evaluaciones económicas en salud

La evaluación económica en salud consiste en una comparación de los costos y beneficios en salud de dos o más tecnologías indicadas para abordar un problema de salud específico (72–75). Se fundamenta en el análisis marginal en su definición económica (en donde se evalúa el aporte o el costo adicional de producir una unidad adicional de resultados) y contribuye al proceso de asignación eficiente de los recursos disponibles (76). En general, el objetivo de una evaluación económica es ofrecer información relevante para los tomadores de decisiones, basada en la mejor evidencia, para promover una asignación eficiente de los recursos disponibles que permitan maximizar el bienestar de los usuarios del sistema de salud (77).

Los componentes básicos de cualquier evaluación económica son identificar, cuantificar, valorar y comparar costos y consecuencias de las alternativas consideradas (78).

2.11.1 Tipo de evaluaciones económicas en salud

Los análisis económicos en salud abordan aspectos relacionados con las prioridades para la sociedad, donde el objetivo es lograr el mayor beneficio en salud por unidad monetaria invertida (por ejemplo, \$ o €). Este tipo de análisis permite aclarar la relación entre los costos y las consecuencias de una (nueva) tecnología sanitaria en comparación con una o más alternativas pertinentes actualmente utilizadas para la tamización, diagnóstico, tratamiento, rehabilitación o prevención (79).

Existen cuatro tipos de análisis económicos en salud que son relevantes para la evaluación de tecnologías en salud y se presentan a continuación:

- **Análisis de costo efectividad:**

En el análisis de costo-efectividad (ACE) se identifican, cuantifican y valoran tanto los costos como las consecuencias derivadas del uso de las tecnologías de salud comparadas (79). Se caracteriza porque los resultados sanitarios se expresan en forma de unidades naturales, habitualmente utilizadas en la clínica. Los resultados pueden medirse como variables intermedias (reducción de la presión arterial, curas logradas, complicaciones evitadas y otras) o finales (vidas salvadas, años de vida ganados, por

ejemplo). Un requisito para poder aplicar este tipo de análisis es que los efectos de las opciones comparadas se midan en las mismas unidades (80). Este tipo de análisis permite llegar a la conclusión sobre cuál de las tecnologías comparadas es la más costo efectiva para alcanzar un objetivo determinado y en qué escala (74).

- **Análisis de costo utilidad:**

Es un tipo especial de análisis de costo efectividad en el que los resultados sanitarios se miden como años de vida ajustados por calidad (AVAC) (80). En este análisis los años de vida ganados son ajustados por la calidad de vida relacionada con salud (CVRS) (79). La ventaja de los AVAC es que permiten incorporar, en una sola medida, cambios en la esperanza y en la calidad de vida (80). El análisis de costo utilidad permite comparar los resultados de las intervenciones en distintas actividades del sector de la salud. Por ejemplo, un análisis de costo utilidad podría permitir comparar la costo efectividad de las artoplastias de cadera con la costo efectividad de la prevención de enfermedades cardiovasculares, debido a que la misma medida de resultado (AVAC) puede emplearse de manera significativa (79).

- **Análisis de minimización de costos:**

Es una evaluación de eficiencia para identificar la alternativa de menor costo cuando las alternativas comparadas no difieren de forma significativa en las consecuencias alcanzadas. Se espera que haya suficiente evidencia sobre la similitud de los resultados de las tecnologías comparadas para que el análisis se reduzca a observar los costos (81).

- **Análisis de costo beneficio:**

En este análisis se comparan los beneficios incrementales de una intervención frente a sus costos incrementales. Los costos y los beneficios son expresados en unidades monetarias y su diferencia equivale al beneficio social neto generado. Para cuantificar monetariamente los beneficios de las intervenciones sanitarias se utilizan tres enfoques: el de capital humano que valora el aumento o disminución de la productividad en el mercado del individuo cuando está sano; el de preferencias reveladas que identifica el valor para un individuo de un riesgo en salud frente a su renta; el de valoración contingente que busca identificar la disponibilidad a pagar (81). El análisis de costo beneficio permite obtener una visión general respecto a si la tecnología es económicamente deseable, es decir, si las ganancias superan los costos. Este análisis

difiere con el de costo efectividad y costo utilidad en que permite incluir un rango amplio de desenlaces o resultados (79).

2.11.2 Metodología para la realización de estudios de evaluación económica

- Problema de decisión:

El manual metodológico para la elaboración de evaluaciones económicas en salud en Colombia desarrollado por el Instituto de Evaluación Tecnológica en Salud (IETS) sugiere iniciar una evaluación económica de tecnologías en salud con una pregunta de investigación económica definida en estructura PICOT, que sea factible de ser resuelta con la información disponible y que considere todas las tecnologías en salud relevantes para el tomador de decisiones. La población debe ser descrita de acuerdo a las características demográficas, epidemiológicas y clínicas de la población colombiana; la intervención corresponde a la(s) tecnología(s) en salud que serán evaluadas con respecto a la tecnología comparadora y la(s) tecnología(s) comparadoras corresponden a aquellas que suelen ser la práctica clínica habitual dentro del contexto colombiano, sólo se deben incluir aquellas que cuenten con un registro sanitario asignado por el INVIMA para la patología de interés; para los desenlaces, el IETS recomienda emplear los años de vida ajustados por calidad (AVAC) como medida de desenlace debido a que permite combinar tanto el impacto de las tecnologías incluidas en la evaluación económica sobre la calidad de vida, como el impacto que estas tienen sobre la expectativa de vida de la población objeto de análisis (10).

- Horizonte temporal:

El horizonte temporal debe reflejar el periodo en el cual se esperan diferencias entre los efectos clínicos y las consecuencias en términos de costos asociados al uso de las tecnologías en salud que son objeto de la evaluación económica, que en muchos casos puede abarcar la expectativa de vida (10).

- Perspectiva:

Corresponde al punto de vista del estudio (81). El IETS recomienda la perspectiva del sistema de salud colombiano, la cual implica incluir el valor de todos los recursos directos asociados al uso de la tecnología objeto de la evaluación y los beneficios en salud

percibidos directamente por los pacientes, sin incluir cambios en la productividad o costos o beneficios en otros sectores de la sociedad (10).

- Tasa de descuento:

La aplicación de una tasa de descuento permite comparar los costos y los beneficios en salud que ocurren en distintos momentos del tiempo, ya que las personas valoran de manera diferente los costos o los beneficios según el momento en el que ocurra. En general, las personas tienden a valorar más los beneficios en el presente que los mismos beneficios en el futuro debido, entre otras razones, a la incertidumbre y a la expectativa de mayores ingresos en el futuro. En Colombia se recomienda aplicar una tasa de descuento común del 5% anual y realizar un análisis de sensibilidad con tasas de descuento del 0%, 3,5%, 7% y 12% (10). Se debe aplicar una tasa de descuento tanto para los costos como para los desenlaces en salud en el caso que el horizonte temporal de la evaluación económica sea superior a un año (10).

- Desenlaces:

Se recomienda elegir desenlaces que capturen el cambio en la salud atribuible a la intervención, que capturen el impacto tanto en la duración como en la calidad de vida y que sea generalizable entre diferentes enfermedades e intervenciones. La medida de desenlace recomendada para la elaboración de evaluaciones económicas en el contexto colombiano son los AVAC debido a que permite realizar comparaciones entre tecnologías de diferentes áreas de la enfermedad que compiten por un mismo presupuesto, y sirven como insumo para informar la toma de decisiones (10).

Los AVAC son una unidad de medida de las preferencias de los individuos respecto a la calidad de vida que se ha producido mediante una intervención sanitaria, combinada con los años ganados respecto a un determinado estado de salud (82). Esta medida combina la duración de la vida y la utilidad de la salud. Como utilidad se entiende el valor que se le asigna a la calidad de vida, enfrentado a un estado de salud particular. Se mide en una escala de 0 a 1, donde 1 es la salud perfecta y 0, la muerte (83).

Otra medida que se emplea frecuentemente en los análisis económicos son los AVAD (Años de vida ajustados por discapacidad). Los AVAD reflejan las pérdidas o empeoramiento de la salud, en los cuales un valor cercano a cero representan estados de salud más o menos buenos (o con pequeñas pérdidas de salud), mientras que valores cercanos a 1 representan peores estados de salud. Las ponderaciones de discapacidad

para el cálculo de los AVAD fueron calculadas a partir de un consenso de expertos, por lo que no reflejan las preferencias sociales con respecto a resultados en salud, sino que fueron diseñados con el propósito de cuantificar la carga de la enfermedad (84), y de servir como un indicador de las pérdidas de vida saludables asociadas a diferentes enfermedades y lesiones (10).

- Costos:

El cálculo de costos suele hacerse a partir del precio de mercado de los recursos que se expresa en unidades monetarias. Los costos pueden clasificarse en costos directos, indirectos o de productividad e intangibles. Los costos directos son todos los relacionados con la intervención para el sistema, los proveedores, los individuos y sus familias, independientemente de quién soporte estos costos. Los costos indirectos o de productividad son los relacionados con pérdidas de productividad de los individuos, debidos a la enfermedad o a su tratamiento, y que impactan a la sociedad; los costos indirectos en el sector sanitario sólo se incluyen en el análisis si hay una clara relación con la intervención, por esta razón se recomienda señalar por qué estos costos se consideran importantes y que método se ha utilizado para calcularlos. Los costos intangibles son los que se deben al sufrimiento o pérdida en la calidad de vida, debidos a la intervención y que afectan a los destinatarios de la misma. Estos costos son difíciles de medir y valorar, por lo que frecuentemente se dejan fuera del análisis. Se recomienda tener precaución cuando se estiman estos costos debido a que, si bien son importantes en la evaluación económica, sus métodos de evaluación son débiles (81).

Las metodologías disponibles para el ejercicio de costeo son el microcosteo, costeo basado en actividades, costeo de caso tipo, ajuste de costos y costeo por factura emitida (10).

- Modelo de decisión:

Por lo general es necesario realizar una modelación matemática para sintetizar toda la información y realizar la estimación de costos y resultados esperados de cada tecnología (10). Los modelos matemáticos son una herramienta que permite sintetizar la evidencia de efectividad, seguridad, costos y preferencias así como hacer extrapolaciones de los resultados a poblaciones más grandes que la población incluida en los estudios clínicos, e incluso ampliar el horizonte temporal de dichos resultados o traducir desenlaces intermedios a desenlaces finales (85,86), así como explicar la variabilidad e

incertidumbre alrededor del problema de decisión planteado (10). Para elegir el tipo de modelo más apropiado se deben tener en cuenta aspectos como la condición clínica de interés, la historia natural de la enfermedad y disponibilidad de información en cuanto a población, efectividad y costos de las tecnologías (10).

Con respecto a las fuentes de información para los diferentes parámetros del modelo, la estimación del efecto de las intervenciones debe extraerse de una revisión sistemática de la literatura (12). En general, se debe priorizar la información proveniente de ensayos clínicos aleatorizados, de estudios de cohortes analíticas o de estudios de validez diagnósticas que hayan sido realizados en Colombia, siempre que cumplan con los criterios de calidad establecidos en el manual de efectividad y seguridad del IETS (12).

- **Presentación e interpretación de resultados en análisis económicos:**

Se debe realizar un análisis incremental de los resultados de costos y efectividad. Cuando se comparan los costos y resultados de dos tecnologías en salud pueden surgir cuatro escenarios (10):

1) La nueva tecnología es más costosa y menos efectiva que la alternativa de comparación (tecnología “dominada”); 2) La nueva tecnología es menos costosa y más efectiva (tecnología “dominante”); 3) La nueva tecnología es menos costosa y menos efectiva o 4) Es más costosa y más efectiva.

En el caso de tecnologías no dominantes o dominadas, debe calcularse la relación incremental de costo-efectividad (RICE), así (10):

$$\text{Relación incremental de costo – efectividad: } \frac{\Delta C}{\Delta E} = \frac{C_i - C_j}{E_i - E_j}$$

Δi, j tales que i: tecnología intervención; j: tecnología comparador

Donde el numerador representa el costo incremental de la tecnología i comparada con la tecnología j y el denominador la efectividad incremental en la unidad seleccionada, que para el caso base correspondería a los AVAC. Esta razón indica el costo adicional por cada AVAC ganado con la tecnología intervención (10).

La RICE debe ser comparada con un umbral para poder interpretar los resultados de la evaluación económica. Asumiendo que el sistema de salud cuenta con un presupuesto fijo, la relación incremental de costo-efectividad de una tecnología se compara con un umbral (λ), que representa el costo de oportunidad, en términos de salud, de desplazar otros programas y servicios de salud con el fin de liberar los recursos necesarios para financiar la nueva tecnología. Una nueva intervención se considera costo efectiva si los beneficios en salud de la nueva intervención son mayores que los beneficios en salud perdidos como consecuencia del desplazamiento de otras intervenciones, o en otras palabras, si la $RICE < \lambda$ (10).

En Colombia, el IETS sugiere comparar la RICE con 1 PIB per cápita y 3 PIB per cápita, según la sugerencia de la OMS. Los datos del PIB per cápita se deben obtener de los reportes del Banco de la República, para el año en el cual se realiza la evaluación, denominando la intervención como “costo-efectiva” en caso que la RICE sea inferior a 1 PIB per cápita y como “potencialmente costo-efectiva” si es inferior a 3 veces el PIB per cápita (10).

- **Análisis de incertidumbre:**

La incertidumbre se refiere a que no es posible saber con absoluta certeza cuales son los efectos esperados de una intervención, sobre la población objetivo de pacientes que reciben el tratamiento. Esta incertidumbre puede estar relacionada con las estimaciones de los parámetros incluidos en los modelos de decisión o puede estar relacionada con juicios de valor científico y los supuestos que se hacen en la construcción de un modelo. Es importante no confundir la incertidumbre con la variabilidad que puede caracterizar a los componentes de la evaluación económica, y que no es posible cambiar con el desarrollo del estudio como, por ejemplo, la heterogeneidad en cuanto a las características demográficas de la población objetivo (y que pueden afectar los resultados de la evaluación económica) (10).

Cuando se presenta variabilidad por ejemplo, respecto a las diferencias entre los patrones de tratamiento a través de diferentes regiones geográficas o heterogeneidad en la población objetivo del estudio, se recomienda realizar un análisis de sensibilidad o análisis por subgrupos, respectivamente (10).

Si se presenta incertidumbre respecto al modelo, por ejemplo respecto a la estructura del modelo, los métodos analíticos utilizados, los supuestos, fuentes de datos o los parámetros del modelo, se sugiere realizar análisis de sensibilidad determinísticos de una sola vía o multivariados, análisis de umbral o análisis de valores extremos, métodos de validación de los modelos o análisis de sensibilidad probabilísticos (10).

3. Metodología

3.1 Tipo de estudio

Se realizó un ACE para determinar cuál de las estrategias de tamización auditiva neonatal universal recomendadas por GPC nacionales resulta costo efectiva en la población de RN dentro de un programa de tamización en el contexto colombiano y para establecer si el diagnóstico e intervención temprana de la hipoacusia congénita bilateral de grado moderado a profundo mejora los desenlaces clínicos y económicos desde la perspectiva del sistema de salud colombiano.

3.2 Revisión sistemática de características operativas y seguridad de las estrategias de tamización para la detección de hipoacusia congénita bilateral

Se realizó una revisión sistemática para identificar las características operativas de las estrategias de tamización auditiva de interés. La pregunta de evaluación definida para esta revisión fue la siguiente:

¿Cuáles son las características operativas del tamizaje auditivo neonatal con otoemisiones acústicas y/o potenciales evocados auditivos automatizados, comparados con potenciales evocados auditivos de tallo cerebral, para la detección de hipoacusia congénita bilateral >40dB en el mejor oído, en recién nacidos sanos a término, sin factores de riesgo?

La estructura PICOT de la pregunta de investigación se presenta en la tabla 3-1.

Tabla 3-1: Estructura PICOT de la revisión sistemática de características operativas.

P	RN sanos, a término (38 a 42 semanas de edad gestacional) sin factores de riesgo de pérdida auditiva, nacidos en ámbito hospitalario en Colombia.
I	<ul style="list-style-type: none"> • Tamización auditiva neonatal con OEA • Tamización auditiva neonatal con PEAA • Tamización auditiva neonatal con OEA + PEAA
C	PEATC de diagnóstico.
O	<ul style="list-style-type: none"> • Características operativas de las estrategias de tamización auditiva (sensibilidad y especificidad). • Eventos adversos serios y frecuentes.
T	Periodo de tiempo en el que se realiza la tamización (durante el primer mes de vida).

De acuerdo a las recomendaciones establecidas en el manual para la elaboración de evaluaciones de efectividad, validez diagnóstica y seguridad del IETS (12), se identificaron los dispositivos médicos disponibles en el país con registro INVIMA, empleados para la tamización auditiva neonatal. El listado de los equipos de OEA, PEAA y PEATC disponibles en el país se presenta en el anexo A.

3.2.1 Criterios de elegibilidad de la evidencia

Se buscaron revisiones sistemáticas de pruebas diagnósticas que cumplieran con los siguientes aspectos:

- Objetivos claramente establecidos, con criterios de elegibilidad de estudios previamente definidos
- Metodología explícita y reproducible
- Búsqueda sistemática
- Evaluación de la validez de los resultados de los estudios incluidos
- Presentación sistemática y una síntesis de las características y resultados de los estudios.
- Reporte de datos cuantitativos para al menos una comparación y desenlace de interés

En caso de no identificar evidencia con este diseño, se estableció identificar estudios primarios de validez diagnóstica, verificando que fueran de alta calidad metodológica. Se

seleccionaron publicaciones en idioma inglés y español y no se estableció restricción en la fecha de publicación. En la tabla 3-2 se presentan los criterios de elegibilidad definidos.

Tabla 3-2: Criterios de elegibilidad para la selección de estudios en la revisión de pruebas diagnósticas.

Criterios de inclusión	Criterios de exclusión
<ol style="list-style-type: none"> 1. Población: RN sanos y sin factores de riesgo, nacidos en contexto hospitalario. 2. Pruebas índices: OEA y/o PEAA empleadas para tamización, realizadas previo al egreso hospitalario o antes del mes de edad. 3. Estándar de referencia o gold standard: PEATC diagnóstico. 	<ol style="list-style-type: none"> 1. Se excluyeron estudios en los que la prueba índice y el estándar de referencia no fueron aplicados en todos los recién nacidos evaluados. 2. Se excluyeron estudios en los que las pruebas índices fueron consideradas como estándares de referencia.

3.2.2 Búsqueda de la evidencia

Se diseñó una estrategia de búsqueda de alta sensibilidad compuesta por lenguaje libre y vocabulario controlado explotado (MeSH, Emtree y DeCS) a partir de la estrategia PICOT, ajustando la sintaxis de la búsqueda, de acuerdo a la base de datos. La estrategia de búsqueda se complementó con identificadores de campo, truncadores, operadores de proximidad, operadores booleanos y se emplearon filtros validados por tipo de estudio. Se emplearon los filtros de búsqueda de SIGN para identificar los diseños de estudios de interés (revisiones sistemáticas y estudios de pruebas diagnósticas) (87).

La búsqueda sistemática se llevó a cabo en las siguientes bases de datos electrónicas:

- MEDLINE In-Process & Other Non-Indexed y Daily Update (Plataforma Ovid)
- EMBASE (Elsevier)
- Cochrane Database of Systematic Reviews (Plataforma Wiley)
- Database of Abstracts of Reviews of Effects EBM Reviews (DARE) (Plataforma Wiley)
- LILACS (Biblioteca Virtual en Salud - BVS, interfaz iAHx)

Adicionalmente se realizó una búsqueda en otras fuentes como: Literatura gris (Open Grey), Google Scholar, revisión de referencias de estudios relevantes y de artículos relacionados.

3.2.3 Tamización de referencias y selección de estudios

Las referencias fueron tamizadas por dos revisores de forma independiente, revisando los títulos y resúmenes frente a los criterios de elegibilidad predefinidos en la tabla 6 y en la estructura PICOT.

En los casos de duda sobre el cumplimiento de los criterios de elegibilidad, se revisó el estudio correspondiente en texto completo para orientar la decisión. En los casos que se presentaron discrepancias entre los pares revisores, se solucionó por acuerdo. No se midió el grado de acuerdo entre evaluadores.

El grupo de referencias preseleccionadas fueron revisadas en texto completo para verificar el cumplimiento de los criterios de elegibilidad. Los estudios no recuperados en texto completo se clasificaron como estudios excluidos.

3.2.4 Actualización de la búsqueda de estudios primarios

Se realizó una actualización de la evidencia mediante la búsqueda de estudios primarios que cumplieran con los criterios de elegibilidad definidos en la revisión sistemática seleccionada.

La estrategia de búsqueda reportada en la revisión sistemática seleccionada se complementó con términos adicionales incluidos en la estrategia de búsqueda original diseñada para la presente revisión. Adicionalmente se empleó el filtro de búsqueda de SIGN para identificar estudios de pruebas diagnósticas y no se aplicó ninguna restricción por idioma o por fecha de publicación.

Las búsquedas se llevaron a cabo en las bases de datos previamente mencionadas.

3.2.5 Evaluación de la calidad de la evidencia

La calidad de los estudios seleccionados se evaluó mediante la herramienta AMSTAR la cual se emplea para evaluar revisiones sistemáticas de la literatura (88). No se empleó la herramienta QUADAS-2 para la evaluación de estudios de pruebas diagnósticas ya que ningún estudio fue seleccionado durante la actualización de la evidencia.

3.2.6 Extracción de datos y síntesis de la evidencia

Solo un revisor realizó la extracción de los datos de los estudios seleccionados. Sólo se extrajo información de revisiones sistemáticas de alta calidad metodológica o de aquellas que a pesar que tuviera una calidad metodológica menor, incluyeran metanálisis para alguna comparación y desenlace de interés, y reportaran una búsqueda exhaustiva de evidencia; en caso de seleccionar una revisión sistemática de menor calidad metodológica, los resultados se basarían en los efectos reportados por los estudios primarios con mayor ponderación en el metanálisis, como se recomienda en el manual de evaluaciones de efectividad del IETS (12).

Las características de los estudios seleccionados se resumieron a partir de lo reportado en las publicaciones originales, empleando los formatos estandarizados sugeridos en el manual de evaluaciones de efectividad del IETS (12) y el Cochrane Handbook for Diagnostic Test Accuracy Reviews (89), el cual sugiere emplear la plantilla de extracción de datos de RevMan para revisiones de pruebas diagnósticas.

Se elaboraron perfiles de evidencia GRADE con el fin de calificar la calidad del cuerpo de evidencia de los estudios seleccionados.

3.2.7 Análisis estadístico

No se realizó meta-análisis de los estudios identificados debido a que el estudio seleccionado correspondía a una revisión sistemática con meta-análisis. Los resultados se describen de forma narrativa.

3.3 Revisión sistemática de efectividad y seguridad del inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita bilateral

Se realizó una revisión sistemática de efectividad y seguridad para establecer la efectividad del inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita bilateral, incluyendo el tratamiento quirúrgico, adaptación de ayudas auditivas y rehabilitación auditiva, según sea requerido. La pregunta de evaluación definida para esta revisión fue la siguiente:

¿Cuál es la efectividad del tratamiento temprano para la hipoacusia congénita bilateral (adaptación de ayudas auditivas o intervención quirúrgica y rehabilitación auditiva) comparado con un inicio tardío del tratamiento, en niños con diagnóstico de hipoacusia congénita bilateral >40dB en el mejor oído?

La estructura PICOT de la pregunta de investigación se presenta en la tabla 3-3.

Tabla 3-3: Estructura PICOT de la revisión sistemática de efectividad del inicio temprano del tratamiento.

- P** Recién nacidos con diagnóstico confirmado de hipoacusia congénita bilateral (>40dBHL), sin comorbilidades adicionales, candidatos a manejo quirúrgico y terapéutico mediante implante coclear y/o ayudas auditivas y rehabilitación auditiva.
- I** Inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita bilateral (antes de los 12 meses de vida).
- C** Inicio tardío para el tratamiento de hipoacusia congénita (después de los 12 meses de vida)
- O**
- Desarrollo del lenguaje
 - Nivel de desarrollo social
 - Desarrollo de habilidades cognitivas
 - Coeficiente intelectual
 - Seguridad del tratamiento
- T** Resultados obtenidos a los 5 años de edad.

3.3.1 Criterios de elegibilidad de la evidencia

Inicialmente se buscaron revisiones sistemáticas de ensayos controlados aleatorizados, de estudios de cohortes analíticas y revisiones sistemáticas con comparaciones indirectas o múltiples.

Ante la ausencia de evidencia de estudios secundarios que respondieran la pregunta de interés, se buscaron estudios primarios de ensayos controlados aleatorizados; sin embargo, tampoco se identificaron estudios con este diseño por lo cual se buscaron finalmente estudios de cohortes analíticas.

Se incluyeron publicaciones en idioma inglés y español y no se indicó alguna restricción en la fecha de publicación. En la tabla 3-4 se presentan los criterios de elegibilidad definidos para esta revisión.

Tabla 3-4: Criterios de elegibilidad para la evaluación de efectividad y seguridad del inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita bilateral.

Criterios de inclusión	Criterios de exclusión
<ol style="list-style-type: none"> 1. Población: Niños con diagnóstico confirmado de hipoacusia congénita bilateral (>40dBHL en el mejor oído) 2. Intervención: Inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita bilateral (antes de los 12 meses de vida) con IC y/o adaptación de ayudas auditivas y rehabilitación auditiva. 3. Comparador: Inicio tardío para el tratamiento de hipoacusia congénita (después de los 12 meses de vida) con implante coclear, adaptación de ayudas auditivas y rehabilitación auditiva. 4. Desenlaces: Desarrollo del lenguaje, nivel de desarrollo social, desarrollo de habilidades cognitivas, coeficiente intelectual, seguridad del tratamiento. 	<ol style="list-style-type: none"> 1. Niños con otras comorbilidades. 2. Seguimiento menor a un año.

3.3.2 Búsqueda de la evidencia

Para esta revisión también se diseñó una estrategia de búsqueda de alta sensibilidad compuesta por lenguaje libre y vocabulario controlado explotado (MeSH, Emtree y DeCS) a partir de la estrategia PICOT, ajustando la sintaxis de la búsqueda, de acuerdo a la

base de datos. Se emplearon los filtros de búsqueda de SIGN para identificar los diseños de estudios de interés (revisiones sistemáticas, ensayos controlados y cohortes analíticas) (87).

La búsqueda sistemática se llevó a cabo las mismas bases de datos electrónicas mencionadas previamente para la revisión de pruebas diagnósticas, incluyendo las mismas fuentes de literatura gris.

3.3.3 Tamización de referencias y selección de estudios

Se realizó el mismo procedimiento descrito previamente durante la revisión de pruebas diagnósticas.

3.3.4 Evaluación de la calidad de la evidencia

La calidad de los estudios seleccionados se evaluó con las siguientes herramientas, según el diseño del estudio:

- Revisiones sistemáticas: Herramienta AMSTAR (88).
- Estudios de cohortes: riesgo de sesgo de la colaboración Cochrane (11).

3.3.5 Actualización de la búsqueda de estudios primarios

Se realizó una actualización de la evidencia mediante la búsqueda de estudios primarios que cumplieran con los criterios de elegibilidad definidos en la revisión sistemática seleccionada.

Se realizó una actualización de la revisión sistemática seleccionada para la síntesis de evidencia, mediante la búsqueda de estudios primarios debido a que su última fecha de búsqueda fue del año 2010. Se consultaron las bases de datos electrónicas previamente mencionadas, se complementó la estrategia de búsqueda reportada en el artículo con los términos definidos en la estrategia de búsqueda original. No se realizó restricción por fecha de publicación

La estrategia de búsqueda reportada en la revisión sistemática seleccionada se complementó con términos adicionales incluidos en la estrategia de búsqueda original

diseñada para la presente revisión. Adicionalmente se empleó el filtro de búsqueda de SIGN para identificar estudios de cohortes analíticas y no se aplicó ninguna restricción por idioma o por fecha de publicación.

Las búsquedas se llevaron a cabo en las bases de datos previamente mencionadas.

3.3.6 Actualización de la búsqueda de estudios primarios

Solo un revisor realizó la extracción de los datos de los estudios seleccionados. Se extrajo información los estudios que cumplieron con los criterios de elegibilidad previamente definidos y que presentaron una calidad metodológica aceptable debido a la escasa información identificada; sin embargo se evaluó la calidad del cuerpo de evidencia para cada desenlace evaluado mediante los perfiles de evidencia GRADE.

Las características de los estudios seleccionados se resumieron a partir de lo reportado en las publicaciones originales, empleando los formatos estandarizados sugeridos en el manual de evaluaciones de efectividad del IETS (12) y el Manual Cochrane de revisiones sistemáticas de intervenciones.

3.3.7 Análisis estadístico

No se identificaron revisiones sistemáticas con metanálisis ni tampoco fue posible obtener una medida combinada del efecto a partir de estudios primarios debido a la heterogeneidad de los estudios respecto a la forma de medición de los desenlaces (diferentes escalas empleadas) y el tiempo de seguimiento. Los resultados se describen de forma narrativa.

3.4 Evaluación económica

3.4.1 Análisis de costo efectividad

Para la realización del ACE se establecieron los siguientes aspectos (Tabla 3-5):

Tabla 3-5: Elementos considerados para el análisis de costo efectividad.

Problema de decisión	¿Cuál es la costo efectividad de la tamización auditiva neonatal con OEA y/o PEAA comparado con el diagnóstico clínico por síntomas, en RN en Colombia?
Población objetivo	RN, nacidos en ámbito hospitalario.
Intervenciones	<ul style="list-style-type: none"> • OEA + inicio temprano del tratamiento • PEAA + inicio temprano del tratamiento • OEA + PEAA + inicio temprano del tratamiento
Comparador	Diagnóstico clínico por síntomas (No tamización, diagnóstico e inicio tardío del tratamiento)
Perspectiva de la evaluación	Sistema de salud colombiano
Horizonte temporal	Expectativa de vida de la población colombiana.
Tasa de descuento	Tasa de descuento del 5% para los costos y los desenlaces. Se llevarán a cabo análisis de sensibilidad con tasas de descuento de 0 %, 3,5 %, 7 % y 12 %.
Datos clínicos	Los datos de validez diagnóstica y efectividad del tratamiento para la hipoacusia congénita se obtuvieron de las revisiones sistemáticas de la literatura mencionadas anteriormente.
Medidas de resultados en salud	Años de vida ajustados por discapacidad (AVAD).
Estimación de costos	Se incluirán costos directos que afectan al sistema de salud; estos costos incluyen los costos relacionados con la implementación de un programa de tamización, las tecnologías en evaluación y los costos asociados a diagnóstico, tratamiento y rehabilitación.
Modelamiento	Se realizó una búsqueda en la literatura económica disponible con el fin de identificar modelos relevantes para resolver el problema de decisión. Se evaluó la calidad metodológica de los estudios seleccionados mediante la herramienta QUES (25). A partir de la información identificada, se desarrolló un modelo de árbol de decisiones para reflejar el proceso de tamización hasta el inicio del tratamiento y seguimiento de la condición.
Análisis	Se calcularon las razones incrementales de costo-efectividad. Se calcularon los costos totales por cada estrategia y por cada nivel de severidad de hipoacusia en particular (moderada, severa y profunda). Se estableció como regla de decisión comparaciones entre la razón incremental y 1 PIB per cápita y 3 PIB per cápita.
Análisis de incertidumbre	Se estudió mediante un análisis de sensibilidad determinístico y un análisis de sensibilidad probabilístico. En el análisis de sensibilidad determinístico univariado se incluyeron la tasa de descuento, la validez diagnóstica de las tecnologías, AVAD, costos y se representaron mediante un gráfico de tornado. Para evaluar la incertidumbre conjunta, se llevó a cabo un análisis de sensibilidad probabilístico y sus resultados se representaron mediante curvas de aceptabilidad y diagramas de dispersión.

3.4.2 Estimación de costos

La perspectiva para la estimación de costos fue la del tercer pagador, por lo que solo se incluyeron los costos directos expresados en pesos colombianos.

El ejercicio de costeo se realizó a partir de la metodología caso tipo. Se estimaron los costos directos de la hipoacusia congénita bilateral por grado de severidad (mayor de 40dBHL: moderado, severo, profundo). Se incluyeron los costos asociados a la implementación del programa tamización auditiva, adquisición de las tecnologías, procedimientos y pruebas para el diagnóstico, tratamiento, rehabilitación y seguimiento.

A continuación se explica en detalle cada uno de los pasos empleados para la estimación de costos:

- Identificación de eventos generadores de costos: Se revisaron protocolos de manejo, guías de práctica clínica y literatura biomédica y se confirmaron con expertos clínicos.
- Cuantificación de eventos generadores de costos: La cuantificación de los eventos se realizó durante la consulta a expertos temáticos.
- Valoración monetaria: La valoración monetaria se realizó a partir de la consulta de los manuales SOAT 2016 e ISS 2001 + 30%. En los casos que no se obtuvo información sobre las tecnologías o procedimientos a evaluar, se solicitaron los precios proveedores de las tecnologías e instituciones prestadoras de salud con cobertura en Bogotá y en ambos regímenes de aseguramiento.

3.4.3 Modelo de historia natural de la hipoacusia congénita

Se realizó una búsqueda sistemática en las bases de datos electrónicas previamente mencionadas para identificar literatura económica en la que se hubieran desarrollado modelos analíticos que respondieran al problema de decisión planteado desde todas sus dimensiones (población, tecnologías intervención y comparador, desenlaces y horizonte temporal). Esta revisión no tuvo como objetivo obtener una medida agregada de los resultados de los estudios, sino sólo se realizó para obtener información acerca de los tipos de modelos y supuestos empleados, con el fin de desarrollar un modelo de novo en caso de no existir un modelo previo (10,91).

La calidad metodológica y del reporte de los estudios económicos seleccionados se evaluó con la herramienta QHES (Quality of Health Economic Studies). Este instrumento suele emplearse para evaluar tres tipos de análisis económicos en salud: minimización de costos, costo efectividad y costo utilidad. La herramienta evalúa el uso apropiado de métodos y la presentación amplia, válida y transparente de los resultados en cada estudio mediante un listado de 16 preguntas, en las cuales cada una cuenta con una ponderación o peso específico; sólo se asignó la puntuación total de cada pregunta si la respuesta correspondía a “Sí”. La puntuación perfecta para un estudio es de 100 puntos (90).

Se planteó inicialmente desarrollar un modelo de Markov para modelar la progresión de la condición y estimar los costos a largo plazo; sin embargo, durante la búsqueda de la literatura no fue posible identificar información que permitiera definir las probabilidades de transición entre diferentes estados de la enfermedad de acuerdo al nivel de severidad de la hipoacusia. Por esta razón se decidió continuar con un modelo de árbol de decisión.

3.4.4 Estimación de años de vida ajustados por discapacidad (AVAD)

Considerando que no existen medidas de AVAC adaptados al país, se realizó una búsqueda para identificar AVAD. Los AVAD miden la brecha entre el estado de salud actual y un estado de salud de “vida sana”, en el que todo el mundo vive hasta una edad avanzada sin enfermedades y discapacidades (92).

Para el cálculo de los AVAD se extrajeron las ponderaciones de discapacidad estimadas por la OMS por grado de severidad de hipoacusia entre el periodo 2000 – 2011 (93) (Tabla 3-6) y se consideró la expectativa de vida en Colombia (74 años). Se empleó una tasa de descuento del 5% por año.

Tabla 3-6: Pesos promedio de discapacidad para la pérdida auditiva por el umbral.

Umbrales	Grado de severidad	Peso de discapacidad promedio al inicio de la infancia
25dB	Leve	0,0031
35dB	Moderado	0,0150
50dB	Moderado a severo	0,0916
65dB	Severo	0,2469
80dB	Profundo	0,3402
95dB	Completo	0,3342

Los AVAD se calcularon a partir de las siguientes formulas (94):

$$AVAD = AVP + AVPD$$

Donde,

$$AVP = \frac{N}{0,03} (1 - e^{-0,03L})$$

AVP = Años de vida perdidos por muerte prematura

N = Número de muertes

L = Expectativa de vida estándar a la edad de muerte, en años

$$AVPD = \frac{IDW (1 - e^{-0,03L})}{0,03}$$

AVPD= Años de vida perdidos por discapacidad

I = Número de casos incidentes

DW = Peso de la discapacidad

L = Duración del caso hasta la remisión o muerte (años)

4.Resultados

4.1 Revisión sistemática de las características operativas y seguridad de las estrategias de tamización para la detección de hipoacusia congénita bilateral

4.1.1 Búsqueda de evidencia

Las estrategias de búsqueda empleadas en cada base de datos para identificar revisiones sistemáticas se presentan en el anexo B y la estrategia de búsqueda empleada para la actualización de la evidencia se encuentra en el anexo C. En la búsqueda de revisiones sistemáticas, se identificó un total de 149 referencias. Después de la remoción de duplicados, se obtuvieron 131 referencias para su revisión por título y resumen.

4.1.2 Tamización de referencias y selección de estudios

Se seleccionaron 15 estudios para su revisión en texto completo. Solo 1 estudio cumplió con los criterios de elegibilidad para ser incluido en la síntesis de evidencia. Los resultados de la tamización y selección se presentan en el anexo H.

Durante la actualización de la evidencia, se identificaron 609 referencias. Se tamizó un total de 577 referencias de las cuales, 2 fueron seleccionadas para revisión en texto completo. No se identificaron estudios primarios de pruebas diagnósticas adicionales, los resultados del proceso de actualización se presentan en el anexo I.

El listado de estudios seleccionados se presenta en el anexo M y el listado de los estudios excluidos con su respectiva justificación se presenta en el anexo N.

4.1.3 Calidad de la evidencia

La calidad de la evidencia de la revisión sistemática seleccionada se evaluó mediante la herramienta AMSTAR. Sus resultados se presentan en el anexo O. Se obtuvo una calidad media (7 puntos) debido a que la selección de los estudios no fue pareada, no se reportan los estudios que fueron excluidos, ni tampoco se evaluó la probabilidad de sesgo de publicación. A pesar que esta revisión no presentaba una alta calidad metodológica, se decidió incluirla en el análisis ya que presentaba un meta análisis para los desenlaces de interés (características operativas de las pruebas de tamización).

4.1.4 Síntesis de la evidencia

Los resultados de la revisión de características operativas de las pruebas de tamización auditiva neonatal, se basan en una revisión sistemática de pruebas diagnósticas de calidad media (95). Los perfiles de evidencia GRADE que resumen los resultados obtenidos se presentan en los anexos T y U.

4.1.5 Descripción de los estudios

Las características del estudio incluido en la síntesis de evidencia se presentan en el anexo R.

4.1.6 Características operativas y seguridad

En el estudio seleccionado se compararon las dos estrategias de tamización de interés versus PEATC en niños menores de un año con y sin factores de riesgo.

A mayor sensibilidad de una prueba, menor es la probabilidad de obtener casos falsos negativos, por lo tanto a mayor especificidad, menor es la probabilidad de falsos positivos.

La revisión sistemática elegida (Heidari, 2015) incluyó un estudio el cual también fue obtenido durante la búsqueda de evidencia, pero fue descartado (Wolff, 2010) debido al estándar de referencia que tomaba (PEAA), el cual no es apropiado ya que también es una estrategia de tamización.

En el estudio se obtuvo una alta fuente de heterogeneidad por diferentes causas, entre ellas, la ausencia de enmascaramiento de los resultados de las pruebas de tamización y del estándar de referencia, muestras no representativas de la población y por la calidad de los estudios.

Aunque en el estudio seleccionado mencionan que una de las limitaciones del estudio fue la falta de acceso a plataforma como EMBASE y la falta de acceso a unas publicaciones en texto completo en inglés, durante la actualización, no se identificaron estudios que cumplieran los criterios de elegibilidad de la revisión original, por lo que fueron incluidos.

Ambas estrategias de tamización tienen una alta precisión para detectar niños con audición normal, sin embargo, hay una diferencia significativa entre la sensibilidad de las dos estrategias para detectar niños con pérdida auditiva (OEA: 0.77; PEAA: 0.93).

Considerando las implicaciones de la detección temprana de pérdida auditiva, las complicaciones y la carga socio económica de la detección tardía de este defecto, la PEAA parece ser más eficiente que la OEA en un protocolo de tamización auditiva de sola etapa.

En la revisión de Heidari, 2015 no se reportan eventos adversos asociados al uso de las pruebas diagnósticas.

4.2 Revisión sistemática de efectividad y seguridad del tratamiento temprano para la hipoacusia congénita

4.2.1 Búsqueda de evidencia de revisiones sistemáticas

Las estrategias de búsqueda empleadas en cada base de datos para identificar revisiones sistemáticas se presentan en el anexo D y la estrategia de búsqueda empleada para la actualización de la evidencia se encuentra en el anexo E. En la búsqueda de revisiones sistemáticas, se identificó un total de 229 referencias. Después de la remoción de duplicados, se obtuvieron 225 referencias para su revisión por título y resumen.

4.2.2 Tamización de referencias y selección de estudios de revisiones sistemáticas

Se seleccionaron 8 estudios para su revisión en texto completo. Solo 2 estudios cumplieron con los criterios de elegibilidad, sin embargo ninguno de los estudios reportó una síntesis cuantitativa. Los resultados de la tamización y selección se presentan en el anexo J.

Los estudios seleccionados no reportaron desenlaces de seguridad relacionados con el uso de implante coclear, razón por la cual, se realizó una búsqueda rápida de la literatura para identificar eventos adversos asociados a la intervención quirúrgica del implante coclear. Se emplearon los siguientes términos: Cochlear implantation, Adverse events, Safety, Adverse effects, long term adverse effects, complications, re-implantation. Se seleccionó una revisión sistemática.

Posteriormente se realizó la actualización de las revisiones sistemáticas seleccionadas mediante la búsqueda de estudios primarios. Se empleó la estrategia de búsqueda reportada en Wolff, 2010 debido a que la estrategia de búsqueda de Vlastarakos, 2010 no estaba disponible en el texto y la estrategia reportada en Forli, 2011 no incluía términos relacionados con intervención temprana o tardía. Esta se complementó con términos de la estrategia de búsqueda diseñada inicialmente.

Se identificaron 191 referencias. Se revisó un total de 189 referencias de las cuales, 3 fueron seleccionadas para revisión en texto completo. Ninguno de los estudios fue desarrollado con un diseño que permitiera inferir un alto nivel de evidencia (ensayos clínicos controlados o cohortes analíticas), por lo cual, ningún estudio fue seleccionado.

4.2.3 Calidad de la evidencia de las revisiones sistemáticas

La calidad de la evidencia de las revisiones sistemáticas revisadas se evaluó mediante la herramienta AMSTAR. Sus resultados se presentan en el anexo P. En la revisión sistemática de Vlastarakos, 2010 se obtuvo una calidad baja (2 puntos) debido a la ausencia del reporte de la estrategia de búsqueda y el listado de los estudios incluidos; además, no se realizó búsqueda en literatura gris ni se evaluó la calidad de los estudios incluidos. La revisión sistemática de Terry 2015 en la que se reportó la seguridad del

implante coclear, también presentó una baja calidad metodológica (2 puntos) ya que no se reporta si se realizó una selección pareada de los estudios, sólo se realizó la búsqueda de evidencia en una base de datos, no se presenta una tabla de características de los estudios seleccionados, no se evaluó la calidad de los estudios y no se evaluó el sesgo de publicación.

Las revisiones de Wolff, 2010 y Forli, 2011 obtuvieron una calidad moderada (5 y 4 puntos, respectivamente). En ninguna de las dos se realizó búsqueda en literatura gris, no presentaron un listado con los estudios incluidos y excluidos, ni reportaron los hallazgos respecto a la calidad de los estudios incluidos.

Debido a la calidad metodológica de las revisiones seleccionadas, se decidió excluirlas del presente análisis, dado que los hallazgos o datos de efectividad para incluir en el modelo económico deben provenir de evidencia con mayor calidad metodológica; por lo cual, se diseñó posteriormente una estrategia de búsqueda de ensayos controlados con asignación aleatoria.

4.2.4 Búsqueda de evidencia de ensayos controlados con asignación aleatoria

Las estrategias de búsqueda empleadas en cada base de datos para identificar ensayos controlados con asignación aleatoria se presentan en el anexo F.

4.2.5 Tamización de referencias y selección de ensayos controlados con asignación aleatoria

Se revisó un total de 18 referencias por título y resumen. No se identificaron estudios que cumplieran con el diseño de investigación requerido por lo cual ningún estudio fue seleccionado para revisión en texto completo. Los resultados de la tamización y selección de ensayos controlados con asignación aleatoria se presentan en el anexo K.

4.2.6 Búsqueda de evidencia de cohortes analíticas

Las estrategias de búsqueda empleadas en cada base de datos para identificar estudios de cohortes analíticas se presentan en el anexo G. Se identificó un total de 205 referencias. Después de la remoción de duplicados, se obtuvieron 87 referencias para su revisión por título y resumen.

4.2.7 Tamización de referencias y selección de estudios de cohortes analíticas

Se seleccionaron 8 estudios para su revisión en texto completo. Solo 2 estudios cumplieron con los criterios de elegibilidad. Los resultados de la tamización y selección se presentan en el anexo L.

4.2.8 Calidad de los estudios de cohortes analíticas

La calidad de la evidencia de los estudios primarios seleccionados se evaluó mediante la herramienta de riesgo de sesgo de la colaboración Cochrane. Sus resultados se presentan en el anexo Q.

4.2.9 Síntesis de la evidencia

El listado de estudios seleccionados se presenta en el anexo M y el listado de los estudios excluidos con su respectiva justificación se presenta en el anexo N. El perfil de evidencia GRADE se presenta en el anexo V

4.2.10 Descripción de los estudios

Las características de los estudios incluidos en la síntesis de evidencia se presentan en el anexo S. Respecto al desenlace de seguridad, se identificaron las siguientes complicaciones asociadas al tratamiento con implante coclear, posterior a la intervención quirúrgica realizada en población pediátrica y adulta: Problemas vestibulares (3,9%; n=4655), fallas en el dispositivo (3,4%; n= 14704), problemas con los electrodos (1,9%; n=1741), infecciones en la piel (1,3%; n=17878), mastoiditis (1,4%; n= 2996), rechazo del

implante (1,0%; n=1664), seroma o hematoma (0,9%; 5486). Debido a la baja frecuencia de dichos eventos, se decidió no incluirlos en el análisis económico.

4.3 Estudio de costo efectividad

4.3.1 Diseño protocolo de tamización auditiva neonatal

Con el fin de definir los procedimientos a incluir en el presente análisis, se definió una vía de atención general para los casos detectados con alteraciones auditivas durante la tamización auditiva neonatal, teniendo en cuenta el protocolo desarrollado en Washington (Estados Unidos) por expertos en audiolología, el cual incluye las recomendaciones definidas por el JCIH (96). La vía clínica se presenta en la figura 4-1. Es recomendable que todos los RN reciban una tamización auditiva antes del primer mes de edad. Se recomienda que la tamización la realice un fonoaudiólogo(a) o enfermero(a) entrenado, mediante OEA acústicas (trasientes o por producto de distorsión), respuestas auditivas de tallo cerebral (PEATC, PEAA) o una combinación de ambas pruebas. La tamización debería realizarse tan pronto sea posible, preferiblemente antes del egreso hospitalario, después de 12 o más horas del nacimiento; sin embargo puede ocurrir una alta tasa de remisiones debido a residuos en el conducto auditivo externo (por ejemplo, líquido amniótico).

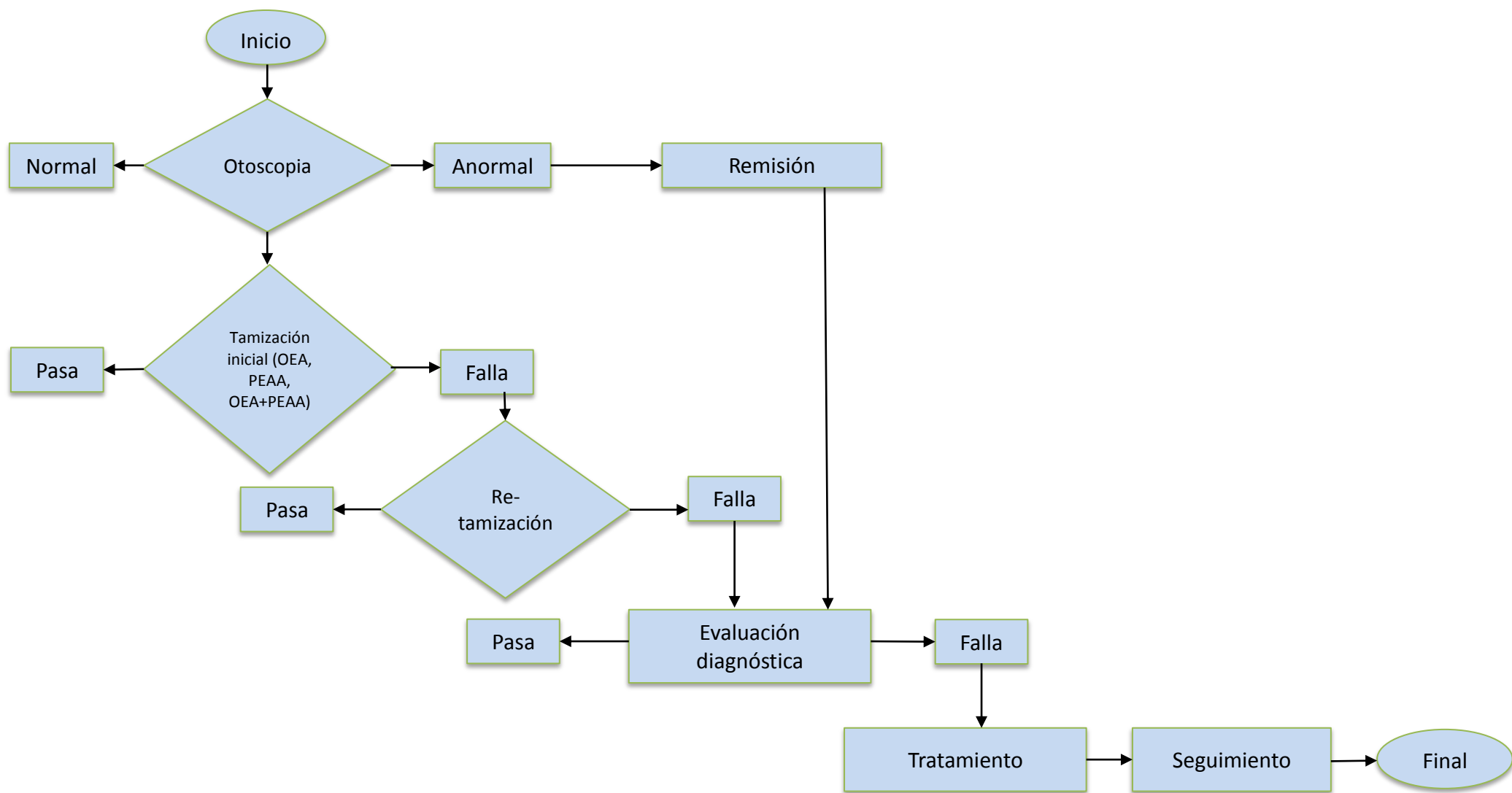
Durante la tamización, ambos oídos deben ser evaluados y sólo se pueden realizar máximo dos intentos en cada oído. En caso que el RN no pase la tamización inicial o no sea posible obtener resultados en uno o ambos oídos, se realizará una re-tamización empleando las mismas pruebas mencionadas previamente. Es importante registrar en la historia clínica del RN los resultados obtenidos durante la tamización inicial y la re-tamización, e informar a los padres y médicos tratantes los resultados de forma verbal y escrita.

Durante la re-tamización también se evalúan ambos oídos y se establecen dos intentos máximos para obtener respuestas. Idealmente, esta tamización también debería realizarse durante el primer mes de vida del RN. Si el RN falla la prueba o no es posible obtener resultados en uno o ambos oídos, el médico tratante deberá remitir al RN para una evaluación audiológica completa.

La evaluación audiológica debe realizarla un audiólogo con experiencia en población infantil, antes de los 3 meses de edad. Si en los resultados se confirma alguna alteración auditiva, se debe definir junto con el médico tratante, ORL u otólogo el tratamiento a seguir, procurando que este proceso se realice antes de los 6 meses de edad; en caso de sobrepasar este tiempo, se recomienda que el tratamiento inicie por lo menos antes del año de edad.

El modelo analítico empleado para el análisis de costo efectividad se desarrolló con el programa TreeAge Pro 2009 (TreeAge Software Inc., Boston, MA, USA).

Figura 4-1: Flujograma de atención para el programa de tamización auditiva neonatal.



4.3.2 Estimación de costos

Para el presente análisis se empleó una metodología de caso tipo para realizar la identificación de los eventos generadores de costos. Para la definición de los costos asociados a la implementación de un programa de tamización se revisaron los elementos considerados durante la implementación del programa ampliado de inmunizaciones (PAI) en Colombia (97). Adicionalmente se consultaron guías de práctica clínica para la identificación de los procedimientos asociados al diagnóstico y tratamiento de niños con diagnóstico de hipoacusia congénita.

La cantidad de equipos requeridos se estimó a partir del número del registro de prestadores de instituciones de salud (REPS) por distribución nacional en instituciones de segundo nivel que contaban con salas de maternidad (98).

Los procedimientos seleccionados para el presente análisis fueron confirmados por expertos clínicos en otorrinolaringología y audiología infantil.

Los costos fueron obtenidos de los manuales tarifarios ISS 2001, SOAT 2016 y en los casos que la información no se encontraba disponible, se consultaron proveedores o instituciones prestadoras de servicios de salud.

En la tablas 4-1 a 4-4 se presentan los costos identificados de acuerdo a la etapa de manejo de la condición.

Tabla 4-1: Identificación, medición y valoración de recursos relacionados con la gestión del programa de tamización auditiva.

Procedimiento	Cantidad total	Valor unitario	Valor total promedio	Fuente
Equipo OEA (TITAN TEOAE440)	154	\$ 26.581.660	\$4.093.575.640	Metroacustik, Bogotá
Equipo PEAA (TITAN ABRIS)	154	\$ 40.930.115	\$6.303.237.710	Metroacustik, Bogotá
Equipo PEAA + OEA (TITAN ABRIS + TEOAE440)	154	\$ 50.790.637	\$7.821.758.098	Metroacustik, Bogotá
Mantenimiento preventivo anual Equipo OEA (TITAN TEOAE440)	154	\$2.658.166	\$409.357.564	Metroacustik, Bogotá (10% del valor del equipo)
Mantenimiento preventivo anual Equipo PEAA (TITAN ABRIS)	154	\$4.093.011,50	\$630.323.771	Metroacustik, Bogotá (10% del valor del equipo)
Mantenimiento preventivo anual Equipo PEAA + OEA (TITAN ABRIS + TEOAE440)	154	\$5.079.063,70	\$782.175.809,80	Metroacustik, Bogotá (10% del valor del equipo)
Administración y seguimiento (anual)	-	\$626.553.917,76	\$626.553.917,76	PAI
Equipo técnico: Fonoaudiólogo y/o enfermero	308	\$ 2.100.000	\$7.761.600.000	Supuesto salario mensual
Demanda inducida: Impresos y publicaciones (anual)	-	\$97.623.088,08	\$97.623.088,08	PAI
Demanda inducida: Comunicaciones (anual)	-	\$544.508.075,05	\$544.508.075,05	PAI
Sistema de información	-	\$147.150.337,33	\$147.150.337,33	PAI

Tabla 4-2: Identificación, medición y valoración de recursos relacionados con la etapa de diagnóstico

Procedimiento	Cantidad total	Valor unitario (ISS+30%)	Valor total promedio anual (ISS+30%)	Rango Valor mínimo anual (ISS)	Valor máximo anual (SOAT 2016)
Consulta de primera vez por medicina especializada (ORL)	3	\$ 16.263	\$ 48.789	\$ 37.530	\$ 97.200
Consulta de primera vez por medicina especializada (Otólogo)	3	\$ 16.263	\$ 48.789	\$ 37.530	\$ 97.200
Consulta de primera vez por medicina especializada (Genetista)	2	\$ 16.263	\$ 32.526	\$ 25.020	\$ 64.800
Resonancia magnética nuclear de cerebro	1	\$ 475.846	\$ 475.846	\$ 366.035	\$ 1.580.500
Tomografía axial computada de oído, peñasco y conducto auditivo interno (cortes axiales y coronales)	1	\$ 138.483	\$ 138.483	\$ 106.525	\$422.200
Citomegalovirus, anticuerpos IG G [CMV-G] por EIA +	1	\$ 22.100	\$ 22.100	\$ 17.000	\$51.000
Rubeola, anticuerpos IG M por EIA	1	\$ 43.466	\$ 43.466	\$ 33.435	\$66.600
Toxoplasma anticuerpo M	1	\$ 41.613	\$ 41.613	\$ 32.010	\$70.100
Serología [Prueba NO trepomenica] VDRL en suero O LCR	1	\$ 5.694	\$ 5.694	\$ 4.380	\$12.200
Hemograma I [Hemoglobina, hematocrito y leucograma] Método manual +	1	\$ 8.437	\$ 8.437	\$ 6.490	\$19.100
Tamizaje metabólico (Hormona estimulante del tiroides TSH neonatal)	1	\$ 29.218	\$ 29.218	\$ 22.475	\$56.800
Uroanálisis con sedimento y densidad urinaria	1	\$ 4.921	\$ 4.921	\$ 3.785	\$12.200
Potenciales evocados auditivos de tallo cerebral (Sitio de lesión)	1	\$ 66.957	\$ 66.957	\$ 51.505	\$139.700
Potenciales evocados auditivos de estado estable	1	\$ 66.957	\$ 66.957	\$ 51.505	\$139.700
Inmitancia acústica (Impedanciometría)	1	\$ 9.328	\$ 9.328	\$ 7.175	\$29.200
Audiometría por refuerzo visual (VRA) +/- observación del comportamiento (BOA)/audiometría por juego condicionado.	1	\$ 13.780	\$ 13.780	\$ 10.600	\$27.800

Logaudiometría. Logaudiometría por señalamiento de láminas y repetición de palabras	1	\$ 13.780	\$ 13.780	\$ 10.600	\$27.800
Total			\$1.070.681	\$823.600	\$2.914.100

Tabla 4-3: Identificación, medición y valoración de recursos relacionados a la etapa de evaluación, selección y adaptación de ayudas auditivas, rehabilitación y seguimiento en pérdidas auditivas de grado moderado.

Procedimiento	Cantidad total	Valor unitario (ISS+30%)	Valor total promedio anual (ISS+30%)	Rango	
				Valor mínimo anual (ISS)	Valor máximo anual (SOAT 2016)
Evaluación, selección y adaptación de ayudas auditivas					
Evaluación y adaptación de prótesis y ayudas auditivas	1	\$ 35.185	\$ 35.185	\$ 27.065	\$ 66.600
Consulta primera vez por psicología	1	\$ 7.170	\$ 7.170	\$ 5.515	\$ 18.800
Suministro audífonos bilaterales*	2	\$ 600.000	\$ 1.200.000	\$ 800.000	\$ 1.800.000
Total anual			\$ 1.242.355	\$ 832.580	\$ 1.885.400
Rehabilitación					
Terapia fonoaudiológica integral	96	\$7.735	\$ 742.560	\$ 571.200	\$ 1.699.200
Terapia ocupacional integral	96	\$7.735	\$ 742.560	\$ 571.200	\$ 1.699.200

Total anual			\$ 1.485.120	\$ 1.142.400	\$ 3.398.400
Seguimiento					
Consulta de control o seguimiento por medicina especializada (ORL)	2	\$16.263	\$ 32.526	\$ 25.020	\$ 64.800
Consulta de control o seguimiento por medicina especializada (Otólogo)	2	\$16.263	\$ 32.526	\$ 25.020	\$ 64.800
Potenciales evocados auditivos de estado estable	2	\$66.957	\$ 133.914	\$ 103.010	\$ 279.400
Inmitancia acústica (Impedanciometría)	2	\$9.327,5	\$ 18.655	\$ 14.350	\$ 58.400
Total			\$ 217.621	\$ 167.400	\$ 467.400

*Valor reportado por proveedor (Metroacustik)

Tabla 4-4: Identificación, medición y valoración de recursos empleados durante la evaluación, selección, procedimiento quirúrgico, activación de ayudas auditivas, rehabilitación y seguimiento de pérdidas auditivas severas y profundas.

Procedimiento	Cantidad total	Valor unitario (ISS+30%)	Valor total promedio anual (ISS+30%)	Rango	
				Valor mínimo anual (ISS)	Valor máximo anual (SOAT 2016)
Evaluación, selección y adaptación de ayudas auditivas					
Evaluación integral por paciente (incluye evaluación por psicología, audiológica y terapia de lenguaje) (actividad	1	\$ 35.185	\$ 35.185	\$ 27.065	\$ 66.600

preimplante)

Participación en junta médica por medicina especializada (paciente)	1	\$ 7.716	\$ 7.716	\$ 5.935	\$ 80.200
Total			\$ 42.901	\$ 33.000	\$ 146.800

Momento quirúrgico

Dispositivo implante coclear*	2	\$ 42.000.000	\$ 84.000.000	\$ 76.000.000	\$ 90.000.000
Implantación o sustitución de prótesis coclear SOD (incluye derechos especialista, derechos anestesiólogo, ayudante quirúrgico, médico, sala y materiales)	2	\$ 2.621.281	\$ 5.242.562	\$ 4.032.060	\$ 6.706.899
Total			\$ 89.242.562	\$ 80.032.060	\$ 96.706.899

Activación implante coclear

Programación inicial de rehabilitación	1	\$ 28.906	\$ 28.906	\$ 22.235	\$ 34.687
Total			\$ 28.906	\$ 22.235	\$ 34.687

Rehabilitación

Entrenamiento mensual auditivo verbal del paciente	24	\$ 183.378	\$ 4.401.072	\$ 3.385.440	\$5.281.296
Terapia ocupacional integral	96	\$ 7.735	\$ 742.560	\$ 571.200	\$1.699.200
Total			\$ 5.143.632	\$3.956.640	\$6.980.496

Seguimiento

Control trimestral de implante	3	\$14.449,5	\$43.349	\$33.345	\$43.349
--------------------------------	---	------------	----------	----------	----------

Consulta de control o seguimiento por medicina especializada (ORL)	2	\$16.263	\$32.526	\$25.020	\$64.800
Consulta de control o seguimiento por medicina especializada (Otólogo)	2	\$16.263	\$32.526	\$25.020	\$64.800
Potenciales evocados auditivos de estado estable	3	\$66.957	\$200.871	\$154.515	\$419.100
Inmitancia acústica (Impedanciometría)	3	\$9.327,5	\$27.983	\$21.525	\$87.600
Total			\$337.254	\$259.425	\$688.318

*Valor reportado por el proveedor Medihumana (2016).

A partir de la valoración de los eventos generadores de costos identificados, se estimó el costo anual por RN según nivel de severidad. Los costos relacionados con la administración del programa de tamización auditiva se calcularon para la población de RN vivos reportada por el DANE en su informe preliminar de 2016; se reportaron 641.493 RN a nivel nacional. Los costos anuales estimados por paciente se presentan en las tablas 4-5 y 4-6.

Tabla 4-5: Costo anual RN con pérdida auditiva moderada.

Procedimientos	Costo promedio	Costo mínimo	Costo máximo
Costo tamizaje PEAA (costo equipo + mantenimiento + programa tamización)	\$ 25.114,84	\$ 20.091,88	\$ 30.137,81
Costo tamizaje OEA (costo equipo + mantenimiento + programa tamización)	\$ 21.325,83	\$ 17.060,66	\$ 25.590,99
Costo tamizaje PEAA+OEA (costo equipo + mantenimiento + programa tamización)	\$ 27.718,73	\$ 22.174,98	\$ 33.262,47
Etapa diagnóstica (costo anual)	\$ 1.070.681,00	\$ 823.600,00	\$ 2.914.100,00
Evaluación y adaptación bilateral de audífonos (1 vez)	\$ 1.242.355,00	\$ 832.580,00	\$ 1.885.400,00
Total rehabilitación (anual)	\$ 1.485.120,00	\$ 1.142.400,00	\$ 3.398.400,00
Seguimiento (anual)	\$ 217.621,00	\$ 167.400,00	\$ 467.400,00

Tabla 4-6: Costo anual RN con pérdida auditiva severa o profunda.

Procedimientos	Costo promedio	Costo mínimo	Costo máximo
Costo tamizaje PEAA (costo equipo + mantenimiento + programa tamización)	\$ 25.114,84	\$ 20.091,88	\$ 30.137,81
Costo tamizaje OEA (costo equipo + mantenimiento + programa tamización)	\$ 21.325,83	\$ 17.060,66	\$ 25.590,99
Costo tamizaje PEAA+OEA (costo equipo + mantenimiento + programa tamización)	\$ 27.718,73	\$ 22.174,98	\$ 33.262,47
Etapa diagnóstica (costo anual)	\$ 1.070.681,00	\$ 823.600,00	\$ 2.914.100,00
Evaluación y selección de ayudas auditivas (1 vez)	\$ 42.900,50	\$ 33.000,00	\$ 146.800,00
Momento quirúrgico	\$ 89.242.562,00	\$ 80.032.060,00	\$ 96.706.899,12
Programación inicial implante	\$ 28.905,50	\$ 22.235,00	\$ 28.905,50
Total rehabilitación (anual)	\$ 5.143.632,00	\$ 3.956.640,00	\$ 6.100.272,00
Seguimiento (anual)	\$ 337.254,00	\$ 259.425,00	\$ 679.648,50

4.3.3 Modelo de historia natural de la hipoacusia congénita

Se realizó una búsqueda sistemática de evaluaciones económicas de tamización auditiva neonatal. La estrategia de búsqueda empleada se presenta en el anexo W. En total se obtuvieron 590 resultados de los cuales 8 estudios fueron seleccionados (anexo X). La información respecto a los tipos de modelos empleados y los supuestos usados en los mismos se tuvieron en cuenta para la elaboración del modelo económico. El listado de los estudios seleccionados y los estudios excluidos se presentan en los anexos Y y Z, respectivamente. La calidad de estudios económicos elegidos se evaluó con la herramienta QHES, mediante la cual se observó una amplia variabilidad en la calidad de los estudios, obteniendo un rango de puntuaciones entre 41 a 92 puntos con un promedio de 73.5 (DE=18.46). El 87.5% (7) de los estudios tuvieron una calificación mayor de 50 puntos. Los resultados obtenidos con la herramienta QHES se presentan en el anexo AA.

Las características de los estudios seleccionados se presentan a continuación:

- Modelo de costo efectividad del Ministerio de Salud del Gobierno de Chile.

En el ACE y el análisis de costo utilidad de Castillo, 2013 (99) se comparó la estrategia selectiva de tamización y tratamiento oportuno de hipoacusia bilateral congénita en RN prematuros (< 32 semanas o < 1.500 gramos) con un programa universal de tamización y tratamiento oportuno. En este estudio la estrategia de tamización selectiva consistía en dos etapas usando PEAA en RN < 32 semanas o <1.500 gr versus toda la población (universal). Aunque en este análisis no se incluyeron las OEA, se consideró relevante incluirlo debido a que incluye los desenlaces asociados al tratamiento de la hipoacusia congénita bilateral en población sin factores de riesgo.

En el estudio se empleó un árbol de decisiones el cual presentaba 6 posibles estados finales de salud: hipoacusia moderada, severa y profunda, en caso de diagnóstico y tratamiento precoz versus diagnóstico y tratamiento tardío. Para el presente análisis se consideró la rama del árbol de decisión de RN sin factores de riesgo (screening universal). La unidad de efectividad empleada fueron los AVAC los cuales fueron calculados mediante los datos de preferencia por estados de salud chilenos con la encuesta EQ-5D, asociando los valores a los estados de salud incluidos en el modelo. La probabilidad de VPP y VPN de las pruebas diagnósticas se calcularon como parámetros secundarios a partir de las prevalencias de la población, la sensibilidad y especificidad de los test en cada etapa.

- Modelo de costo efectividad de tamización auditiva neonatal en China:

El modelo inicialmente fue desarrollado para la implementación de un programa de tamización auditiva neonatal en 8 provincias en China, con el fin de apoyar la formulación de políticas nacionales, basadas en la evidencia. Se simuló una cohorte de neonatos nacidos en las 8 provincias en China en el periodo de 2007 a 2009 y se comparó la tamización auditiva universal versus la tamización selectiva mediante OEA y OEA + PEAA. La cobertura, la tasa de diagnóstico y la de intervención fueron calculadas a partir de las bases de datos de los centros de las 8 provincias, mientras que la otra información fue obtenida a partir de la revisión de la literatura (8).

En el análisis realizado por Tobe, 2013 se empleó la misma estructura del modelo anterior, con el fin de evaluar la costo efectividad del programa de tamización a nivel nacional y determinar la proporción de niños con alteraciones auditivas congénitas permanentes (bilaterales de grado moderado a severo) y de inicio temprano que se beneficiarían potencialmente de un programa de tamización auditiva, donde la detección ocurriera antes de los 6 meses de edad por un proceso de tamización, y que la intervención y diagnóstico ocurrieran antes de los 12 meses de edad (100).

El modelo consistía en un árbol de decisión el cual incluía parámetros como: La proporción de niños con uno o más factores de riesgo, la prevalencia de alteraciones auditivas congénitas permanentes y de inicio temprano en la población en general y en niños con factores de riesgo, la sensibilidad y especificidad de OEA + PEAA, la sensibilidad y especificidad de las OEA, cobertura del programa de tamizaje, tasa de diagnóstico y tasa de intervención.

La unidad de efectividad incluida en el modelo fueron el número de DALYs evitados como resultado de la tamización auditiva ya que el programa no podía cambiar los patrones de incidencia en la población, pero podía mejorar potencialmente el lenguaje y los resultados psicosociales y cognitivos (8).

- Análisis internacional de la costo efectividad de la tamización auditiva neonatal:

Burke, 2012 realizó un análisis internacional con el cual estimó la costo efectividad de dos intervenciones de tamización auditiva neonatal en dos contextos distintos, Reino Unido e India mediante dos modelos de árboles de decisión (6).

En el primer modelo se comparó la tamización auditiva neonatal únicamente con OEA de forma selectiva versus universal. En el segundo modelo se comparó una estrategia de tamización de dos etapas (primero PEAA y después OEA en caso que el niño haya fallado en la primera prueba) versus la una tamización en una sola etapa (OEA). En este estudio no se reportó el horizonte temporal, sin embargo, los modelos sugieren que se consideró un periodo menor a un año.

▪ Modelo de Markov para tamización auditiva a nivel hospitalario versus comunitario:

En el estudio elaborado por Grill, 2006 se desarrolló un modelo para determinar los costos y la efectividad de los sistemas de tamización auditiva neonatal basados en la comunidad o a nivel hospitalario. Se empleó un modelo de transición de estados de Markov que caracterizaba el proceso de tamización y diagnóstico a través de los siguientes estados: Estado desconocido, audición sana confirmada por una prueba diagnóstica o tamizaje (verdaderos negativos), audición sana no confirmada por una prueba diagnóstica, alteración auditiva confirmada por una prueba diagnóstica o tamizaje (verdaderos positivos), sospecha de audición sana, pero en realidad se tiene una alteración auditiva (falso negativo), sospecha de alteración auditiva, pero tiene una audición sana (falso positivo) y no seguimiento/no cumple (101). En este estudio no indicaron las tecnologías de tamización empleadas.

El modelo inicia con una cohorte de RN que se encuentran en un estado desconocido y se aplican probabilidades de transición para simular como los niños progresaban a través de diferentes estados. En cada ciclo (con duración de un mes) los niños podían someterse a varias transiciones posibles, en las que se acumulaban los costos y los pesos de utilidad. En el modelo se consideraron los siguientes supuestos: considerando que los niños detectados (y tratados) dentro de los 6 meses de vida pueden desarrollar habilidades típicas de habla y lenguaje, se ponderó con un valor de 1 por cada mes detectado antes de los 6 meses de edad; si los niños no eran detectados dentro de los 12 meses, aquellos con alteraciones severas y profundas obtuvieron una ponderación de 0.85 y los moderados con 0.90. Presumiendo que el 50% de los RN con alteración auditiva congénita permanente estaban afectados moderadamente, se asignó una ponderación de 0.875 por cada mes que eran detectados después de su primer cumpleaños.

Los procedimientos de tamizaje y diagnóstico fueron presentados bajo el supuesto de independencia condicional, por ejemplo, los parámetros de las pruebas fueron independientes de la prevalencia de la condición y los resultados de las pruebas diagnósticas, fueron independientes de los resultados del tamizaje; la incidencia y la prevalencia de pérdida auditiva bilateral congénita se asumieron iguales.

- Modelo de Markov desarrollado en Alemania:

En el estudio realizado por Hessel, 2003 se compararon tres estrategias de tamización: Tamización universal para todos los RN en el contexto hospitalario, tamización selectiva para todos los RN con factores de riesgo en el contexto hospitalario y no tamización regular. En cada una se emplearon OEA en dos etapas; si en la primera etapa no se detectaban OEAT, la prueba se repetía unos días después; si en la primera o en la segunda etapa se obtenía un resultado negativo, se clasificaba como prueba negativa, en cambio, si durante la primera y segunda prueba se obtenía un resultado positivo, se consideraba un test positivo (102).

Se diseñó un modelo de Markov para estimar los costos y resultados a largo plazo. Cada ciclo tenía una duración de 1 mes y el horizonte temporal fue de 10 años. Todos los RN iniciaban en el estado “desconocido” y terminaban en estados absorbentes como “Detectado con alteración auditiva” o “Saludable, confirmado por diagnóstico”. Las pérdidas tanto en el tamizaje (10%) y al seguimiento después de un resultado positivo (20%) fueron incluidas en los cálculos del modelo (102).

- Modelo de árbol de decisión en Estados Unidos (Keren, 2002):

En el estudio de Keren, 2002 se comparó la tamización auditiva universal y selectiva en términos de beneficios a corto y largo plazo, daños y costos financieros a partir de una cohorte hipotética de 80.000 RN en un estado de Estados Unidos (9)

La tamización universal se planteó en dos etapas antes del egreso hospitalario; inicialmente OEAT y en caso de fallar la prueba, se realizaba PEAA. A este tamizaje se le asignó una sensibilidad de 90.3% y una especificidad de 98.5%. La tamización selectiva también se planteó en dos etapas pero con PEAA, incluso si se fallaba en la primera. Se le asignó una sensibilidad de 90.3% y una especificidad del 99%. Para esta tamización se asumió que el 80% de los RN serían identificados y tamizados.

Se realizó un modelamiento mediante un árbol de decisión, con el cual se estimó la proporción de niños cuya sordera fue diagnosticada a los 6 meses de edad, y entre ellos, la proporción de los que iniciaron intervención temprana a los 12 meses de edad. Finalmente se modeló la proporción de niños, que con intervención antes o después de los 12 meses de edad, tenían habilidades de lenguaje normales al entrar a la escuela. Se asumió que los niños sordos con habilidades normales del lenguaje al entrar a la escuela, tendrían un lenguaje normal como adultos.

De los estudios revisados, sólo en este estudio se modeló la probabilidad que un RN oyente llegara a una evaluación audiológica y se hubiera diagnosticado y tratado incorrectamente como sordo.

- Modelo de árbol de decisión en Estados Unidos (Kezirian, 2001):

En el análisis realizado por Kezirian, 2001 se estimó la razón de costo efectividad de tres protocolos de tamización auditiva universal: OEA/OEA, PEAA y/o PEAA y PEAA/No tamizaje. En los tres protocolos la primera etapa correspondía a la tamización en el periodo inmediato del RN; aquellos que fallaban esta tamización regresaban para una valoración en una segunda etapa, generalmente a la 1 o 6 semana después. Finalmente, la tercera etapa correspondía a la evaluación diagnóstica (103).

Se elaboró un modelo de análisis de árbol de decisión. Las probabilidades específicas de pasar o fallar en la tamización dependían de la prevalencia de la pérdida auditiva y la sensibilidad y especificidad de las pruebas de tamización.

La estructura del modelo incluyó dos supuestos importantes: primero, todos los niños tenían una prueba de tamización inicial. Segundo, en los protocolos que tienen una segunda tamización al seguimiento, aquellos niños que fallaban en esta prueba, procedían con una evaluación diagnóstica sin ninguna pérdida de seguimiento. La unidad de efectividad considerada fueron el número de niños identificados con pérdida auditiva durante el programa de tamización.

4.3.4 Modelo de decisión diseñado para el estudio

A partir de las evaluaciones económicas revisadas previamente se diseñó un modelo el cual representa la historia natural de la hipoacusia congénita en niños que reciben y no reciben tamización auditiva neonatal. El modelo incluye 4 ramas, una representa el

contexto actual en Colombia correspondiente a la “No tamización” y las tres opciones restantes corresponden a las estrategias de tamización auditiva (OEA+PEAA, PEAA y OEA). Se esquematizaron los procedimientos que recibiría un RN sin factores de riesgo de hipoacusia dentro de un programa de tamización auditiva neonatal.

De acuerdo a la evidencia disponible en el país respecto a la cobertura de tamización de otros programas, cada una de las ramas que incluyen estrategias de tamización inicia con una probabilidad de recibir tamización. Posteriormente se realiza la primera prueba de tamización; en caso de obtener un resultado positivo o falla, se remite a una segunda tamización, si se obtiene un resultado normal que no sugiere ninguna alteración, no se remite a re-tamización. Después de la segunda prueba de tamización, si se obtiene un resultado positivo, el RN se remite a pruebas diagnósticas y los casos confirmados de hipoacusia congénita bilateral son remitidos a iniciar tratamiento, rehabilitación y seguimiento. El modelo se desarrolló para determinar la cantidad de años de vida con discapacidad que se evitarían mediante la detección e inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita bilateral moderada, severa y profunda. Se incluyeron los costos asociados a la gestión de un programa de tamización auditiva a nivel nacional, los costos asociados al valor de los equipos, los costos de diagnóstico, tratamiento y rehabilitación de acuerdo al nivel de severidad de la pérdida auditiva. El modelo empleado se presenta en el anexo BB.

En la tabla 4-7 describen los parámetros empleados para cada variable incluida en el modelo y la tabla 4-8 presenta las distribuciones de probabilidad de cada variable.

4.3.5 Supuestos considerados para el modelo

Los supuestos empleados para el presente modelo se presentan a continuación:

1. Se asume que todos los recién nacidos que ingresan en la cohorte de estudio, tienen una expectativa de vida de 74 años, de acuerdo a la información reportada por el DANE.
2. De acuerdo a la consulta realizada a expertos temáticos y la información identificada en la revisión de efectividad y seguridad del inicio temprano del tratamiento, se asume que los RN que recibieron tratamiento temprano para la hipoacusia congénita, mejoraron su desarrollo del lenguaje en habilidades como el desarrollo auditivo

(capacidad para comprender el habla sin lectura facial), desarrollo del habla (producción inteligible del habla), vocabulario receptivo y lenguaje expresivo.

3. Se asume que los RN que recibieron tratamiento temprano y con diagnóstico de hipoacusia bilateral de grado profundo y severo, disminuyen su discapacidad a un grado moderado. Los RN con diagnóstico de hipoacusia bilateral de grado moderado, disminuyen su discapacidad a un grado leve.

Tabla 4-7: Parámetros incluidos en el modelo.

Parámetro	Descripción	Valor en el caso base	Rango análisis de sensibilidad		Fuente
			Mín	Máx	
C_Tam	Costo anual por gestión del programa de tamización, por paciente.	\$ 14.306,37	\$ 11.445,10	\$ 17.167,64	PAI
C_TPEAA	Costo de tamización con PEAA por paciente	\$ 9.825,89	\$ 7.860,71	\$ 11.791,06	MediHumana y REPS
C_TOEA	Costo de tamización con OEA por paciente	\$ 6.381,33	\$ 5.105,06	\$ 7.657,59	MediHumana y REPS
C_TPO	Costo de tamización con OEA+PEAA por paciente	\$ 12.193,05	\$ 9.754,44	\$ 14.631,66	MediHumana y REPS
C_manPEAA	Costo anual por mantenimiento de equipo PEAA	\$ 982,59	\$ 786,07	\$ 1.179,11	MediHumana
C_manOEA	Costo anual por mantenimiento de equipo OEA	\$ 638,13	\$ 510,51	\$ 765,76	MediHumana
C_manPO	Costo anual por mantenimiento de equipo OEA+PEAA	\$ 1.219,31	\$ 975,44	\$ 1.463,17	MediHumana
C_Dx	Costo de pruebas diagnósticas	\$ 1.070.681	\$ 823.600	\$ 2.914.100	ISS 2001, ISS + 30% y SOAT 2016
C_Pps	Costo de tratamiento de pérdidas auditivas profundas y severas	\$ 89.314.368	\$ 80.087.295	\$ 96.882.604,62	ISS 2001, ISS + 30% y SOAT 2016
C_Psm	Costo de tratamiento de pérdidas auditivas moderadas	\$ 1.242.355	\$ 832.580	\$ 1.885.400	ISS 2001, ISS + 30% y SOAT 2016
C_rehm	Costo anual por rehabilitación de pérdidas auditivas moderadas	\$ 1.485.120	\$ 1.142.400	\$ 3.398.400	ISS 2001, ISS + 30% y SOAT 2016
C_rehps	Costo anual por rehabilitación de pérdidas auditivas profundas y severa	\$ 5.143.632	\$ 3.956.640	\$6.980.496,00	ISS 2001, ISS + 30% y SOAT 2016
C_segum	Costo anual por seguimiento de pérdidas auditivas moderadas	\$ 217.621	\$ 167.400	\$ 467.400	ISS 2001, ISS + 30% y SOAT 2016
C_segups	Costo anual por seguimiento de pérdidas auditivas moderadas	\$ 337.254	\$ 259.425	\$ 688.318,20	ISS 2001, ISS + 30% y SOAT 2016
pRN_SFR	Prevalencia de hipoacusia en RN sin factores de riesgo	0,00110	0,00100	0,00320	Castillo 2013 (26)
Tam	Probabilidad de recibir tamización (cobertura de tamización)	0,803	0,802	0,803	Avances en el tamizaje neonatal en Colombia. Instituto Nacional de Salud. Estadísticas Vitales DANE (27)
N_Tam	Probabilidad de no recibir tamización	0,197	0,197	0,198	Complemento Tam
p_Rtam	Probabilidad de asistir a re-tamización	0,520	0,470	0,730	Tasa de recitación. Fuente: Estadísticas vitales DANE. Periodo 2009 - 2013

p_Nrtam	Probabilidad de no recibir re-tamización	0,480	0,530	0,270	Complemento p_Rtam
VPP_PEAA	Valor predictivo positivo PEAA	0,033	0,021	0,0443	Estimado
VPP_OEA	Valor predictivo positivo OEA	0,0119	0,005	0,0188	Estimado
VPP_OP	Valor predictivo positivo OEA+PEAA	0,0109	0,004	0,0175	Estimado
Sen_PEAA	Sensibilidad PEAA	0.93	0.87	0.96	Heidari (2015) (28)
Sen_OEA	Sensibilidad OEA	0.77	0.65	0.86	Heidari (2015) (28)
Sen_PO	Sensibilidad OEA+PEAA	0.9839	0.9545	0.9944	Estimado
Esp_PEAA	Especificidad PEAA	0.97	0.96	0.98	Heidari (2015) (28)
Esp_OEA	Especificidad OEA	0.93	0.92	0.93	Heidari (2015) (28)
Esp_PO	Especificidad OEA+PEAA	0.9021	0.8832	0.9114	Estimado
p_prof	Probabilidad de tener una hipoacusia profunda	0.705882	0.48	0.93	Antoni (2016) (29)
p_Nprof	Probabilidad de no tener una hipoacusia profunda	0,706	0,927	0,485	Complemento p_prof
p_sev	Probabilidad de tener una hipoacusia severa	0,167	0,014	0,347	Antoni (2016) (30)
p_mod	Probabilidad de tener una hipoacusia moderada	0,833	0,653	1,0	Antoni (2016) (30)
Dal_mod	AVAD correspondiente a pérdidas auditivas moderadas	0.015	0.012	0.018	OMS (31)
Dal_sev	AVAD correspondiente a pérdidas auditivas severas	0.2469	0.19752	0.29628	OMS (31)
Dal_prof	AVAD correspondiente a pérdidas auditivas profundas	0.3402	0.27216	0.40824	OMS (31)

Tabla 4-8: Distribuciones de probabilidad empleadas en el modelo.

Variable	Distribución utilizada	Valor esperado de la distribución	Parámetros de la distribución			SD
			Alfa	Beta	u	
pRN_SFR	Beta	0,0011	3,8373	3484,6846		
Tam	Beta	0,8025	2565394,549	631194,088		
Sen_PEEA	Beta	0,930	114,8553	8,6450		
Sen_OEA	Beta	0,77	47,5163	14,1931		
Sen_PO	Beta	0,9839	150,4368	2,4616		
Esp_PEEA	Beta	0,970	1084,368	33,5371		
Esp_OEA	Beta	0,930	9303,27955	700,2468		
Esp_PO	Beta	0,902	1539,4513	167,0682		
p_prof	Beta	0,294	4,802	11,5248		
p_sev	Beta	0,167	3,2013	16,0066		
p_mod	Beta	0,833	13.60566667	2.72113333		
p_Rtam	Beta	0,52	29,5034	27,233988		
C_Tam	Log normal	14306,371			9,56328	0,1017767
C_TPEAA	Log normal	9784,325			9,187597	0,043369
C_TOEA	Log normal	6357,1276			8,75595	0,05254
C_PO	Log normal	12139,477			9,40344	0,039386
C_Dx	Log normal	958392,8411			13,772999	0,005383
C_Pps	Log normal	89211725,902			18,3065	0,0006406
C_Psm	Log normal	1214317,6426			14,00968	0,004807
VPP_PEEA	Beta	0,033	31,704	928,697		
VPP_OEA	Beta	0,012	11,94402	948,9056		
VPP_OP	Beta	0,011	10,5127	949,8874		
C_rehm	Log normal	138793,4491			14,1411	0,0046
C_rehps	Log normal	5086762,311			15,4421	0,0025
C_segum	Log normal	205308,6113			12,2322	0,0109
C_segups	Log normal	321420,5446			12,6804	0,008899
Tas_Des	Beta	0,050	2,5344	48,1534		
C_manPEAA	Log normal	984,427			6,885012	0,118733
C_manOEA	Log normal	641,327			6,4534	0,1425
C_manPO	Log normal	1220,1334			7,101	0,1083
Dal_mod	Beta	0,015	94,5994	6212,0273		
Dal_sev	Beta	0,2469	72,3277	220,6157		
Dal_prof	Beta	0,3402	63,3671	122,8973		
Dal_lev	Beta	0,0031	95,7422	30788,8629		

4.4 Análisis de costo efectividad

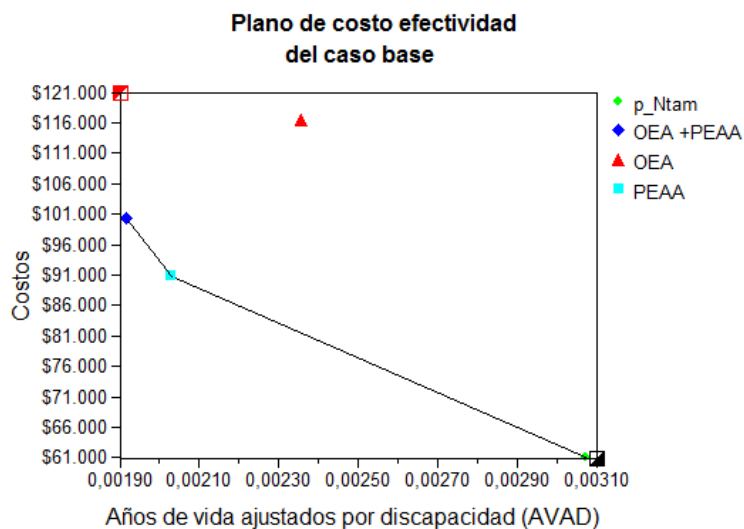
Para la interpretación del presente análisis se requiere considerar que un AVAD equivale a la pérdida de un año con completa salud o 100% saludable, por lo cual los valores cercanos a 0 sugieren una salud perfecta y los valores cercanos a 1 corresponden a una máxima discapacidad.

Considerando que la población de interés para el presente estudio corresponde a los recién nacidos sin factores de riesgo de hipoacusia, se decidió realizar un subanálisis adicional correspondiente a la población total de recién nacidos, incluyendo aquellos que presentan factores de riesgo.

4.4.1 Análisis de costo efectividad en la población de recién nacidos sin factores de riesgo

La figura 4-2 presenta la distribución de las alternativas evaluadas en el plano de costo efectividad, teniendo en cuenta únicamente la población sin factores de riesgo. Se observó que la no tamización auditiva es la estrategia menos costosa; sin embargo, produce una mayor cantidad de años de vida con discapacidad en comparación con las tres estrategias de tamización auditiva. Adicionalmente se observó que las estrategias de tamización que disminuyen un mayor número de años de vida con discapacidad corresponden a la tamización con PEAA y la combinación de OEA+PEAA.

Figura 4-2: Plano de costo efectividad de las estrategias en evaluación para el caso base, en la población sin factores de riesgo.



En la tabla 4-9 se observa que la estrategia de OEA fue dominada por las estrategias OEA+PEAA y PEAA debido a que fueron estrategias menos costosas y más efectivas. El análisis incremental de los resultados de costos y efectividad se llevó a cabo entre dos de las tecnologías no dominadas, OEA + PEAA y PEAA.

Tabla 4-9: Resultados caso base, en la población sin factores de riesgo.

Tecnología	Costo	Costo incremental	Efectividad (AVAD)	Efectividad incremental (AVAD)	Razón de costo efectividad incremental (RICE)
No tamización	\$61.048	0	0,00307	0	-
PEAA	\$90.805	\$29.757	0,00203	0,00104	-\$28.475.516
OEA+PEAA	\$100.237	\$9.432	0,00192	0,00011	-\$83.243.396,00
OEA	\$116.425	\$16.189	0,00236	-0,00044	Dominada

Los resultados del caso base muestran que el costo promedio de un AVAD evitado para un recién nacido con diagnóstico de hipoacusia congénita bilateral de grado moderado, severo o profundo, con una expectativa de vida de 74 años, empleando la tamización con PEAA versus no tamización es de \$28.475.516; el costo por AVAD evitado con tamización OEA+PEAA comparado con la estrategia PEAA es de \$83.243.396 y el costo promedio de un AVAD evitado con OEA+PEAA comparado con no tamización es de \$34.077.391.

Considerando los resultados del caso base, se calcularon los costos asociados a la tamización auditiva en la población total de recién nacidos en Colombia que no presentan factores de riesgo de hipoacusia, tomando la población reportada por el DANE (2016) ($n=641.493$ nacidos vivos) y la probabilidad de no presentar factores de riesgo de hipoacusia ($p_{RN_SFR}= 0,0011$), lo que dio como resultado un total de 706 casos. Los resultados obtenidos se presentan en la figura 4-3 y la tabla 4-10. Como se observó en los resultados del caso base, la estrategia de tamización OEA+PEAA genera menos años de vida con discapacidad en el total de la población (1,35 AVAD) en comparación con la estrategia de PEAA (1,43 AVAD) y la no tamización (2,17 AVAD).

Figura 4-3: Plano de costo efectividad de las estrategias de tamización para la población total de recién nacidos en Colombia.

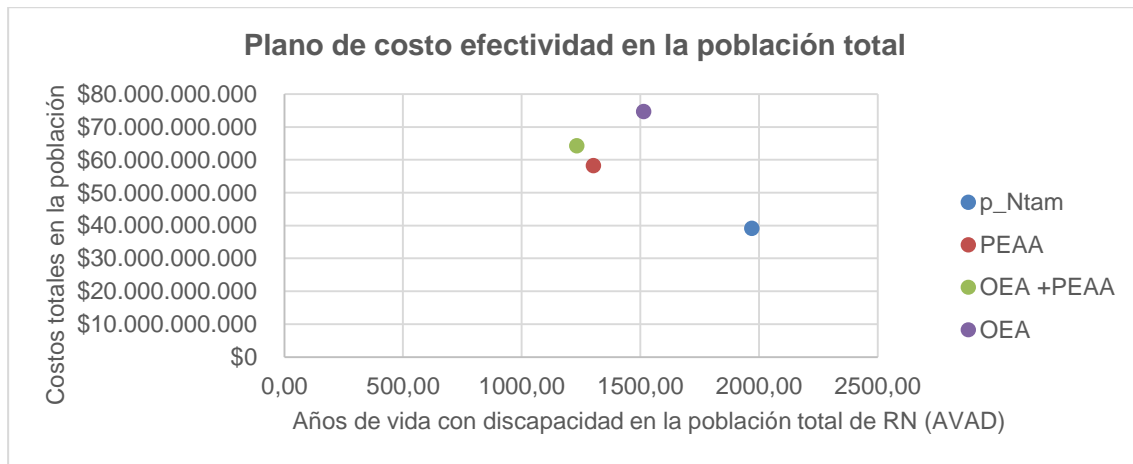


Tabla 4-10: Resultados del caso base aplicados al total de la población de recién nacidos sin factores de riesgo de hipoacusia en el año 2016.

Tecnología	Costo de tamización total en la población SFR	Costo incremental por tamización para el total de RN vivos	Efectividad (AVADs en toda la población)	Efectividad incremental (AVADs evitados en toda la población)	Costo por AVAD evitado
No tamización	\$ 43.078.051	-	2,17	-	-
PEAA	\$ 64.075.849	\$ 20.997.798	1,43	-0,73	\$ 28.475.516
OEA+PEAA	\$ 70.731.467	\$ 6.655.618	1,35	-0,08	\$ 83.243.396
OEA	\$ 82.154.405	\$ 11.422.938	1,67	0,31	Dominada

SFR: Sin factores de riesgo de hipoacusia.

En Colombia, el Manual para la elaboración de evaluaciones económicas del IETS y la OMS (10), sugieren comparar la RICE de la tecnología dominante con el umbral de disposición a pagar definido en el país, el cual corresponde a 1 PIB y 3 PIB per cápita. El valor del umbral de la disponibilidad a pagar se calculó a partir del valor del PIB per

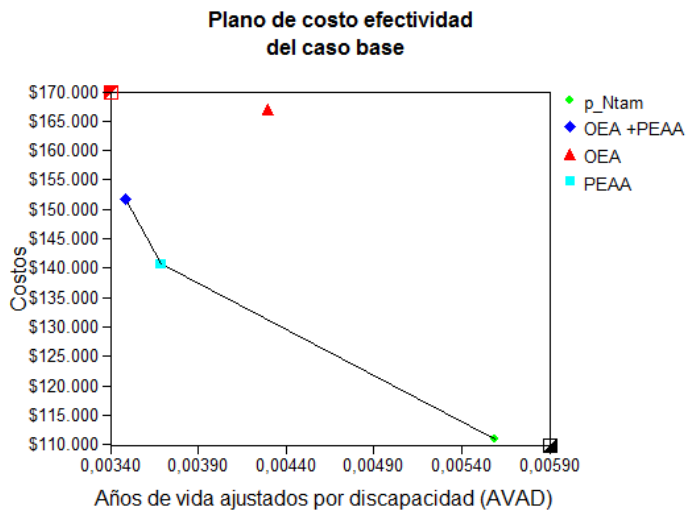
cápita en Colombia estimado para el año 2016 (preliminar) con base en la información reportada por el Banco de la República (Metodología año base 2005) y el DANE (Dirección de Síntesis y Cuentas Nacionales). El valor de 3 PIB per cápita en precios colombianos de 2016 corresponde a \$ 53.090.188,36 (PIB per cápita por habitante a precios corrientes de \$17.696.729).

Al comparar la RICE de las estrategias de tamización dominantes (OEA+PEAA y PEAA) versus No tamización, se aprecia que son estrategias potencialmente costo efectivas debido a que su valor es menor a 3 veces el PIB per cápita de Colombia (\$34.077.391 y \$28.475.516, respectivamente). En el caso de requerir decidir cuál de las dos estrategias de tamización es la más costo efectiva, se observa que la tamización con OEA+PEAA versus PEAA no es una estrategia costo efectiva en el contexto colombiano para el uso en población de RN sin factores de riesgo de hipoacusia, debido a que el valor por AVAD evitado corresponde a \$83.243.396,00, costo superior a 3 veces el PIB per cápita de Colombia.

4.4.2 Análisis de costo efectividad en la población total, incluyendo recién nacidos con factores de riesgo

Al realizar el análisis de costo efectividad sobre la población total de recién nacidos con y sin factores de riesgo, se continuó observando que la no tamización produce una mayor cantidad de años de vida con discapacidad y que las estrategias de tamización que disminuyen un mayor número de años de vida con discapacidad corresponden a la tamización con PEAA y la combinación de OEA+PEAA (figura 4-4).

Figura 4-4: Plano de costo efectividad de las estrategias en evaluación para el caso base, en la población con y sin factores de riesgo.



En la tabla 4-11 se presentan los resultados del caso base para dicha población. La estrategia de OEA fue dominada por las estrategias OEA+PEAA y PEAA debido a que fueron estrategias menos costosas y más efectivas. El análisis incremental de los resultados de costos y efectividad se llevó a cabo entre dos de las tecnologías no dominadas, OEA + PEAA y PEAA.

Tabla 4-11: Resultados caso base en la población total, con y sin factores de riesgo.

Tecnología	Costo	Costo incremental	Efectividad (AVAD)	Efectividad incremental (AVAD)	Razón de costo efectividad incremental (RICE)
No tamización	\$110.996	0	0,00559	0	-
PEAA	\$140.755	\$29.759	0,00369	-0,0019	-\$15.663.333
OEA+PEAA	\$151.780	\$11.025	0,00348	-0,00021	-\$53.680.770
OEA	\$166.990	\$15.210	0,0043	0,00082	Dominada

Los resultados del caso base muestran que el costo promedio de un AVAD evitado para un recién nacido con diagnóstico de hipoacusia congénita bilateral de grado moderado, severo o profundo, con una expectativa de vida de 74 años, empleando la tamización con PEAA versus no tamización es de \$15.663.333; el costo por AVAD evitado con tamización OEA+PEAA comparado con la estrategia PEAA es de \$53.680.770 y el costo promedio de un AVAD evitado con OEA+PEAA comparado con no tamización es de \$19.328.910.

Al calcular los costos asociados a la tamización auditiva en la población total de recién nacidos en Colombia (n=641.493 nacidos vivos; DANE (2016)), incluyendo aquellos con

y sin factores de riesgo, se observó que la estrategia de tamización OEA+PEAA genera menos años de vida con discapacidad en el total de la población (2232,40 AVAD) en comparación con la estrategia de PEAA (2367,11 AVAD) y la no tamización (3585,95 AVAD) (tabla 4-12).

Tabla 4-12: Resultados del caso base aplicados al total de la población de recién nacidos en el año 2016.

Tecnología	Costo de tamización total en la población	Costo incremental por tamización para el total de RN vivos	Efectividad (AVADs en toda la población)	Efectividad incremental (AVADs evitados en toda la población)	Costo por AVAD evitado
No tamización	\$71.203.157.028	0	3585,95	-	
PEAA	\$90.293.347.215	\$19.090.190.187	2367,11	-1218,8367	-\$15.663.333
OEA+PEAA	\$97.365.807.540	\$7.072.460.325	2232,40	-134,71353	-\$53.680.770
OEA	\$107.122.916.070	\$9.757.108.530	2758,42	526,02426	Dominada

De acuerdo a los resultados obtenidos en la población total, la tamización con PEAA comparada con No tamización, permite reducir 1218,8367 AVAD anuales; la tamización con OEA + PEAA comparada con PEAA permite reducir 134,71353 AVAD anuales; y al comparar la estrategia OEA+PEAA versus No tamización, se reducen 1353,55 AVAD en la población total.

4.5 Análisis de incertidumbre

Se realizaron análisis de sensibilidad determinísticos y probabilísticos para evaluar la incertidumbre de algunos parámetros incluidos en el modelo y determinar la robustez de los resultados.

4.5.1 Análisis de sensibilidad determinísticos

Los análisis de sensibilidad univariados se realizaron mediante diagramas de tornado, los cuales permitieron observar las variables que afectaban la razón de costo efectividad incremental de las estrategias dominantes (OEA+PEAA vs PEAA). Se observó que el aumento del VPP de la estrategia OEA+PEAA aumentaría el RICE y el incremento del VPP del PEAA lo disminuiría (figura 4-5 y 4-6).

Figura 4-5: Análisis de tornado para el análisis de costo efectividad incremental entre la estrategia OEA+PEAA versus PEAA.

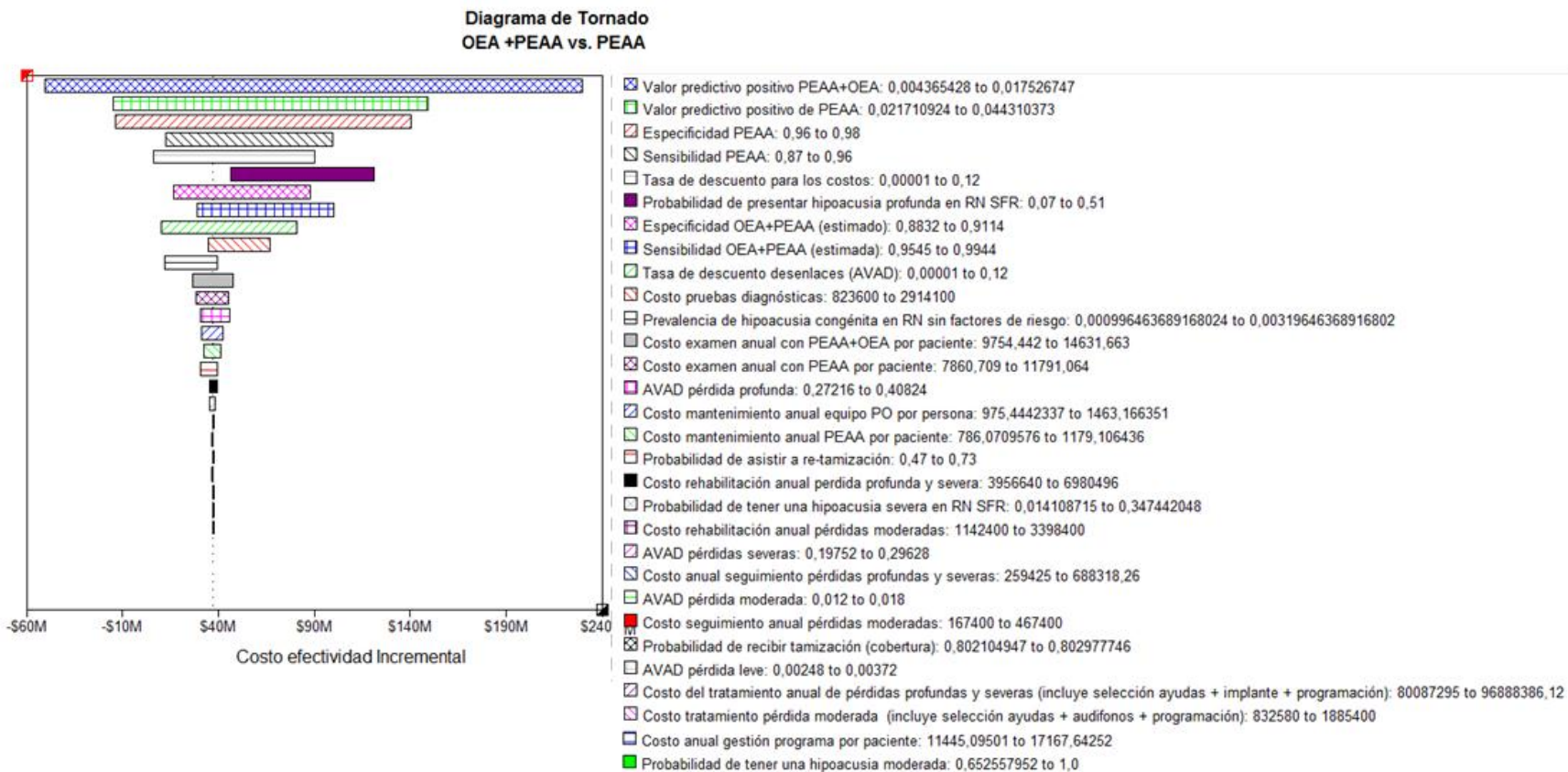
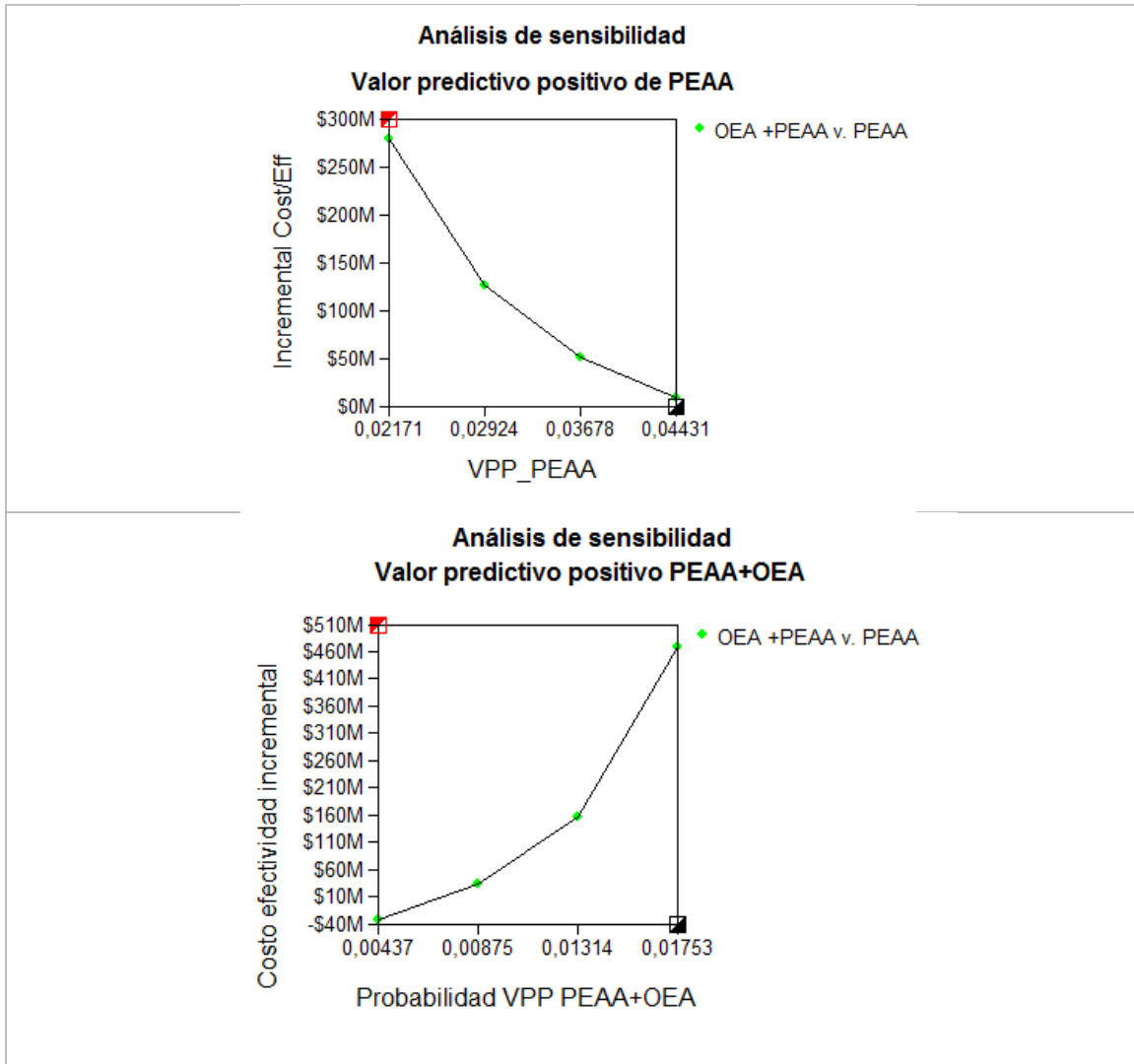


Figura 4-6: Análisis de sensibilidad univariado (valores predictivos positivos)



4.5.2 Análisis de sensibilidad probabilístico

Para el análisis de sensibilidad probabilístico, se realizaron 10.000 simulaciones mediante el análisis de Monte Carlo, con las variables identificadas en el diagrama de tornado (características operativas de las pruebas, prevalencias, costos asociados) y las distribuciones de probabilidad de las variables, previamente presentadas. Se emplearon los valores de disposición a pagar iguales a 1 PIB per cápita (\$17.696.729) y a 3 PIB per cápita (\$ 53.090.188,36).

Con un umbral de 1 PIB percápita se observó que la probabilidad que la tamización con PEAA sea una estrategia costo efectiva es del 42,54%; considerando un umbral de 3 PIB percápita, la probabilidad que PEAA sea costo efectiva sobre la estrategia OEA+PEAA es del 59,3% (figura 4-7). En la figura 4-8 se presenta la curva de aceptabilidad entre estas dos estrategias, se observa que con una disponibilidad a pagar superior a \$30.000.000, la probabilidad que la tamización con OEA + PEAA sea costo efectiva es del 50%; sin embargo, a medida que aumenta la disponibilidad a pagar, la tamización auditiva con OEA + PEAA presenta mayor probabilidad de ser costo efectiva.

Figura 4-7: Análisis de sensibilidad probabilístico para la comparación de OEA+PEAA versus PEAA.

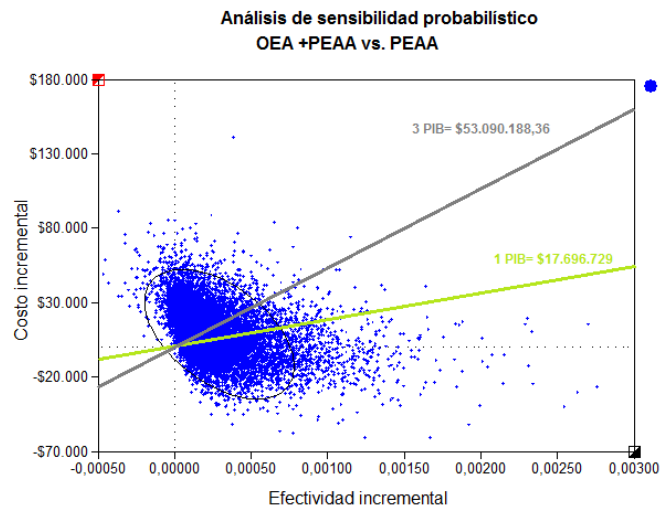
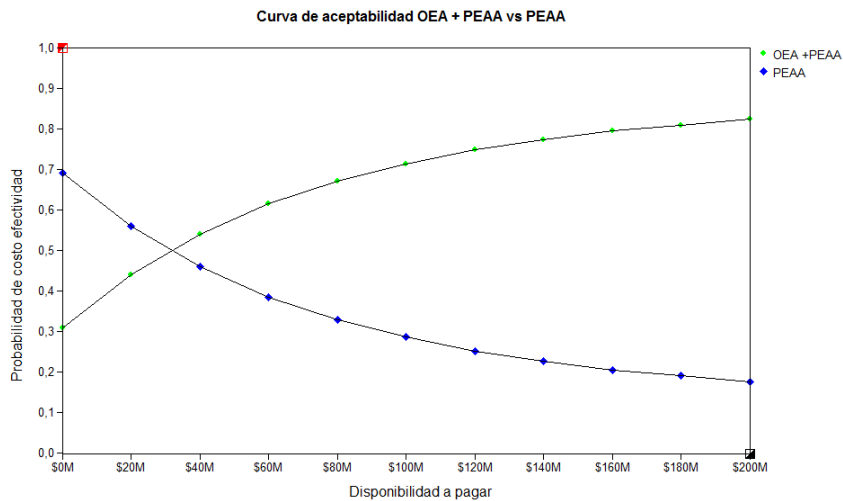
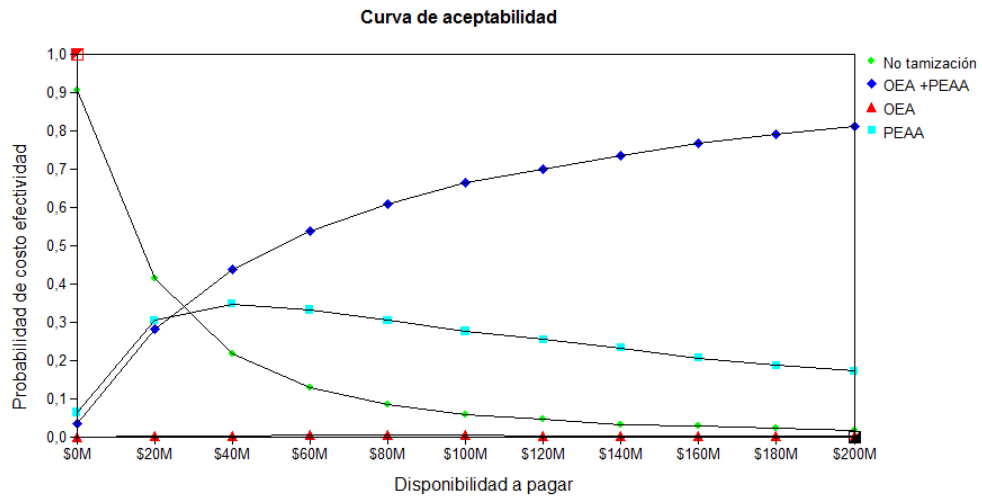


Figura 4-8: Curva de aceptabilidad entre las estrategias OEA + PEAA versus PEAA.



La figura 4-9 presenta la curva de aceptabilidad para las diferentes estrategias de tamización estudiadas, incluyendo el escenario de No Tamización. Se aprecia que ante una disponibilidad a pagar inferior a \$30.000.000, la probabilidad que la No tamización sea una estrategia costo efectiva es del 40%. A medida que aumenta la disponibilidad a pagar, la tamización auditiva con OEA + PEAA presenta mayor probabilidad de ser costo efectiva para el contexto colombiano.

Figura 4-9: Curva de aceptabilidad, incluyendo todas las estrategias de tamización disponibles.



5. Discusión

Los resultados del presente estudio indican que desde la perspectiva del sistema de salud colombiano, la tamización auditiva neonatal para la detección temprana de hipoacusia congénita bilateral de grado moderado a profundo es una alternativa costo-efectiva para Colombia comparada con el escenario actual en el cual no existe un programa de tamización auditiva neonatal oficial. La tamización auditiva neonatal con PEAA es la estrategia más costo efectiva para el contexto Colombiano, debido a que el costo por AVAD evitado se encuentra por debajo del umbral de disponibilidad a pagar de hasta tres veces el PIB per cápita (cuando la tamización está dirigida a los recién nacidos sin factores de riesgo) y de un PIB per cápita, cuando se estima que la tamización auditiva esté dirigida a recién nacidos, con y sin factores de riesgo, resultado que se mantiene en los análisis de sensibilidad.

De acuerdo a los resultados obtenidos para el caso base, el costo de evitar un año de vida con discapacidad o AVAD asociado a una hipoacusia congénita mediante un programa de tamización dirigido a los recién nacidos sin factores de riesgo, comparado con el escenario actual de No Tamización, equivale a \$28.475.516 empleando la estrategia PEAA y a \$34.077.391,30 con la estrategia de OEA+PEAA. Al comparar las estrategias que resultaron dominantes en el análisis (PEAA y OEA+PEAA), se obtuvo una RICE de \$28.475.516 y de \$83.243.396, respectivamente. Si la tamización auditiva neonatal se realizara en todos los recién nacidos, incluyendo aquellos que presentan factores de riesgo, se observaría que el costo de evitar un AVAD utilizando la estrategia OEA+PEAA tendría un valor de \$53.680.770 y utilizando la estrategia PEAA, \$15.663.333.

Las estrategias OEA+PEAA y PEAA presentan características operativas apropiadas para un programa de tamización debido a que demuestran una alta sensibilidad (PEAA: 0,93 y OEA+PEAA: 0,98) y una alta especificidad (PEAA: 0,97 y OEA+PEAA: 0,90). Sin

embargo, de acuerdo al análisis determinístico univariado obtenido, características como el VPP de las pruebas, pueden modificar la razón de costo efectividad obtenida. Teniendo en cuenta que los valores predictivos dependen de la prevalencia, la incertidumbre en la razón de costo efectividad disminuiría si los casos de hipoacusia congénita bilateral en RN sin factores de riesgo aumentaran al igual que los casos con severidad profunda. Burke (2012) también identificó en su estudio que los resultados de costo efectividad dependían de la prevalencia (a medida que esta fuera mayor, más costo efectiva era la estrategia universal de tamización versus la selectiva) (6).

El análisis probabilístico también sugirió que la tamización auditiva en recién nacidos sin factores de riesgo con OEA+PEAA es costo efectiva en el 81,56% de los casos y en el 81,72% de los casos con PEAA, en comparación con la no tamización. Sin embargo, de acuerdo a los resultados observados en las curvas de aceptabilidad, la probabilidad que la tamización sea costo efectiva con umbrales de disposición a pagar de 30 millones de pesos es incierta debido a que se encuentra alrededor del 50%.

En un estudio realizado en China, se identificó que para ampliar el programa de tamización auditiva neonatal a diferentes ciudades, era recomendable iniciar la tamización con OEA en población específica con factores de riesgo de hipoacusia y posteriormente escalarlo a un programa con OEA universal y luego OEA+PEAA universal (100). En un análisis de costo efectividad respecto a la tamización universal versus la tamización selectiva (en recién nacidos con factores de riesgo de hipoacusia) realizado en el año 2012 en Inglaterra, se estimó que el costo del programa de tamización auditiva universal por recién nacido era de £25,41 y £2,56 con la tamización selectiva; sin embargo la tamización universal permitía la detección de 63 casos adicionales, lo que equivalía a un costo incremental por caso detectado de £36.181(6).

Diversos estudios han analizado los beneficios de la tamización auditiva neonatal; en general, se ha reportado que los programas de tamización auditiva permiten detectar a edades tempranas las pérdidas auditivas significativas, debido a que permiten realizar un diagnóstico y tratamiento temprano. Adicionalmente, la detección temprana de hipoacusia provee una oportunidad para el desarrollo normal del lenguaje, disminuye la discapacidad, y mejora la salud y bienestar de una población (100). Sin embargo, desde la perspectiva de la Comunidad Sorda, no consideran la pérdida auditiva como una discapacidad, sino una condición que los hace parte de una comunidad próspera y parte

importante de su identidad propia (107), razón por la cual, el uso del implante coclear tendría una implicación cultural en su comunidad.

En Estados Unidos, la Comunidad Sorda promueve el uso temprano del lenguaje de señas para todos los niños con pérdida de audición y ha dudado en adoptar plenamente los implantes cocleares para los recién nacidos, como un medio para proporcionar acceso a sonidos (107). Algunos individuos de la comunidad sugieren dar un tiempo de espera para recibir el implante coclear o que los niños decidan en su adolescencia si quieren recibirlo o no; también están en desacuerdo con los enfoques de tratamiento de lenguaje hablado en niños sordos (107). La Asociación Nacional de Sordos de Estados Unidos (NAD, siglas en inglés), en el año 2000 emitió la siguiente posición “El implante coclear es una tecnología que representa una herramienta para ser utilizada en algunas formas de comunicación, y no una cura para la sordera”, también la NAD reconoce todos los avances tecnológicos con potencial de fomentar y mejorar la calidad de vida de todas las personas sordas y con problemas de audición; finalmente, reconoce los derechos de los padres a tomar decisiones informadas para sus hijos, respeta su elección de usar implantes cocleares y todos los demás dispositivos de asistencia, y apoya firmemente el desarrollo del niño, del lenguaje y la lectoescritura”(108).

Teniendo en cuenta la perspectiva de la Comunidad Sorda, es recomendable brindar orientación a los padres o cuidadores respecto a los beneficios y riesgos del implante coclear, además informarles sobre el lenguaje de señas, que incluso es un derecho humano lingüístico para un niño sordo (107); cualquiera que sea la elección de comunicación, la relevancia de la identificación temprana de la hipocusia, es brindar una opción de tratamiento que le permita al niño(a) desarrollar una comunicación temprana con su familia y su entorno (109).

Durante el proceso de habilitación o rehabilitación de la hipoacusia congénita se pueden emplear diferentes enfoques, como por ejemplo el auditivo-verbal o el bilingüismo bimodal. En general, los profesionales de la salud a menudo recomiendan a las familias enfoques auditivo-verbales para los niños y frecuentemente sugieren incluir el lenguaje de señas solo como último recurso (110–113); sin embargo, diferentes investigadores argumentan que existen riesgos éticos y perjudiciales para retener un idioma accesible, como el lenguaje de señas, durante los primeros años de vida de los niños sordos (114–116). Recientemente, se ha sugerido que los niños sordos con implantes cocleares

pueden beneficiarse de la educación a través de enfoques bilingües bimodales, que apoyan el desarrollo de dos modalidades de comunicación (visual y auditiva), en dos idiomas (por ejemplo, lenguaje de señas e inglés) para salvaguardar su crecimiento lingüístico, cognitivo y social (117,118).

Algunos padres sordos han decidido que sus hijos reciban implante coclear y fomentar el bilingüismo bimodal, aunque reconocen que los niños sordos con lenguaje de señas pueden alcanzar logros académicos y sociales en una comunidad oyente sin el uso de implantes cocleares (119,120). Estos padres expresan el deseo de que sus hijos tengan más oportunidades al tener acceso tanto al lenguaje de señas como a un idioma, por ejemplo, como el inglés (111). Se ha encontrado que el bilingüismo bimodal promueve un enfoque multisensorial que es aditivo en lugar de sustractivo, ya que facilita y mejora el desarrollo bilingüe de ambos idiomas (121) sin obstaculizar el desarrollo del lenguaje hablado (122–124). El acceso a ambos idiomas les permite a los niños tener opciones de comunicación durante sus interacciones sociales con personas sordas y oyentes, facilitando así sus habilidades sociales (125).

Teniendo en cuenta las implicaciones sociales y económicas asociadas al diagnóstico de hipoacusia congénita, es relevante desarrollar análisis económicos desde la perspectiva de la sociedad, que permitan identificar los costos directos no médicos, los costos no sanitarios e indirectos asociados al proceso de tratamiento y rehabilitación, y definir los beneficios a largo plazo para la sociedad. Son pocos los estudios publicados en la literatura desde esta perspectiva; además, suelen presentar diferentes horizontes temporales, enfoques de costos y poblaciones distintas, lo que dificulta realizar comparaciones entre los estudios (126). De acuerdo a la revisión sistemática desarrollada por Hjalte (2012) (126), el estudio más completo que estima los costos sociales de los trastornos auditivos corresponde al de Mohr et al. (2000) (127); este estudio basado en la incidencia utilizó una perspectiva social de por vida, incluyendo el impacto de la discapacidad auditiva en las ganancias, y el uso de recursos educativos y médicos. Los autores estimaron que la pérdida de audición de severa a profunda en los EEUU le cuesta a la sociedad aproximadamente USD410.000 durante la vida de un individuo, comparable con el costo de por vida de la esquizofrenia (127). La mayoría de los costos fueron causados por la pérdida de productividad (126,127).

La revisión de Hjalte (2012) también identificó algunos problemas clave en la estimación de los costos sociales relacionados con los trastornos de la audición. Los costos médicos directos representan una menor parte de los costos totales de los trastornos auditivos, ya que los trastornos auditivos afectan principalmente el sistema de bienestar social más que el sistema de atención médica. Además, la literatura ha señalado la educación especial como un factor importante en los costos directos no médicos (126).

Las principales limitaciones del presente estudio se relacionan con las fuentes de información empleadas. En Colombia no hay información epidemiológica respecto a la incidencia o prevalencia de la hipoacusia congénita según nivel de severidad, lo cual impide identificar la verdadera distribución de la condición en el país. En la literatura, la efectividad del inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita se ha comprobado mediante desenlaces intermedios como el desarrollo del lenguaje o habla; sin embargo, puede que estos desenlaces no reflejen el impacto a largo plazo de una intervención temprana, como se esperaría con desenlaces como el desarrollo cognitivo, académico o laboral, los que podrían obtenerse al desarrollar un análisis desde la perspectiva social. Se considera que la debilidad en las fuentes de información mencionadas, puede subestimar o sobreestimar la carga económica de la condición en el país.

Otra de las limitaciones del presente análisis fue que no se incluyó la población con hipoacusia congénita de origen conductivo o mixto, que igualmente podrían presentar un nivel de gravedad moderado a severo. Los RN con hipoacusia asociada a malformaciones evidentes en oído externo o medio generalmente son remitidos oportunamente a especialista y requieren de un tratamiento quirúrgico distinto al requerido en la población con hipoacusias de tipo neurosensorial.

El presente estudio le permite a los tomadores de decisiones evaluar la pertinencia de desarrollar un programa de tamización auditiva neonatal nacional o si se requiere realizar análisis adicionales a partir de una prueba piloto. De acuerdo a los resultados obtenidos y las limitaciones en las fuentes de información, se sugiere realizar un estudio piloto en la población colombiana para comprobar los beneficios económicos de la tamización auditiva neonatal desde la perspectiva del sistema de salud y los beneficios sociales desde la perspectiva de la población.

6. Conclusiones

La probabilidad que la tamización auditiva neonatal sea una estrategia costo efectiva, para la detección temprana de hipoacusia congénita bilateral de grado moderado a severo, en el contexto colombiano se encuentra entre el 35% al 80%; con umbrales de disposición a pagar entre los COP\$30.000.000 a COP\$200.000.000, en comparación con la ausencia de un programa de tamización auditiva formal.

La estrategia de tamización auditiva neonatal que presenta una mayor sensibilidad para detectar RN con alteraciones auditivas son los PEAA (0,93) comparados con las OEA (0,77); sin embargo, ambas pruebas tienen una alta precisión para detectar RN con audición normal (especificidad PEAA: 0,97; OEA: 0,93). Al emplear ambas estrategias como una prueba en paralelo, tanto la sensibilidad como la especificidad aumentan, lo cual sugiere que podría ser la estrategia con mayor capacidad diagnóstica para emplearse en un programa de tamización auditiva neonatal.

La evidencia disponible en la literatura, sugiere que el inicio temprano del tratamiento para la hipoacusia congénita bilateral favorece el desarrollo auditivo, del habla y del lenguaje; en comparación con el inicio tardío del tratamiento. Sin embargo, el beneficio a largo plazo de la intervención temprana es incierto, debido a que la calidad metodológica de los estudios actualmente disponibles, no es clara o presenta un alto riesgo de sesgo; además, no se han desarrollado ensayos aleatorizados o cohortes analíticas que evalúen desenlaces fuertes como el desarrollo cognitivo, psicológico, social o productividad en la adultez.

La calidad metodológica de las evaluaciones económicas actualmente disponibles es variable. Se identificaron estudios tanto de baja como de alta calidad (41-92 puntos, herramienta QHES). En los estudios se evaluó con mayor frecuencia la costo efectividad de la tamización auditiva universal comparada con la tamización auditiva selectiva; adicionalmente, algunos estudios evaluaron cuál prueba de tamización era más costo efectiva y/o la cantidad apropiada de etapas durante la tamización. El modelo de decisión reportado con más frecuencia fue el árbol de decisión y el desenlace evaluado frecuentemente fue el número de casos detectados.

Al estimar los costos totales asociados a un programa de tamización auditiva neonatal a nivel nacional, se observa que el evento generador de mayor costo corresponde a la gestión del programa de tamización (COP\$ 9.177.435.418,22 - COP\$11.012.922.501,86) y a la adquisición total de equipos (COP\$4.093.575.640-\$7.821.758.098). Sin embargo, al estimar el valor de la tamización por RN evaluado, el valor por paciente disminuye (valor entre COP\$21.325-\$27.718). De acuerdo al nivel de severidad de la hipoacusia, en pérdidas auditivas de grado moderado, el evento generador de costo más alto corresponde al valor total anual en rehabilitación (COP\$1.485.120-\$3.398.400) y en pérdidas auditivas profundas y severas, el evento generador de costo con un mayor valor monetario corresponde a la intervención quirúrgica de implante coclear (COP\$89.242.562- \$96.706.899,12).

Con una disposición a pagar entre los COP\$30.000.000 a COP\$200.000.000, la probabilidad que la estrategia de tamización auditiva neonatal OEA+PEAA sea costo efectiva para el contexto colombiano comparada con PEAA aumenta entre un 50% a un 80%. El valor de un AVAD evitado con OEA+PEAA en comparación con PEAA por caso, es de \$85.745.454,54.

Las características o variables que generan mayor incertidumbre en los resultados obtenidos de costo efectividad son: las características operativas de las estrategias de tamización (valores predictivos positivos, sensibilidad y especificidad).

Anexo: Registros sanitarios vigentes para las tecnologías de interés

Núm.	Registro sanitario	Nombre comercial	Indicación	Titular registro
1	INVIMA 0005385	2010DM- Potenciales evocados y otoemisiones acústicas - interacoustics a/s e Intelligent Hearing System (IHS)	Son utilizados para realizar pruebas de tallo cerebral, para determinar cuál es el nivel auditivo tanto en niños como adultos. El presente registro ampara: Intelligent Hearing System (IHS) modelos: SMART EP, OPTI AMP, SMART SCREENER, SMART OAE, SMART DPOAE, SMART TROAE, SMART EP-ASSR, Módulo ASSR, screening neonatos ABRIS, pruebas VEMP, incluye todas sus partes y accesorios para su correcto funcionamiento.	TECHNIK LTDA
2	INVIMA 0006010	2010DM- Equipo de otoemisiones acústicas -GN Otometrics A/S	Equipo para diagnóstico auditivo diseñado para medir frecuencias de audio de baja amplitud, transmitidas por la cóclea a través del oído medio hasta el conducto auditivo externo.	GN OTOMETRICS A/S
3	INVIMA 0006376	2010DM- Otoemisiones acústicas y potenciales evocados automatizados-Grason Stadler GSI	Tamizaje de la función del oído interno y nervio auditivo enfocado principalmente a programas de prevención y promoción de la salud auditiva.	SR SERVIEQUIPOS LTDA
4	INVIMA 0008615	2012DM- Otoport y Echoport - equipo para evaluación de otoemisiones acústicas - Otodynamic	Equipo de evaluación de otoemisiones que mediante un estímulo acústico, evoca las respuestas de las células ciliadas externas de la cóclea	WIDEX A/S

5	INVIMA 0012080	2014DM-	Capella2 - equipo de otoemisiones acústicas - GN Otometrics	<p>El equipo de otoemisiones acústicas capella2 está diseñado para:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Diagnosticar trastornos relacionados con la audición. - Puede ser utilizado como herramienta para la evaluación de las condiciones que afectan las respuestas de OEA ante estímulos auditivos. - Permite la evaluación de usabilidad y efectos de OEA medidas. - Puede usarse para pacientes de todas las edades 	INTELLIGENT HEARING SYSTEMS
6	INVIMA 0002609	2008DM-	Equipo de potenciales evocados auditivos Cardinal Health	Este equipo registra y analiza los potenciales evocados auditivos mediante estímulos muy breves en toda la cóclea con diferentes frecuencias e intensidades sonoras, analizando los potenciales eléctricos ligados al nervio auditivo	MD INTERNATIONAL INC
7	INVIMA 0004383	2009DM-	Equipos de potenciales evocados -GN Otometrics A/S	El equipo está diseñado para evaluar la conducción nerviosa debido a un estímulo auditivo externo.	GN OTOMETRICS A/S
8	INVIMA 0007899	2011DM-	Eclipse - Equipo de potenciales evocados para la medición auditiva - Interacoustics	Los potenciales evocados desempeñan un papel importante en el sector audiológico, afectando a áreas tales como el screening neonatal, el screening neuronal, la valoración del umbral auditivo, el diagnóstico avanzado, pruebas de equilibrio. Actualmente, los potenciales evocados estándar se utilizan para evaluar el umbral y realizar screenings neurológicos.	INTERACOUSTICS A/C
9	INVIMA 0007979	2011DM-	Otoread - equipo de potenciales evocados para la medición auditiva - Interacoustics	Otoread es un equipo de OEA (otoemisiones acústicas), rápido y portátil de mano, para realizar pruebas auditivas a recién nacidos, niños y adultos. Los resultados calificados como apto/no apto se muestran en la pantalla o pueden imprimirse con la impresora térmica. Inserte el molde en el conducto auditivo del paciente lo más profundamente posible para sellarlo herméticamente. Cuando esté sellado herméticamente, el equipo Otoread comenzará automáticamente la prueba, primero realizando la calibración y luego las emisiones de	INTERACOUSTICS A/S

				prueba. Una vez terminada la prueba, la unidad mostrará en la pantalla LCD “apto” (pass) o “revisar” (refer).	
10	INVIMA 0007896	2011DM-	TITAN screening – TITAN diagnostico – TITAN clínico - impedanciómetro portátil - Interacoustics	Equipo de evaluación auditiva que permite medir el nivel de audición (umbral auditivo) de las personas y así determinar si presentan o no pérdida auditiva. Además del tipo y grado de pérdida auditiva.	INTERACOUSTICS A/C

Anexo: Reportes de búsqueda de evidencia en bases de datos electrónicas para revisión de características operativas

Reporte de búsqueda electrónica #1	
Tipo de búsqueda	Nueva
Bases de datos	MEDLINE(R) In-Process & Other Non-Indexed Citations MEDLINE(R) 1946 to Present MEDLINE(R) Daily Update February 12, 2016
Plataforma	Ovid
Fecha de búsqueda	18/11/2015
Rango de fecha de búsqueda	No se empleó restricción de fecha de búsqueda Rango de las publicaciones: 1982-2014
Restricciones de lenguaje	Ninguna
Otros límites	Filtro SIGN Revisiones sistemáticas

**Estrategia de búsqueda
(resultados)**

No.	Términos de búsqueda	Resultados
1	(neonatal screening/ OR neonatal screening.mp. OR Hearing loss/ OR Hearing loss.mp. OR Infant screening.mp. OR Newborn screening.mp. OR Congenital hearing loss.mp. OR Newborn hearing screening.mp. OR Neonatal hearing screening.mp. OR hearing impairment.mp. OR congenital deafness screening.mp.)	64311
2	(Hearing tests/ OR Hearing tests.mp. OR Automated auditory brainstem response.mp. OR AABR.mp. OR Otoacoustic emissions.mp. OR Transiently evoked otoacoustic emissions.mp. OR "Transiently evoked otoacoustic emissions".mp. OR TEOAE.mp. OR Distortion product otoacoustic emissions.mp. OR DPOAE.mp. OR "ABR/OAE".mp. OR Evoked potentials, auditory, Brain stem/ OR Evoked potentials, auditory, Brain stem.mp. OR Brainstem auditory evoked potentials.mp OR Brainstem auditory evoked response.mp.)	19641
3	(exp "Sensitivity and Specificity"/ OR sensitivity.tw. OR specificity.tw. OR ((pre-test or pretest) adj probability).tw. OR post-test probability.tw. OR predictive value\$.tw. OR likelihood ratio\$.tw.)	2047071
4	#1 AND #2	5396
5	#4 AND #3	1494
6	Remove duplicates from #5	1447
Referencias identificadas	86	
Referencias sin duplicados	86	

Reporte de búsqueda electrónica #2

Tipo de búsqueda	Nueva
Bases de datos	EMBASE
Plataforma	Wiley
Fecha de búsqueda	22/12/2015
Rango de fecha de búsqueda	No se empleó restricción de fecha de búsqueda Rango de las publicaciones: 2003-2015
Restricciones de lenguaje	Ninguna
Otros límites	Filtro SIGN Revisiones sistemáticas

Estrategia de búsqueda (resultados)	o.	Términos de búsqueda	Resultados
	1	(neonatal NEAR/4 screening OR Infant NEAR/4 screening OR 'Newborn screening'/de OR 'Newborn screening'/exp OR Hearing NEAR/4 loss OR 'hearing loss'/exp OR congenital NEAR/4 hearing AND loss OR 'congenital deafness'/de OR 'hearing impairment'/de OR newborn NEAR/4 hearing NEAR/4 screening OR neonatal NEAR/4 hearing NEAR/4 screening OR congenital NEAR/4 deafness NEAR/4 screening OR 'auditory screening'/de OR 'auditory screening'/exp)	118762
	2	('Hearing test'/de OR 'Hearing test'/exp OR automated NEAR/4 auditory NEAR/4 brainstem NEAR/4 response OR 'evoked brain stem auditory response'/de OR 'evoked brain stem auditory response'/exp OR 'AABR'/exp OR 'otoacoustic emissions' OR 'distortion product otoacoustic emission'/de OR 'distortion product otoacoustic emission'/exp OR Transiently NEAR/4 evoked NEAR/4 otoacoustic NEAR/4 emission* OR 'teoae' OR 'DPOAE'/exp OR 'abr/oea' Brainstem NEAR/4 auditory NEAR/4 evoked NEAR/4 potentials)	51030
	3	'Sensitivity and specificity'/de OR 'Sensitivity and specificity'/exp OR 'reproducibility'/de OR 'reproducibility'/exp OR 'Comparative effectiveness'/de OR 'Comparative effectiveness'/exp OR 'receiver operating characteristic'/de OR 'receiver operating characteristic'/exp OR 'Diagnostic accuracy'/de OR 'Diagnostic accuracy'/exp OR diagnostic NEAR/4 validity OR 'predictive value'/de OR 'predictive value'/exp OR 'sensitivity' OR 'specificity' OR ('pre-test' OR 'pretest' NEAR/5 'probability') OR 'post-test probability' OR 'predictive value'/exp OR 'likelihood ratio')	1671606
	4	#1 AND #2	22853
	5	#4 AND #3	2044
	6	#4 AND #3 AND [embase]/lim	1523
Referencias identificadas Referencias sin duplicados	38 36		
Tipo de búsqueda	Reporte de búsqueda electrónica #3		
	Nueva		

Bases de datos

Cochrane Database of Systematic Reviews <2005 to December 2015>

Database of Abstracts of Reviews of Effects <2nd Quarter 2015>

Plataforma

Wiley

Fecha de búsqueda

22/12/2015

Rango de fecha de búsqueda

No se empleó restricción de fecha de búsqueda

Rango de las publicaciones: 2003-2015

Restricciones de lenguaje

Ninguna

Otros límites

Ninguno

Estrategia de búsqueda (resultados)

No.	Términos de búsqueda	Resultados
1	(([mh ^"neonatal screening"] OR (neonatal screening):ti,ab,kw OR [mh ^"Hearing loss"] OR (Hearing loss):ti,ab,kw OR (Infant screening):ti,ab,kw OR (Newborn screening):ti,ab,kw OR (Congenital hearing loss):ti,ab,kw OR (Newborn hearing screening):ti,ab,kw OR (Neonatal hearing screening):ti,ab,kw OR (hearing impairment):ti,ab,kw OR (congenital deafness screening):ti,ab,kw)	3085
2	([mh ^"Hearing tests"] OR (Hearing tests):ti,ab,kw OR (Automated auditory brainstem response):ti,ab,kw OR (AABR):ti,ab,kw OR (Otoacoustic emissions):ti,ab,kw OR (Transiently evoked otoacoustic emissions):ti,ab,kw OR (TEOAE):ti,ab,kw OR (Distortion product otoacoustic emissions):ti,ab,kw OR (DPOAE):ti,ab,kw OR (ABR OAE):ti,ab,kw OR [mh ^"Evoked potentials, auditory, Brain stem"] OR (Evoked potentials, auditory, Brain stem):ti,ab,kw OR (Brainstem auditory evoked response):ti,ab,kw))	845
3	([mh ^"Sensitivity and specificity"] OR ("Sensitivity and specificity"):ti,ab,kw OR [mh ^"Reproducibility of results"] OR (Reproducibility of results):ti,ab,kw OR [mh ^"Comparative effectiveness research"] OR (Comparative effectiveness research):ti,ab,kw OR [mh ^"Roc curve"] OR (Roc curve):ti,ab,kw OR (receiver operating characteristic):ti,ab,kw OR [mh ^"Treatment outcome"] OR (Treatment outcome):ti,ab,kw OR (Diagnostic accuracy):ti,ab,kw OR (Diagnostic validity):ti,ab,kw OR ("Predictive Value of Tests" or "predictiv* valu*"):ti,ab,kw)	193964
4	#1 AND #2	419
5	#4 AND #3	150

Referencias identificadas
Referencias sin
duplicados

OR (tw:(pre-test OR pretest)) OR (tw:(post-test probability)) OR (tw:(predictive value\$)) OR (tw:(likelihood ratio\$)) OR (tw:(verdaderos positivos)) OR (tw:(verdaderos negativos)) OR (tw:(fracción de verdaderos negativos)) OR (tw:(fracción de verdaderos positivos)) OR (tw:(Sensibilidad y especificidad)) OR (tw:(Efectividad)) OR (tw:(Evaluación de eficacia)) OR (tw:(efectividad de intervenciones)) OR (tw:(Curva roc)) OR (tw:(Reproducibilidad de resultados))

4 #1 AND #2 AND #3 3443

12 (Publicadas en MEDLINE)
0

Anexo: Reportes de búsqueda de evidencia para actualización de evidencia de características operativas.

Reporte de búsqueda electrónica #1

Tipo de búsqueda	Nueva
Bases de datos	MEDLINE(R) In-Process & Other Non-Indexed Citations MEDLINE(R) 1946 to Present MEDLINE(R) Daily Update March 05, 2016
Plataforma	Ovid
Fecha de búsqueda	04/02/2016
Rango de fecha de búsqueda	2014 - 2016
Restricciones de lenguaje	Ninguna
Otros límites	1. Filtro SIGN pruebas diagnósticas: exp "Sensitivity and Specificity"/ OR sensitivity.tw. OR specificity.tw. ((pre-test or pretest) ADJ probability).tw. OR post-test probability.tw. OR predictive value\$.tw. likelihood ratio\$.tw. 2. 2014:2016.(sa_year).

Estrategia de búsqueda (resultados)	No.	Términos de búsqueda	Resultados
	1	(neonatal screening/ OR neonatal screening.mp. OR Hearing loss/ OR Hearing loss.mp. OR Infant screening.mp. OR Newborn screening.mp. OR Congenital hearing loss.mp. OR Newborn hearing screening.mp. OR Neonatal hearing screening.mp. OR hearing impairment.mp. OR congenital deafness screening.mp.)	67212
	2	(Hearing tests/ OR Hearing tests.mp. OR Automated auditory brainstem response.mp. OR AABR.mp. OR Otoacoustic emissions.mp. OR Transiently evoked otoacoustic emissions.mp. OR "Transiently evoked otoacoustic emissions".mp. OR TEOAE.mp. OR Distortion product otoacoustic emissions.mp. OR DPOAE.mp. OR "ABR/OAE".mp. OR Evoked potentials, auditory, Brain stem/ OR Evoked potentials, auditory, Brain stem.mp. OR Brainstem auditory evoked potentials.mp OR Brainstem auditory evoked response.mp.)	80523
	3	Filtro SIGN: (exp "Sensitivity and Specificity"/ OR sensitivity.tw. OR specificity.tw. OR ((pre-test or pretest) adj probability).tw. OR post-test probability.tw. OR predictive value\$.tw. OR likelihood ratio\$.tw.)	1171530
	4	#1 AND #2	67212
	5	#4 AND #3	4735
Referencias identificadas	513		
Referencias sin duplicados	486		
Reporte de búsqueda electrónica #2			
Tipo de búsqueda	Nueva		
Bases de datos	EMBASE		
Plataforma	Wiley		
Fecha de búsqueda	04/02/2016		
Rango de fecha de búsqueda	2014 - 2016		
Restricciones de lenguaje	Ninguna		
Otros límites	1. Filtro SIGN pruebas diagnósticas: 'Sensitivity and Specificity'/exp OR sensitivity:ti,ab OR specificity:ti,ab ('pre-test':ti,ab or 'pretest':ti,ab) NEXT/3		

Estrategia de búsqueda (resultados)

'probability'):ti,ab OR 'post-test probability':ti,ab. OR 'predictive value*':ti,ab 'likelihood ratio*':ti,ab OR 'Diagnostic accuracy'/de

2. [embase]/lim NOT [medline]/lim AND (2014:py OR 2015:py OR 2016:py)

No.	Términos de búsqueda	Resultados
1	(neonatal NEAR/4 screening OR Infant NEAR/4 screening OR 'Newborn screening'/de OR 'Newborn screening'/exp OR Hearing NEAR/4 loss OR 'hearing loss'/exp OR congenital NEAR/4 hearing AND loss OR 'congenital deafness'/de OR 'hearing impairment'/de OR newborn NEAR/4 hearing NEAR/4 screening OR neonatal NEAR/4 hearing NEAR/4 screening OR congenital NEAR/4 deafness NEAR/4 screening OR 'auditory screening'/de OR 'auditory screening'/exp)	119440
2	('Hearing test'/de OR 'Hearing test'/exp OR automated NEAR/4 auditory NEAR/4 brainstem NEAR/4 response OR 'evoked brain stem auditory response'/de OR 'evoked brain stem auditory response'/exp OR 'AABR'/exp OR 'otoacoustic emissions' OR 'distortion product otoacoustic emission'/de OR 'distortion product otoacoustic emission'/exp OR Transiently NEAR/4 evoked NEAR/4 otoacoustic NEAR/4 emission* OR 'teoe' OR 'DPOAE'/exp OR 'abr/oe' Brainstem NEAR/4 auditory NEAR/4 evoked NEAR/4 potentials)	51247
3	Filtro SIGN: 'Sensitivity and specificity'/de OR 'Sensitivity and specificity'/exp OR 'reproducibility'/de OR 'reproducibility'/exp OR 'Comparative effectiveness'/de OR 'Comparative effectiveness'/exp OR 'receiver operating characteristic'/de OR 'receiver operating characteristic'/exp OR 'Diagnostic accuracy'/de OR 'Diagnostic accuracy'/exp OR diagnostic NEAR/4 validity OR 'predictive value'/de OR 'predictive value'/exp OR 'sensitivity' OR 'specificity' OR ('pre-test' OR 'pretest' NEAR/5 'probability') OR 'post-test probability' OR 'predictive value'/exp OR 'likelihood ratio')	1601754
4	#1 AND #2	22987
5	#4 AND #3	1927

**Referencias identificadas
Referencias sin
duplicados**

96
91

Anexo: Reportes de búsqueda de revisiones sistemáticas en bases de datos electrónicas para la revisión efectividad de inicio temprano del tratamiento

Reporte de búsqueda electrónica #1	
Tipo de búsqueda	Nueva
Bases de datos	MEDLINE(R) In-Process & Other Non-Indexed Citations MEDLINE(R) 1946 to Present MEDLINE(R) Epub Ahead of Print April Week 3 2016 MEDLINE(R) Daily Update May 02, 2016
Plataforma	Ovid
Fecha de búsqueda	03/05/2016
Rango de fecha de búsqueda	No se empleó restricción de fecha de búsqueda Rango de las publicaciones: 1979-2015
Restricciones de lenguaje	Ninguna
Otros límites	Filtro SIGN Revisiones sistemáticas: ((Meta-Analysis as Topic/ OR meta analy\$.tw. OR metaanaly\$.tw. OR Meta-Analysis/ OR (systematic adj (review\$1 or overview\$1)).tw. OR exp Review Literature as Topic/) OR (cochrane.ab. OR embase.ab. OR (psychlit or psychlit).ab. OR (psychinfo or psycinfo).ab. OR (cinahl or cinhal).ab. OR science citation index.ab. OR bids.ab. OR cancerlit.ab.) OR (reference list\$.ab. OR bibliograph\$.ab. OR hand-search\$.ab. OR relevant journals.ab. OR manual search\$.ab.) OR (selection criteria.ab. or data extraction.ab. OR Review/)) NOT ((comment/ OR letter/ OR editorial/) OR (animal/ NOT (animal/ AND human/)))

Estrategia de búsqueda (resultados)	No.	Términos de búsqueda	Resultados
	1	neonatal.tw OR newborn.tw OR childhood.tw OR infant.tw	540007
	2	Childhood deafness.tw OR hearing loss/ OR "congenital hearing loss".tw OR hearing loss, sensorineural/ OR hearing loss, bilateral/ OR hearing impairment.tw OR congenital deafness.tw OR hearing disorders/ OR Deafness/ OR Deaf* OR persons with hearing impairments/	64431
	3	#1 AND #2	4053
	4	Correction of hearing impairment/ OR (early OR earli*) NEAR/3 (treatment OR intervention) OR rehabilitation/ OR hearing aids/ OR cochlear implants/ OR Cochlear implantation/ OR before NEAR/3 ("12 months" OR "12 mont*")	49005
	5	#3 AND #4	418
Referencias identificadas	52		
Referencias sin duplicados	51		
Reporte de búsqueda electrónica #2			
Tipo de búsqueda	Nueva		
Bases de datos	EMBASE		
Plataforma	Wiley		
Fecha de búsqueda	03/05/2016		
Rango de fecha de búsqueda	No se empleó restricción de fecha de búsqueda		
Restricciones de lenguaje	Rango de las publicaciones: 1990-2016		
Otros límites	Ninguna		
	Filtro SIGN Revisiones sistemáticas: (‘Meta analysis’/exp OR ((meta NEXT analy*) OR (metaanalys*))):ti,ab,de OR ‘systematic’ NEAR/4 review*) OR (cancerlit:ab OR cochrane:ab OR embase:ab OR (psychlit or psyclit):ab OR (psychinfo or psycinfo):ab OR (cinahl or cinhal):ab OR ‘science citation index’:ab. OR bids:ab) OR (‘reference lists’:ab OR ‘bibliograph*’:ab OR ‘hand-search*’:ab OR ‘manual search*’ OR ‘relevant journals’:ab) OR (‘data extraction’:ab OR ‘selection criteria’:ab OR Review:it) NOT ((Letter:it OR editorial:it) OR (animal/de NOT (animal/de OR human/de))).		

Estrategia de búsqueda (resultados)		No.	Términos de búsqueda	Resultados
		1	neonatal:ti,ab,de OR newborn:ti,ab,de OR childhood:ti,ab,de OR infant:ti,ab,de	1396822
		2	'Childhood deafness':ti,ab,de OR 'hearing impairment'/exp OR 'hearing impairment':ti,ab,de OR 'congenital hearing loss':ti,ab,de OR 'congenital deafness'/exp OR 'congenital deafness':ti,ab,de OR 'hearing loss sensorineural':ti,ab,de OR 'perception deafness'/exp OR 'hearing loss':ti,ab,de OR 'bilateral hearing loss'/exp OR 'bilateral hearing loss':ti,ab,de OR 'hearing disorder'/exp OR Deafness:ti,ab,de OR Deaf*:ti,ab,de OR 'persons with hearing impairments':ti,ab,de	145877
		3	#1 AND #2	16632
		4	'Correction of hearing impairment':ti,ab,de OR 'auditory rehabilitation'/exp OR 'early intervention'/exp OR 'early intervention childhood'/exp OR (early OR earli*) NEAR/3 (treatment OR intervention) OR rehabilitation/exp OR 'hearing aid'/exp OR 'cochlear implant':ti,ab,de OR 'cochlea prosthesis' OR before NEAR/3 ("12 months" OR "12 mont*" OR "twelve")	424312
		5	#3 AND #4	2848
		6	#5 AND [embase]/lim NOT [medline]/lim	700
Referencias identificadas		381		
Referencias sin duplicados		106		
Reporte de búsqueda electrónica #3				
Tipo de búsqueda		Nueva		
Bases de datos		Cochrane Database of Systematic Reviews <2005 to May 2016> Database of Abstracts of Reviews of Effects <2nd Quarter 2016>		
Plataforma		Wiley		
Fecha de búsqueda		03/05/2016		
Rango de fecha de búsqueda		No se empleó restricción de fecha de búsqueda Rango de las publicaciones: 1994-2016		
Restricciones de lenguaje		Ninguna		
Otros límites		Ninguno		
Estrategia de búsqueda				

(resultados)	
No.	Términos de búsqueda
1	"neonatal":ti,ab,kw OR "newborn":ti,ab,kw OR "childhood":ti,ab,kw OR "infant":ti,ab,kw 48145
2	"Childhood deafness":ti,ab,kw OR [mh "hearing loss"] OR "congenital hearing loss":ti,ab,kw OR [mh "hearing loss, sensorineural"] OR [mh "hearing loss, bilateral"] OR "hearing impairment"ti,ab,kw OR "congenital deafness"ti,ab,kw OR [mh "hearing disorders"] OR [mh "Deafness"] OR [mh "persons with hearing impairments"] 2536
3	#1 AND #2 449
4	[mh "Correction of hearing impairment"] OR hearing loss correction OR auditory rehabilitation OR [mh "early intervention"] OR (early OR earli*) NEAR/3 (treatment OR intervention) OR [mh "rehabilitation"] OR [mh "hearing aids"] OR [mh "cochlear implants"] OR [mh "cochlear implantation"] OR before NEAR/3 ("12 months" OR "12 mont*") 29569
5	#3 AND #4 105
Referencias identificadas	Cochrane Database of Systematic Reviews: 55 Other reviews: 6 HTA: 4 DARE: 7 Total: 72
Referencias sin duplicados	71
Reporte de búsqueda electrónica #4	
Tipo de búsqueda	Nueva
Bases de datos	LILACS
Plataforma	Biblioteca Virtual en Salud - BVS, interfaz iAHx
Fecha de búsqueda	05/05/2016
Rango de fecha de búsqueda	No se empleó restricción de fecha de búsqueda
Restricciones de lenguaje	Ninguna
Otros límites	Base de datos: LILACS

Estrategia de búsqueda (resultados)	No.	Términos de búsqueda	Resultados
	1	(tw:(neonatal)) OR (tw:(Congenital, Hereditary, and Neonatal Diseases and Abnormalities)) OR (tw:(newborn)) OR (tw:(childhood)) OR (tw:(infant))	1401411
	2	(tw:(hearing loss)) OR (tw:(congenital hearing loss)) OR (tw:(hearing loss, sensorineural)) OR (tw:(hearing loss, bilatera)) OR (tw:(hearing impairment)) OR (tw:(congenital deafness)) OR (tw:(hearing disorders)) OR (tw:(Deafness))	86209
	3	#1 AND #2	13329
	4	(tw:(Correction of hearing impairment)) OR (tw:(early intervention)) OR (tw:(early treatment)) OR (tw:(rehabilitation)) OR (tw:(hearing aids)) OR (tw:(cochlear implant)) OR (tw:(cochlear implantation))	1265550
	5	#3 AND #4	3529
Referencias identificadas	11	(Publicadas en MEDLINE)	
Referencias sin duplicados	0		

Anexo: Reportes de búsqueda de evidencia para actualización de evidencia de efectividad de inicio temprano de tratamiento

Reporte de búsqueda electrónica #1

Tipo de búsqueda	Nueva
Bases de datos	MEDLINE(R) In-Process & Other Non-Indexed Citations MEDLINE(R) 1946 to Present MEDLINE(R) Epub Ahead of Print May Week 2 2016 MEDLINE(R) Daily Update May 20, 2016
Plataforma	Ovid
Fecha de búsqueda	01/06/2016
Rango de fecha de búsqueda	No se empleó restricción de fecha de búsqueda
Restricciones de lenguaje	Ninguna
Otros límites	Ninguno

**Estrategia de búsqueda
(resultados)**

No.	Términos de búsqueda	Resultados
1	((neonata\$.ti,ab,hw) OR (newborn\$) OR (child\$.ti,ab,hw) OR (infant\$.ti,ab,hw) OR (paediatric\$ OR pediatri\$.ti,ab,hw) OR (exp child/) OR (newborn\$ OR (new ADJ born).ti,ab,hw))	2614896
2	exp hearing disorders/ OR exp persons with hearing impairments/ OR (hearing adj (disorder\$ or los\$ or impair\$)).ti,ab,hw OR Childhood deafness.tw OR hearing loss/ OR "congenital hearing loss".tw OR hearing loss, sensorineural/ OR hearing loss, bilateral/ OR hearing impairment.tw OR congenital deafness.tw OR hearing disorders/ OR Deafness/ OR Deaf*	87668
3	#1 AND #2	27712
4	(exp "Correction of hearing impairment"/ OR exp hearing aids/ OR rehabilitation/ OR cochlear implants/ OR Cochlear implantation/ OR (hearing adj (aid\$ or device\$ or prosthes\$)).ti,ab,hw)	39029
5	((before NEAR/3 ("12 months" OR "12 mont*")) OR ((early OR earli*) NEAR/3 (treatment OR intervention)))	14918
6	#4 AND #5	11
7	((("late" ADJ3 "treatment" ADJ3 "onset"):ti,ab,hw OR ("delay*" ADJ3 "treatment"):ti,ab,hw OR ("delay" ADJ3 "treatment" ADJ3 "onset"):ti,ab,hw OR (after ADJ3("12 months" OR "12 mont*" OR "twelve months")):ti,ab,hw OR (late ADJ3 start ADJ3 treatment):ti,ab,hw OR "delay in treatment":ti,ab,hw)	34499
8	#4 AND #7	41
9	#6 OR #8	52
10	#3 AND #9	21
Referencias identificadas	21	
Referencias sin duplicados	21	

Reporte de búsqueda electrónica #2

Tipo de búsqueda	Nueva
Bases de datos	EMBASE
Plataforma	Wiley
Fecha de búsqueda	10/06/2016
Rango de fecha de	No se empleó restricción de fecha de búsqueda

búsqueda
Restricciones de lenguaje
Otros límites
Estrategia de búsqueda
(resultados)
Referencias identificadas
Referencias sin
duplicados

Ninguna
 Ninguno

No.	Términos de búsqueda	Resultados
1	((neonata*:ti,ab,de) OR (newborn*) OR ((new NEAR born):ti,ab,de) OR (child* OR infant*):ti,ab,de OR (paediatric* OR pediatri*):ti,ab,de OR 'child'/exp OR (newborn* OR (new NEAR born)):ti,ab,de)	3094128
2	'hearing disorders'/exp OR 'persons with hearing impairments'/exp OR (hearing NEAR (disorder* or los* or impair*)):ti,ab,de OR 'Childhood deafness':ti,ab,de OR 'hearing loss'/exp OR "congenital hearing loss":ti,ab,de OR 'hearing loss, sensorineural'/exp OR 'hearing loss, bilateral'/exp OR 'hearing impairment':ti,ab,de OR 'congenital deafness':ti,ab,de OR 'hearing disorders'/exp OR 'Deafness'/exp OR Deaf*	2023329
3	#1 AND #2	245143
4	"Correction of hearing impairment"/exp OR 'hearing aids'/exp OR rehabilitation/de OR 'cochlear implants'/exp OR 'Cochlear implantation'/exp OR ((hearing*) NEAR/3 (aid* or device* or prosthes*)):ti,ab,de	93180
5	((before NEAR/3 ("12 months" OR "12 mont*")) OR ((early OR earli*) NEAR/3 (treatment OR intervention)))	120606
6	#4 AND #5	1246
7	("late" NEAR/3 "treatment" NEAR/3 "onset"):ti,ab,de OR ("delay*" NEAR/3 "treatment"):ti,ab, OR ("delay" NEAR/3 "treatment" NEAR/3 "onset"):ti,ab,de OR (after NEAR/3("12 months" OR "12 mont*" OR "twelve months")):ti,ab,de OR (late NEAR/3 start NEAR/3 treatment):ti,ab,de OR "delay in treatment":ti,ab,de	69200
8	#4 AND #7	720
9	#6 OR #8	1916
10	#3 AND #9	452
452		
163		

Tipo de búsqueda	Nueva
Bases de datos	Cochrane database of systematic reviews Database of Abstracts of Reviews of Effects - DARE
Plataforma	Wiley
Fecha de búsqueda	10/06/2016
Rango de fecha de búsqueda	No se empleó restricción de fecha de búsqueda
Restricciones de lenguaje	Ninguna
Otros límites	Ninguno

**Estrategia de búsqueda
(resultados)**

No.	Términos de búsqueda	Resultados
1	"neonatal":ti,ab,kw OR "newborn":ti,ab,kw OR "childhood":ti,ab,kw OR "infant":ti,ab,kw OR (paediatric* OR pediatri*):ti,ab,kw OR [mh "child"]	58623
2	"Childhood deafness":ti,ab,kw OR [mh "hearing loss"] OR "congenital hearing loss":ti,ab,kw OR [mh "hearing loss, sensorineural"] OR [mh "hearing loss, bilateral"] OR "hearing impairment" OR "congenital deafness" OR [mh "hearing disorders"] OR [mh "Deafness"] OR [mh "persons with hearing impairments"]	2544
3	#1 AND #2	482
4	"[mh "Correction of hearing impairment"] OR hearing loss correction OR auditory rehabilitation OR [mh "rehabilitation"] OR [mh "hearing aids"] OR [mh "cochlear implants"] OR [mh "cochlear implantation"]	19272
5	[mh "early intervention"] OR ((early OR earli*) NEAR/3 (treatment OR intervention)) OR (before NEAR/3 ("12 months" OR "12 mont*"))	10703
6	#4 AND #5	339
7	("late" NEAR/3 "treatment" NEAR/3 "onset"):ti,ab,kw OR ("delay*" NEAR/3 "treatment"):ti,ab,kw OR ("delay" NEAR/3 "treatment" NEAR/3 "onset"):ti,ab,kw OR (after NEAR/3("12 months" OR "12 mont*" OR "twelve months")):ti,ab,kw OR (late NEAR/3 start NEAR/3 treatment):ti,ab,kw OR "delay in treatment":ti,ab,kw	9403
8	#4 AND #7	471
9	#6 OR #8	782
10	#3 AND #9	7

Referencias identificadas Cochrane Database of Systematic Reviews: 3

**Referencias sin
duplicados**

Other reviews: 0
CENTRAL: 3
HTA: 4
Economic Evaluations: 1
Total: 7
7

Anexo: Reportes de búsqueda de ensayos controlados con asignación aleatoria en bases de datos electrónicas para la revisión efectividad de inicio temprano

Reporte de búsqueda electrónica #1	
Tipo de búsqueda	Nueva
Bases de datos	MEDLINE(R) In-Process & Other Non-Indexed Citations MEDLINE(R) 1946 to Present MEDLINE(R) Epub Ahead of Print September 06, 2016 MEDLINE(R) Daily Update September 06, 2016
Plataforma	Ovid
Fecha de búsqueda	07/09/2016
Rango de fecha de búsqueda	No se empleó restricción de fecha de búsqueda Rango de las publicaciones: 1998-2004
Restricciones de lenguaje	Ninguna
Otros límites	Filtro SIGN Ensayos controlados con asignación aleatoria: (Randomized Controlled Trials as Topic/ OR randomized controlled trial/ OR random allocation/ OR double blind method/ OR single blind method/ or clinical trial/ OR clinical trial, phase i.pt OR clinical trial,phase ii.pt OR clinical trial, phase iii.pt OR clinical trial, phase iv.pt OR controlled clinical trial.pt OR randomized controlled trial.pt. OR multicenter study.pt OR clinical trial.pt. OR exp clinical trials as topic/ OR ((clinical adj trial\$) OR ((singl\$ OR doubl\$ OR tripl\$) adj (blind\$3 OR mask\$3))).tw OR PLACEBOS/ OR placebo\$.tw. OR randomly allocated.tw. OR (allocated adj2 random\$).tw) NOT (case report.tw OR letter/ OR historical article/)

Estrategia de búsqueda (resultados)	No.	Términos de búsqueda	Resultados
	1	Neonatal\$:ti,ab,hw OR newborn\$.tw OR (new ADJ born).tw OR child\$:ti,ab,hw OR infant\$:ti,ab,hw OR (paediatric\$ OR pediatric\$):ti,ab,hw OR exp child/	2678679
	2	exp hearing disorders/ OR exp persons with hearing impairments/ OR ((hearing) adj (disorder\$)) OR (impair\$)):ti,ab,hw OR childhood deafness.tw OR hearing loss/ OR "congenital hearing loss".tw OR hearing loss, sensorineural/ OR hearing loss, bilateral/ OR hearing impairment.tw OR congenital deafness.tw OR hearing disorders/ OR Deafness/ OR Deaf*	89242
	3	exp "Correction of hearing impairment"/ OR exp hearing aids/ OR rehabilitation/ OR cochlear implants/ OR Cochlear implantation/ OR (hearing adj (aid\$ OR device\$ OR prosthes\$)):ti,ab,hw	39501
	4	before NEAR/3 ("12 months" OR "12 mont*") OR ((early OR earli*) NEAR/3 (treatment OR intervention))	15159
	5	("late" ADJ3 "treatment" ADJ3 "onset"):ti,ab,hw OR ("delay*" ADJ3 "treatment"):ti,ab,hw OR ("delay*" ADJ3 "treatment" ADJ3 "onset"):ti,ab,hw OR (after ADJ3 ("12 months" OR "12 mont*" OR "twelve months")):ti,ab,hw OR (late ADJ3 start ADJ3 treatment):ti,ab,hw OR "delay in treatment":ti,ab,hw	35531
	6	#1 AND #2	28034
	7	#3 AND #4	11
	8	#3 AND #5	42
	9	#6 AND #7 AND #8	0
	10	#7 OR #8	55
	11	#6 AND #10	22
Referencias identificadas	3		
Referencias sin duplicados	3		
Reporte de búsqueda electrónica #2			
Tipo de búsqueda	Nueva		
Bases de datos	EMBASE		
Plataforma	Wiley		
Fecha de búsqueda	07/09/2016		
Rango de fecha de	No se empleó restricción de fecha de búsqueda		

búsqueda**Restricciones de lenguaje****Otros límites**

Rango de las publicaciones: 1999-2014

Ninguna

Filtro SIGN Ensayos controlados con asignación aleatoria:

('clinical trial'/de OR 'randomized controlled trial'/de OR 'randomization'/de OR 'single blind procedure'/de OR 'double blind procedure'/de OR 'crossover procedure'/de OR 'placebo'/de) OR ('randomized controlled trial':de,ab,ti OR 'rct':de,ab,ti OR 'random allocation':de,ab,ti OR 'randomly allocated':de,ab,ti OR 'allocated randomly':de,ab,ti) OR ((allocated NEAR/3 random):de,ab,ti OR 'single blind*':de,ab,ti OR 'double blind*':de,ab,ti OR ((treble OR triple) NEAR/3 'blind'):de,ab,ti OR 'placebo*':de,ab,ti OR 'prospective study'/de) NOT ('case study'/de OR 'case report':de,ab,ti OR 'abstract report'/de OR 'letter'/de)

Estrategia de búsqueda (resultados)	No.	Términos de búsqueda	Resultados
	1	Neonata*:de,ab,ti OR newborn*: de,ab,ti OR (new:de,ab,ti NEAR/3 born:de,ab,ti) OR child*:de,ab,ti OR infant*:de,ab,ti OR paediatric*:de,ab,ti OR pediatric*:de,ab,ti OR 'child'/exp	3094128
	2	'hearing disorders'/exp OR 'persons with hearing impairments'/exp OR ((hearing:de,ab,ti) NEAR/3 (disorder*:de,ab,ti OR los*:de,ab,ti OR impair*:de,ab,ti)) OR 'childhood deafness':de,ab,ti OR 'hearing loss'/exp OR 'congenital hearing loss':de,ab,ti OR 'hearing loss, sensorineural'/exp OR 'hearing loss, bilateral'/exp OR 'hearing impairment':de,ab,ti OR 'congenital deafness':de,ab,ti OR 'hearing disorders'/exp OR 'deafness'/exp OR Deaf*	2023329
	3	'Correction of hearing impairment'/exp OR 'hearing aids'/ exp OR 'rehabilitation'/exp OR 'cochlear implants'/exp OR 'cochlear implantation'/exp OR (hearing NEAR/3 (aid* OR device* OR prosthes*)):de,ab,ti	94730
	4	before NEAR/3 ('12 months' OR '12 mont*' OR 'twelve') OR ((early OR earli* NEAR/3 (treatment OR intervention)):de,ab,ti	123067
	5	('late' NEAR/3 'treatment' NEAR/3 'onset'):de,ab,ti OR ('delay*' NEAR/3 'treatment'):de,ab,ti OR ('delay*' NEAR/3 'treatment' NEAR/3 'onset'):de,ab,ti OR (after NEAR/3 ('12 months' OR '12 mont*' OR 'twelve months')):de,ab,ti OR (late NEAR/3 start NEAR/3 treatment):de,ab,ti OR 'delay in treatment':de,ab,ti	70627
	6	#1 AND #2	249110
	7	#3 AND #4	1285
	8	#3 AND #5	743
	9	#6 AND #7 AND #8	9
	10	#7 OR #8	1977
	11	#6 AND #10	471
	12	#11 AND [embase]/lim NOT [medline]/lim	165
Referencias identificadas Referencias sin duplicados	31 12		
Reporte de búsqueda electrónica #3			
Tipo de búsqueda	Nueva		

Bases de datos

Cochrane Central Register of Controlled Trials : Issue 8 of 12, August 2016
 NHS Economic Evaluation Database : Issue 2 of 4, April 2015

Plataforma

Wiley

Fecha de búsqueda

07/09/2016

Rango de fecha de búsqueda

No se empleó restricción de fecha de búsqueda

Restricciones de lenguaje

Ninguna

Otros límites

Ninguno

Estrategia de búsqueda (resultados)

No.	Términos de búsqueda	Resultados
1	"neonatal":ti,ab,kw OR "newborn":ti,ab,kw OR "childhood":ti,ab,kw OR "infant":ti,ab,kw OR (paediatric* or pediatri*):ti,ab,kw OR [mh child]	59945
2	"Childhood deafness":ti,ab,kw OR [mh "hearing loss"] OR "congenital hearing loss":ti,ab,kw OR [mh "hearing loss, sensorineural"] OR [mh "hearing loss, bilateral"] OR "childhood deafness":ti,ab,kw OR "hearing impairment":ti,ab,kw OR "congenital deafness":ti,ab,kw OR [mh "hearing disorders"] OR [mh "Deafness"] OR [mh "persons with hearing impairments"]	2606
3	#1 AND #2	494
4	[mh "Correction of hearing impairment"] OR hearing loss correction OR auditory rehabilitation OR [mh "rehabilitation"] OR [mh "hearing aids"] OR [mh "cochlear implants"] OR [mh "cochlear implantation"] OR before NEAR/3 ("12 months" OR "12 mont**")	19820
5	[mh "early intervention"] OR (early OR earli*) NEAR/3 (treatment OR intervention) OR before near/3 ("12 months" or "12 mont**")	10989
6	("late" near/3 "treatment" near/3 "onset"):ti,ab,kw OR ("delay*" near/3 "treatment"):ti,ab,kw OR ("delay" near/3 "treatment" near/3 "onset"):ti,ab,kw OR (late near/3 start near/3 treatment):ti,ab,kw OR "delay in treatment":ti,ab,kw	1607
7	#4 AND #5	353
8	#4 AND #6	61
9	#3 AND #7 AND #8	1
10	#7 OR #8	404
11	#3 AND #10	6

Referencias identificadas
Referencias sin duplicados

CENTRAL: 2
NHS Economic Evaluation Database:1
3

Anexo: Reportes de búsqueda de cohortes analíticas en bases de datos electrónicas para la revisión efectividad de inicio temprano del tratamiento

Reporte de búsqueda electrónica #1

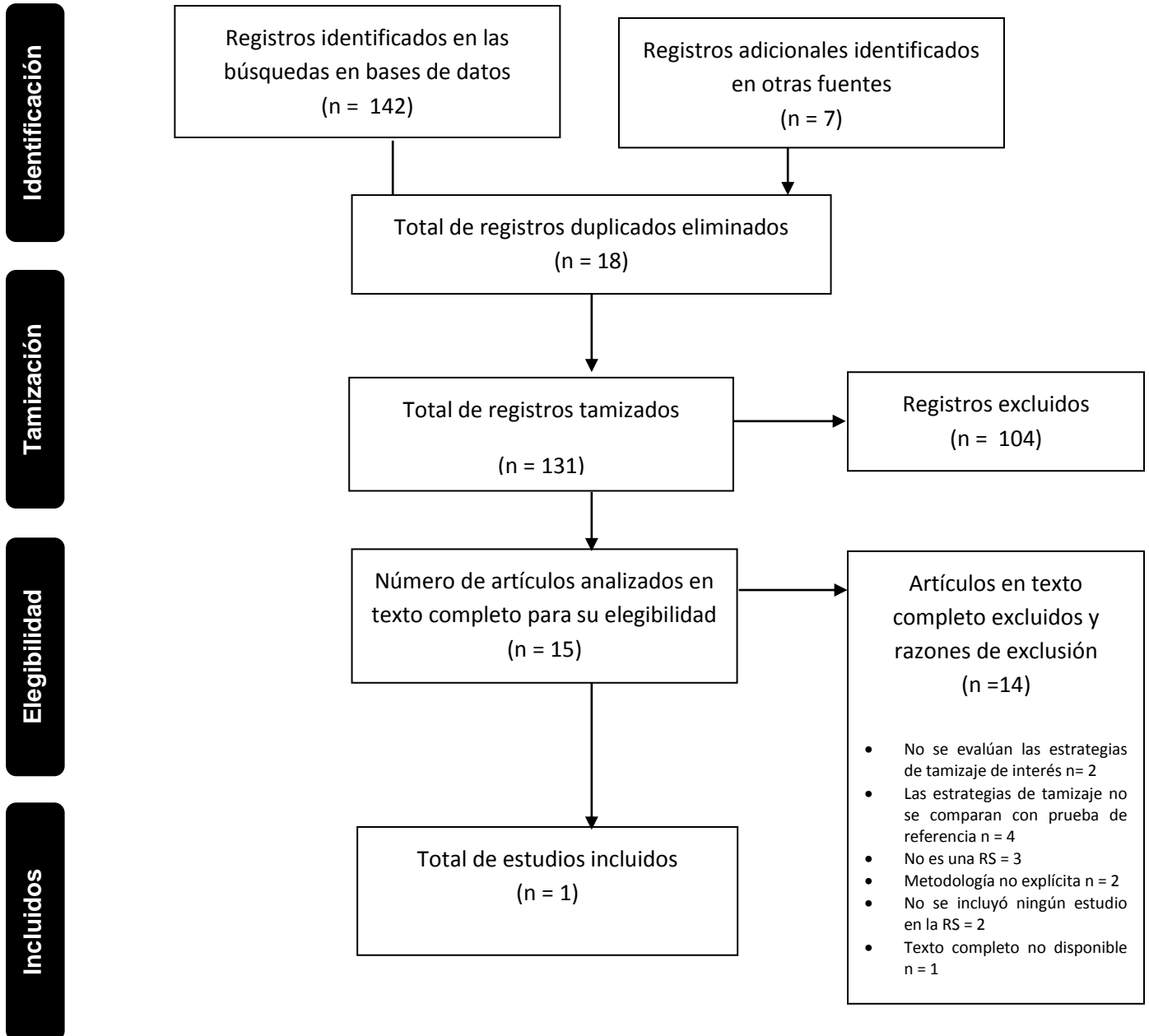
Tipo de búsqueda	Nueva
Bases de datos	MEDLINE(R) In-Process & Other Non-Indexed Citations MEDLINE(R) 1946 to Present MEDLINE(R) Epub Ahead of Print September 06, 2016 MEDLINE(R) Daily Update September 06, 2016
Plataforma	Ovid
Fecha de búsqueda	08/09/2016
Rango de fecha de búsqueda	No se empleó restricción de fecha de búsqueda Rango de las publicaciones: 1998-2015
Restricciones de lenguaje	Ninguna
Otros límites	Filtro de pronóstico de Universidad de McMaster: (incidence.sh. OR exp mortality/ OR follow-up studies.sh. OR prognos:.tw. OR predict:.tw. OR course:.tw. OR cohort:.mp. OR Exp cohort studies/ OR (cohort adj (study or studies)).tw. OR Cohort analy\$.tw. OR (Follow up adj (study or studies)).tw. OR Longitudinal.tw)

Estrategia de búsqueda (resultados)	No.	Términos de búsqueda	Resultados
	1	Neonatal\$:ti,ab,hw OR (newborn\$.tw OR (new ADJ born).tw OR child\$:ti,ab,hw OR infant\$:ti,ab,hw OR (paediatric\$ OR pediatric\$):ti,ab,hw OR exp child/	2682595
	2	exp hearing disorders/ OR exp persons with hearing impairments/ OR ((hearing) adj ((disorder\$) OR (impair\$))):ti,ab,hw OR childhood deafness.tw OR hearing loss/ OR "congenital hearing loss".tw OR hearing loss, sensorineural/ OR hearing loss, bilateral/ OR hearing impairment.tw OR congenital deafness.tw OR hearing disorders/ OR Deafness/ OR Deaf*	89374
	3	exp "Correction of hearing impairment"/ OR exp hearing aids/ OR rehabilitation/ OR cochlear implants/ OR Cochlear implantation/ OR (hearing adj (aid\$ OR device\$ OR prosthes\$)):ti,ab,hw	39527
	4	before NEAR/3 ("12 months" OR "12 mont*") OR ((early OR earli*) NEAR/3 (treatment OR intervention))	15180
	5	("late" ADJ3 "treatment" ADJ3 "onset"):ti,ab,hw OR ("delay*" ADJ3 "treatment"):ti,ab,hw OR ("delay*" ADJ3 "treatment" ADJ3 "onset"):ti,ab,hw OR (after ADJ3 ("12 months" OR "12 mont*" OR "twelve months")):ti,ab,hw OR (late ADJ3 start ADJ3 treatment):ti,ab,hw OR "delay in treatment":ti,ab,hw	35610
	6	#1 AND #2	28056
	7	#3 AND #4	11
	8	#3 AND #5	44
	9	#6 AND #7 AND #8	0
	10	#7 OR #8	55
	11	#6 AND #10	22
Referencias identificadas Referencias sin duplicados	10 10		
Reporte de búsqueda electrónica #2			
Tipo de búsqueda Bases de datos Plataforma	Nueva EMBASE Wiley		

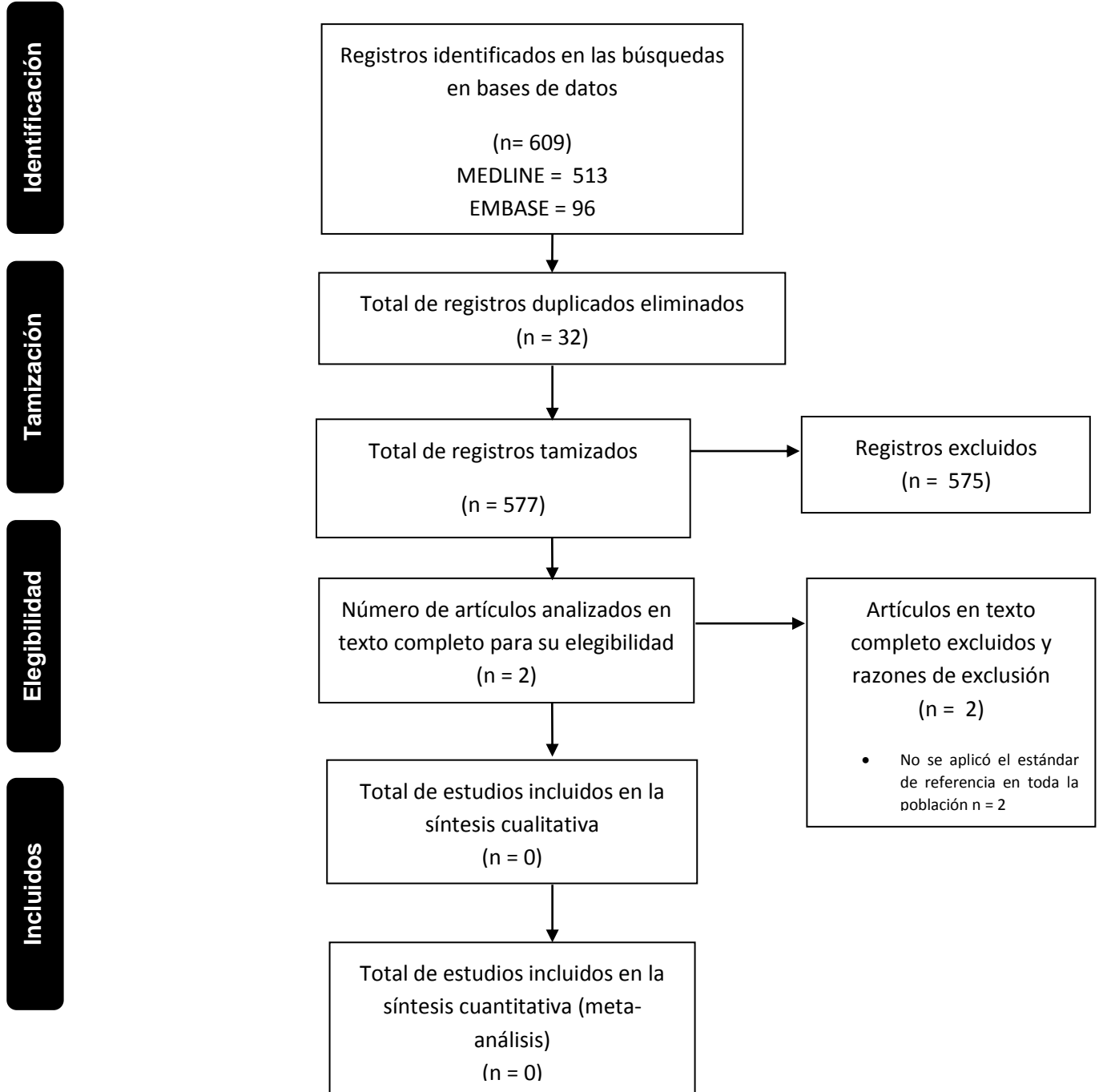
Fecha de búsqueda	08/09/2016
Rango de fecha de búsqueda	No se empleó restricción de fecha de búsqueda Rango de las publicaciones: 1994-2016
Restricciones de lenguaje	Ninguna
Otros límites	Filtro de pronóstico de Universidad de McMaster: 'incidence':de,ab,ti OR 'mortality'/exp OR 'follow-up studies':de,ab,ti OR 'prognos*':de,ab,ti OR 'predict*':de,ab,ti OR 'course*':de,ab,ti OR 'cohort*':de,ab,ti OR 'cohort studies'/exp OR (cohort NEAR/3 (study or studies)):de,ab,ti OR 'Cohort analy*':de,ab,ti OR ('Follow up' NEAR/3 (study or studies)):de,ab,ti OR 'Longitudinal':de,ab,ti

Estrategia de búsqueda (resultados)	No.	Términos de búsqueda	Resultados
	1	Neonata*:de,ab,ti OR newborn*: de,ab,ti OR (new:de,ab,ti NEAR/3 born:de,ab,ti) OR child*:de,ab,ti OR infant*:de,ab,ti OR paediatric*:de,ab,ti OR pediatric*:de,ab,ti OR 'child'/exp	3094128
	2	'hearing disorders'/exp OR 'persons with hearing impairments'/exp OR ((hearing:de,ab,ti) NEAR/3 (disorder*:de,ab,ti OR los*:de,ab,ti OR impair*:de,ab,ti)) OR 'childhood deafness':de,ab,ti OR 'hearing loss'/exp OR 'congenital hearing loss':de,ab,ti OR 'hearing loss, sensorineural'/exp OR 'hearing loss, bilateral'/exp OR 'hearing impairment':de,ab,ti OR 'congenital deafness':de,ab,ti OR 'hearing disorders'/exp OR 'deafness'/exp OR Deaf*	2023329
	3	'Correction of hearing impairment'/exp OR 'hearing aids'/ exp OR 'rehabilitation'/de OR 'cochlear implants'/exp OR 'cochlear implantation'/exp OR (hearing* NEAR/3 (aid* OR device* OR prosthes*)):de,ab,ti	94730
	4	before NEAR/3 ('12 months' OR '12 mont*' OR 'twelve') OR ((early OR earli*) NEAR/3 (treatment OR intervention)):de,ab,ti	123067
	5	('late' NEAR/3 'treatment' NEAR/3 'onset'):de,ab,ti OR ('delay*' NEAR/3 'treatment'):de,ab,ti OR ('delay*' NEAR/3 'treatment' NEAR/3 'onset'):de,ab,ti OR (after NEAR/3 ('12 months' OR '12 mont*' OR 'twelve months')):de,ab,ti OR (late NEAR/3 start NEAR/3 treatment):de,ab,ti OR 'delay in treatment':de,ab,ti	70627
	6	#1 AND #2	249110
	7	#3 AND #4	1285
	8	#3 AND #5	743
	9	#7 OR #8	1977
	10	#6 AND #9	471
Referencias identificadas	192		
Referencias sin duplicados	75		

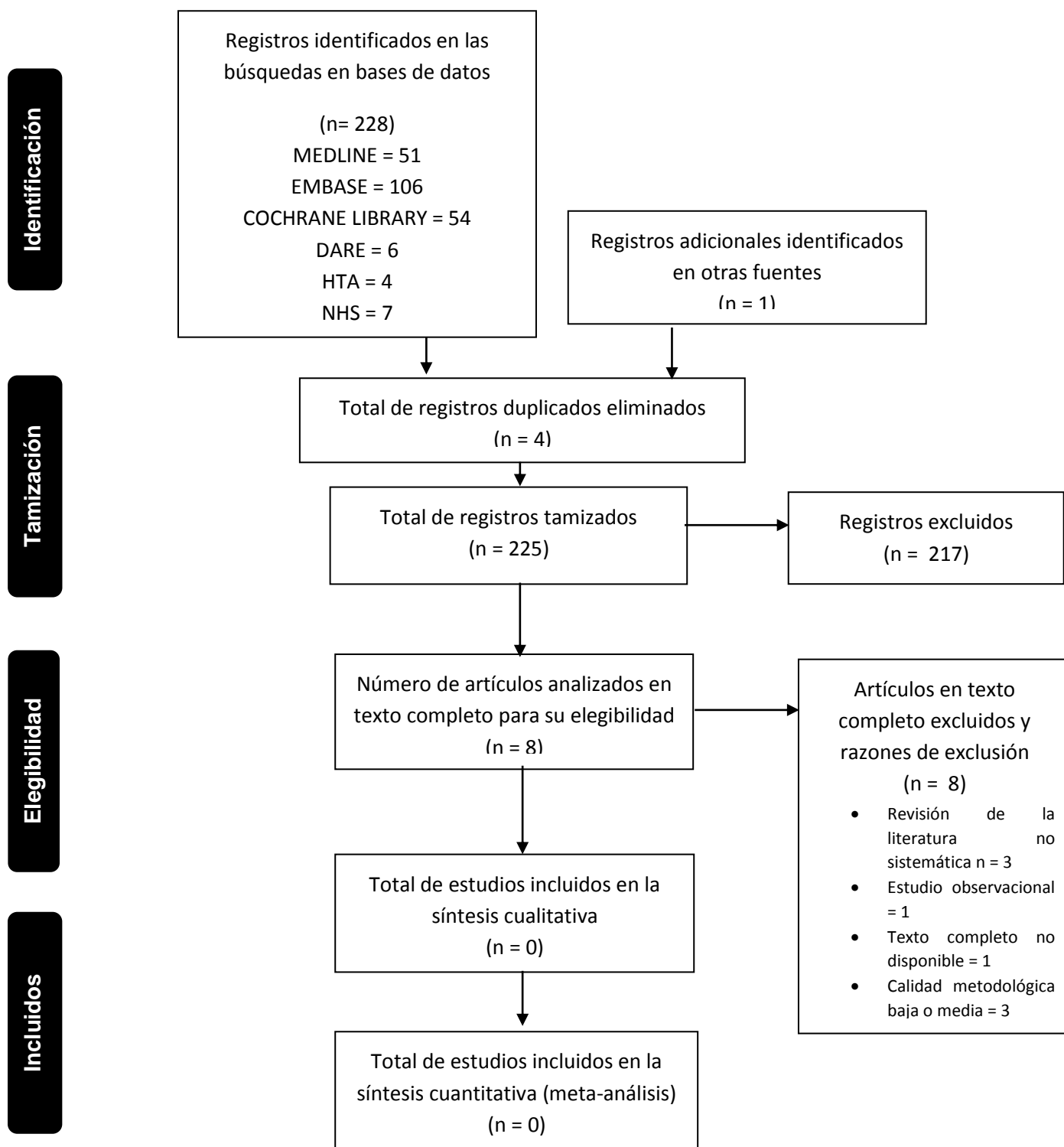
Anexo: Diagrama de flujo de la búsqueda, tamización y selección de evidencia de revisión de características operativas (búsqueda de novo)



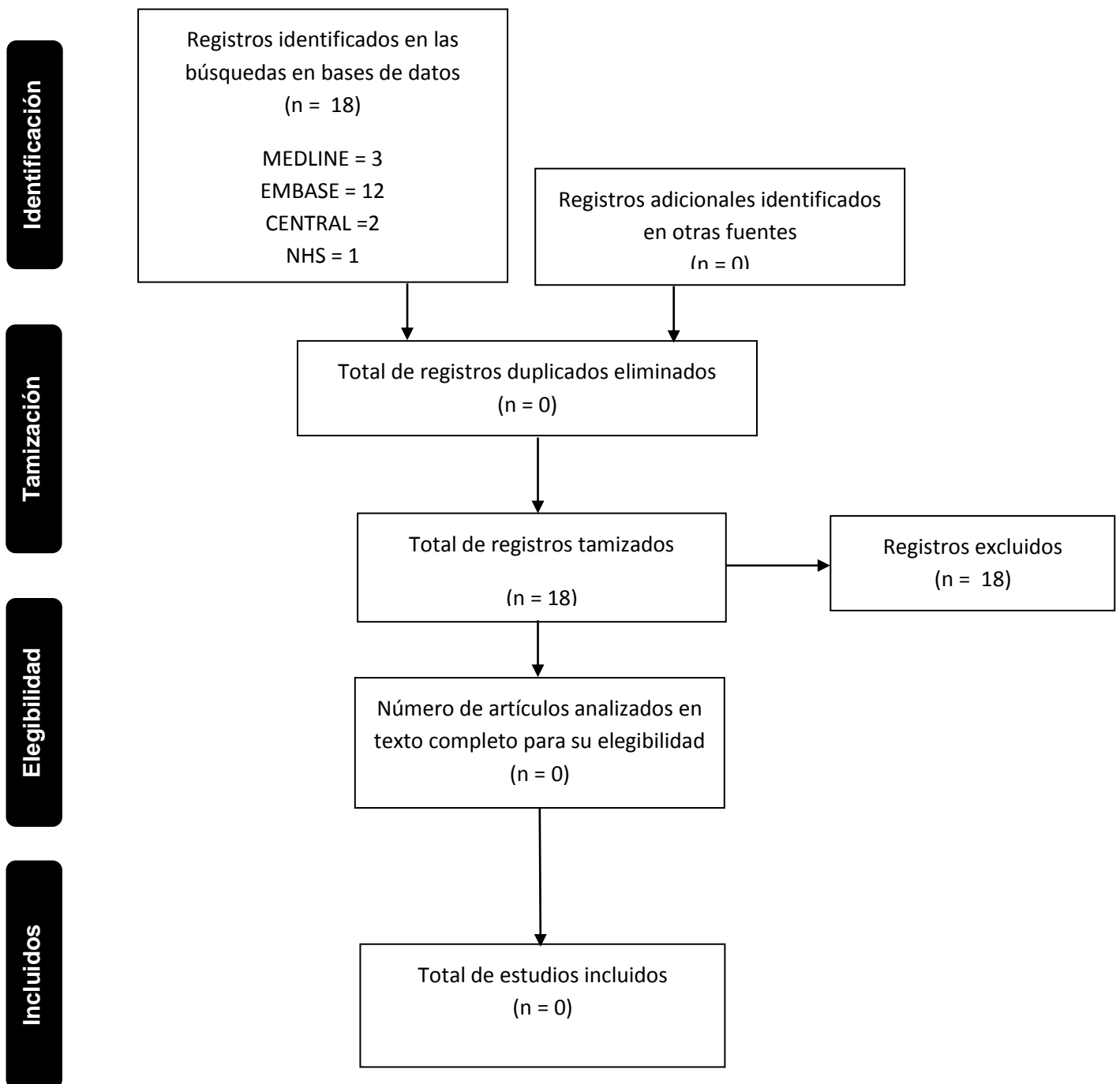
Anexo: Diagrama de flujo de la actualización de evidencia de revisión de pruebas diagnósticas



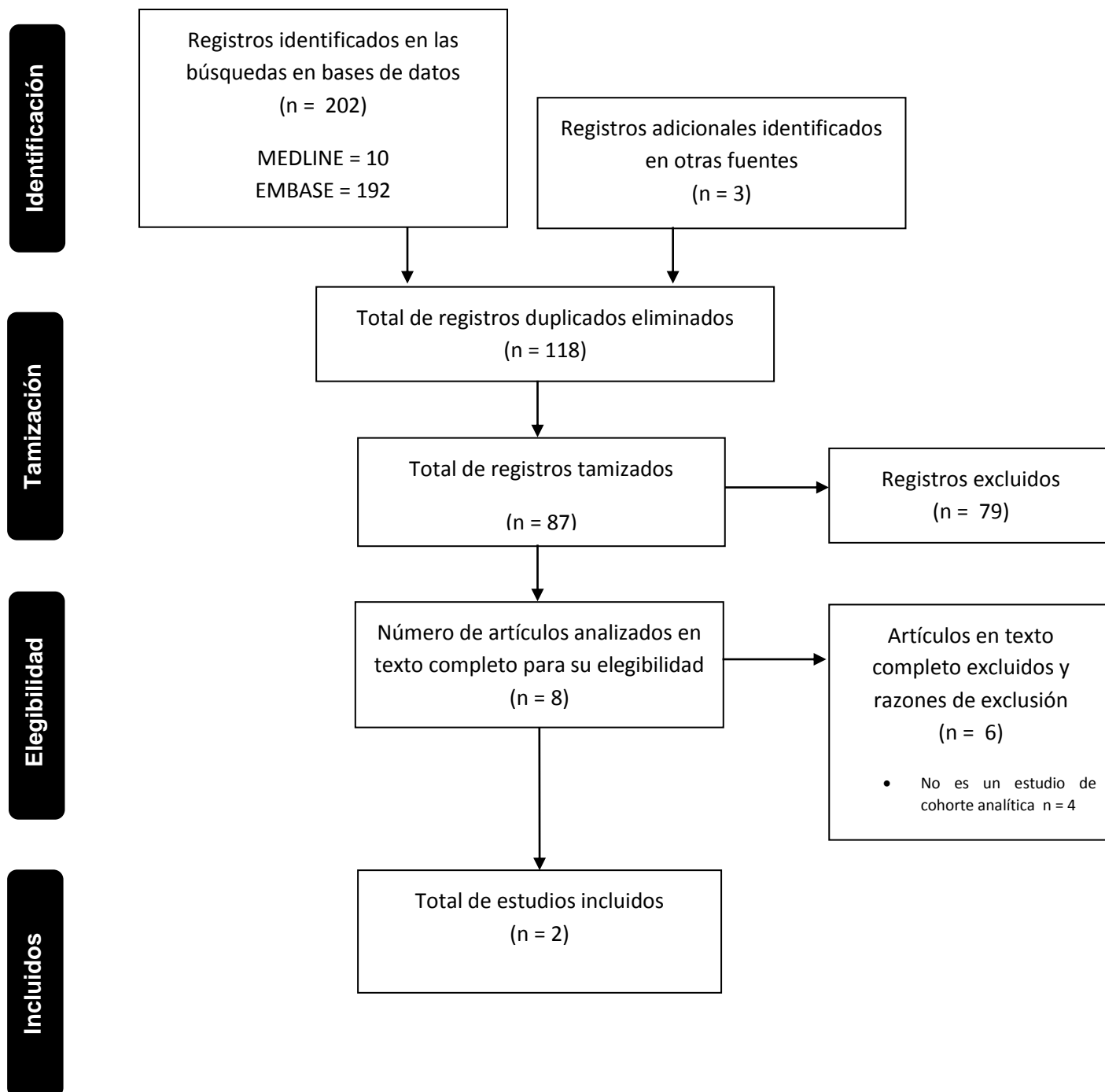
Anexo: Diagrama de flujo de la búsqueda, tamización y selección de revisiones sistemáticas de efectividad del inicio temprano del tratamiento (búsqueda de novo)



Anexo: Diagrama de flujo de la búsqueda, tamización y selección de ensayos controlados con asignación aleatoria sobre la efectividad de inicio temprano del tratamiento (búsqueda de novo)



Anexo: Diagrama de flujo de la búsqueda, tamización y selección de cohortes analíticas (búsqueda de novo)



Anexo: Listado de estudios incluidos en la evaluación

Estudios de pruebas diagnósticas

- Heidari S, Manesh AO, Rajabi F. The sensitivity and specificity of automated auditory brainstem response and otoacoustic emission in neonatal hearing screening: a systematic review. *Audit Vestib Res.* 2015;24(3):141–51.

Estudios de efectividad y seguridad de inicio temprano del tratamiento

- Fulcher A, Purcell A a, Baker E, Munro N. Listen up: Children with early identified hearing loss achieve age-appropriate speech /language outcomes by 3 years-of-age. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* Elsevier Ireland Ltd; 2012;76(12):1785–94.
- Yang Y, Liu YH, Fu MF, Li CL, Wang LY, Wang Q, et al. Home-based early intervention on auditory and speech development in mandarin-speaking deaf infants and toddlers with chronological aged 7–24 months. *Chin Med J (Engl).* 2015;128(16):2202–7.
- Terry B, Kelt R, Jeyakumar A. Delayed Complications After Cochlear Implantation. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 2015;141(11):1012-1017 (obtenido durante la búsqueda rápida de literatura).

Anexo: Listado de estudios excluidos y razones para su exclusión

Nombre del estudio	Razón de exclusión
Estudios de pruebas diagnósticas	
<p>Akinpelu O V., Peleva E, Funnell WRJ, Daniel SJ. Otoacoustic emissions in newborn hearing screening: A systematic review of the effects of different protocols on test outcomes. <i>Int J Pediatr Otorhinolaryngol</i> [Internet]. Elsevier Ireland Ltd; 2014;78(5):711–7.</p>	<p>La comparación entre la prueba índice (OEA) y el patrón de referencia (PEA de diagnóstico) se realizó únicamente en recién nacidos con factores de riesgo o que fallaron en la primera etapa del tamizaje, realizado con OEA, por lo cual no reportan los desenlaces de interés (características operativas).</p>
<p>Ptok M. Early detection of hearing impairment in newborns and infants. <i>Dtsch Arztebl Int</i> [Internet]. Germany: Ptok,Martin. Klinik und Poliklinik für Phoniatrie und Padaudiologie, Medizinische Hochschule Hannover, Germany. Ptok.Martin@MH-Hannover.de; 2011;108(25):426–31.</p>	<p>No se indican criterios de inclusión de los estudios.</p> <p>No se reporta una metodología explícita y reproducible.</p> <p>No hay una síntesis de los resultados y características de los estudios incluidos.</p> <p>No se reportan datos cuantitativos</p>
<p>Wolff R, Hommerich J, Riemsma R, Antes G, Lange S, Kleijnen J. Hearing screening in newborns: systematic review of accuracy, effectiveness, and effects of interventions after screening. <i>Arch Dis Child</i> [Internet]. England: Wolff,R. Department of Medical Biometry and Statistics, University Hospital Freiburg, Freiburg, Germany. robert@systematic-reviews.com; 2010;95(2):130–5.</p>	<p>Las OEA no se comparan con el patrón de referencia (PEA de diagnóstico), sino con el otro comparador (PEAA), sin embargo.</p>
<p>Puig T, Muncio A, Meda C. Universal neonatal hearing screening versus selective screening as part of the management of childhood deafness. <i>Cochrane database Syst Rev</i> [Internet]. England: Puig,T. Epidemiology Service - Iberoamerican Cochrane Centre, Hospital de la Santa Creu i Sant Pau, Sant Antoni Maria Claret , 171, 4a planta, Barcelona, Spain, 08041. tpuig@hsp.santpau.es; 2005;(2):CD003731.</p>	<p>No identificaron estudios que cumplieran los criterios de elegibilidad establecidos, por lo cual no fue incluido ningún estudio en la revisión sistemática.</p>
<p>Puig Reixach MT, Muncio A, Meda MC. WITHDRAWN. Universal neonatal hearing screening versus selective screening as part of the management of childhood deafness. <i>Cochrane database Syst Rev</i> [Internet]. England: Puig Reixach,M Teresa. Servei d'Epidemiologia Clínica i Salut Pública, Hospital de la Santa Creu i Sant Pau. Universitat Autònoma de Barcelona, c/ Sant Antoni M. Claret 171, Barcelona, Spain, 08041.; 2010;(1):CD003731.</p>	<p>Se actualizó la búsqueda de evidencia, sin embargo, entre los estudios seleccionados, ninguno cumplió con los criterios de elegibilidad establecidos.</p>
<p>Okubo S, Takahashi M, Saito T, Kai I. Evaluation of universal newborn hearing screening in Japan: an</p>	<p>Los estudios incluidos no comparaban las estrategias de tamizaje con el patrón de</p>

Anexo B. Nombrar el anexo B de acuerdo con su contenido

- analysis of the literature. Nihon Koshu Eisei Zasshi [Internet]. Japan: Okubo,Suguru. School of Health Sciences and Nursing, Graduate School of Medicine, the University of Tokyo, 7-3-1 Hongo Bunkyo-ku Tokyo 113-0033, Japan. sgr-tyk@umin.ac.jp; 2005;52(11):928–33.
- referencia, por lo que no se reportaban las características operativas de las pruebas.
- Watkin PM. Neonatal screening for hearing impairment. Semin Neonatol [Internet]. England: Watkin,P M. Audiology Department, Whipps Cross Hospital, Leytonstone, London, UK. pmwatkin@supanet.com; 2001;6(6):501–9.
- Es una revisión narrativa.
- Thompson DC, McPhillips H, Davis RL, Lieu TL, Homer CJ, Helfand M. Universal newborn hearing screening: summary of evidence. JAMA [Internet]. United States: Thompson,D C. Harborview Injury Prevention and Research Center, 325 Ninth Ave, Box 359960, Seattle, WA 98104, USA. dct@u.washington.edu; 2001;286(16):2000–10.
- Los estudios incluidos no comparaban las estrategias de tamizaje con el patrón de referencia.
- Davis A, Bamford J, Stevens J. Performance of neonatal and infant hearing screens: sensitivity and specificity. Br J Audiol [Internet]. England: Davis,A. MRC Institute of Hearing Research, University Park, Nottingham, UK. adrian@ihr.mrc.ac.uk; 2001;35(1):3–15.
- No se encuentra el texto completo disponible, además fue publicado hace más de 5 años.
- Alberta Canada. Alberta STE Report: The Safety and Efficacy/Effectiveness of Using Automated Testing Devices for Universal Newborn Hearing Screening : An Update. Canada; 2012.
- Es un estudio de costo efectividad; no presentan
- Lam BCC. Newborn hearing screening in Hong Kong. Hong Kong Med J [Internet]. China: Lam,B C C. Department of Paediatrics and Adolescent Medicine, University of Hong Kong, Queen Mary Hospital, Pokfulam Road, Hong Kong. lamccb@ha.org.hk; 2006;12(3):212–8.
- No hay una metodología explícita ni reproducible, no se reportan los resultados de la búsqueda sistemática.
- No se evaluó la validez de los resultados de los estudios incluidos.
- No se reportan datos cuantitativos
- Perez-Abalo MC, Gaya JA, Savio G, Ponce de Leon M, Perera M, Reigosa V. Early detection and intervention of hearing impairment in Cuba: outcome after 20 years. Diagnostico e Interv temprana los Trastor la Audic una Exp Cuba 20 anos [Internet]. Spain: Perez-Abalo,M C. Centro de Neurociencias de Cuba (CNC), Cubanacan, Playa. La Habana, Cuba.; 2005;41(9):556–63.
- Es una revisión narrativa.
- Papacharalampous GX, Nikolopoulos TP, Davilis DI, Xenellis IE, Korres SG. Universal newborn hearing screening, a revolutionary diagnosis of deafness: Real benefits and limitations. Eur Arch Oto-Rhino-Laryngology. 2011;268(10):1399–406.
- No se evaluó la precisión diagnóstica de las pruebas de interés, por lo cual no se presentaron datos cuantitativos.
- Patel, H. Feldman M, Canadian Paediatric Society, Community Paediatrics Committee. Universal newborn hearing screening. Paediatr Child Heal. 2011;16(5):301–5.
- No se evaluó la precisión diagnóstica de las pruebas de interés, por lo cual no se presentaron datos cuantitativos.

Actualización estudios de pruebas diagnósticas

Levit Y, Himmelfarb M, Dollberg S. Sensitivity of the Automated Auditory Brainstem Response in Neonatal Hearing Screening. <i>Pediatrics</i> [Internet]. 2015;136(3):e641–7.	El tamizaje era de dos etapas, primero OEA y segundo AABR sólo en RN que fallaron la primera prueba. El estándar de referencia sólo se aplicó en RN que fallaron la prueba de AABR o presentaban factores de riesgo.
Han Y, Huang L, Zhang W, Zhang Y, Jia X, Ni T, et al. [Cost-effectiveness of three-stage newborns hearing screening in Beijing]. <i>Zhonghua Liu Xing Bing Xue Za Zhi</i> [Internet]. 2015 May [cited 2016 May 1];36(5):455–9.	El estándar de referencia sólo se aplicó en RN que fallaron la prueba de tamizaje inicial de OEA.

Nombre del estudio

Razón de exclusión

Estudios de efectividad de inicio temprano del tratamiento

Van Wieringen A, Wouters J. What can we expect of normally-developing children implanted at a young age with respect to their auditory, linguistic and cognitive skills? <i>Hear Res. Elsevier B.V.</i> ; 2014;322:171–9.	Es una revisión de la literatura no sistemática. No se indican criterios de inclusión de los estudios. No se reporta una metodología explícita y reproducible. No se reportan datos cuantitativos
Sharma A, Campbell J. A sensitive period for cochlear implantation in deaf children. <i>J Matern neonatal Med Off J Eur Assoc Perinat Med Fed Asia Ocean Perinat Soc Int Soc Perinat Obstet.</i> 2011;24(0 1):151–3.	Es una revisión de la literatura no sistemática. No se indican criterios de inclusión de los estudios. No se reporta una metodología explícita y reproducible. No se reportan datos cuantitativos
Tharpe AM, Gustafson S. Management of Children with Mild, Moderate, and Moderately Severe Sensorineural Hearing Loss. <i>Otolaryngol Clin North Am.</i> Elsevier Inc; 2015;48(6):983–94.	Es una revisión de la literatura no sistemática. No se indican criterios de inclusión de los estudios. No se reporta una metodología explícita y reproducible. No se reportan datos cuantitativos
Semenov YR, Yeh ST, Seshamani M, Wang N, Tobey E a, Eisenberg LS, et al. Age dependent cost-utility of pediatric cochlear implantation. <i>Ear & Hear.</i> 2013;34(4):402–12.	El análisis de costo utilidad no se llevó a cabo mediante una revisión de la literatura sino a partir de un estudio observacional.
Başal Y, Günel C, Bağak S. Management of children with hearing loss: Review. <i>Türkiye Klinikleri Pediatri.</i> 2014; 23:4 (157-163).	No disponible en texto completo. Publicado en una revista en idioma diferente a inglés o español.
Vlastarakos P V., Proikas K, Papacharalampous G, Exadaktylou I, Mochloulis G, Nikolopoulos TP. Cochlear implantation under the first year of age-The outcomes. A critical systematic review and meta-analysis. <i>Int J Pediatr Otorhinolaryngol.</i> 2010;74(2):119–26.	Se excluyó por baja calidad metodológica de acuerdo al puntaje obtenido en la herramienta AMSTAR (2 puntos).
Wolff R, Hommerich J, Riemsma R, Antes G, Lange S, Kleijnen J. Hearing screening in newborns: systematic review of accuracy, effectiveness, and effects of	Se excluyó por calidad metodológica media de acuerdo al puntaje obtenido en la herramienta AMSTAR (5 puntos).

Anexo B. Nombrar el anexo B de acuerdo con su contenido

interventions after screening. Arch Dis Child. 2010;95(2):130–5.

Forli F, Arslan E, Bellelli S, Burdo S, Mancini P, Martini a, et al. Systematic review of the literature on the clinical effectiveness of the cochlear implant procedure in paediatric patients. Acta Otorhinolaryngol Ital. 2011;31(5):281–98.

Ching TY., Day J, Seeto M, Dillon H, Marnane V, Street L. Predicting 3-year outcomes of early-identified children with multichannel cochlear implants. B-ENT. 2012;100(2):130–4.

Uziel AS, Sillon M, Vieu A, Artieres F, Piron J-P, Daures J-P, et al. Ten-year follow-up of a consecutive series of children with multichannel cochlear implants. Otol Neurotol. 2007;28(5):615–28.

Grant Nicholas J, Geers E A. Effects of early auditory experience on the spoken language of deaf children at 3 years of age. Ear Hear [Internet]. 2006;27(3):286–98.

Sugaya A, Fukushima K, Kasai N, Kataoka Y, Maeda Y, Nagayasu R, et al. Impact of early intervention on comprehensive language and academic achievement in Japanese hearing-impaired children with cochlear implants. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. Elsevier Ireland Ltd; 2015;79(12):2142–6.

Miyamoto RT, Houston DM, Bergeson T. Cochlear implantation in deaf infants. Laryngoscope. 2005;115(8):1376–80.

Ching TYC, Dillon H, Marnane V, Hou S, Day J, Seeto M, et al. Outcomes of Early- and Late-identified Children at 3 Years of Age: Findings from a Prospective Population-based Study. Ear Hear. 2013;34(5):535–52.

Se excluyó por calidad metodológica media de acuerdo al puntaje obtenido en la herramienta AMSTAR (4 puntos). No se evaluó validez de los estudios, no se incluyeron comparaciones cabeza a cabeza ni se reportaron datos cuantitativos para al menos una comparación y desenlace de interés.

No es un estudio de cohorte analítico. Los participantes fueron evaluados a los 6 y 12 meses después de iniciar la amplificación y a los 3 y 5 años de edad. En el estudio no se reportan los resultados o el efecto de la variable de edad de inicio de amplificación.

No es un estudio de cohorte analítico. Se evaluaron niños sordos prelinguales que recibieron implante coclear entre 1989 y 1995. Se reporta un seguimiento durante 10 años, sin embargo no se incluye medición basal. El desempeño del lenguaje en los niños sólo fue evaluado en una ocasión y los resultados obtenidos se analizaron en dos grupos: niños implantados tempranamente (antes de los 4 años) vs. Niños implantados tardíamente.

No es un estudio de cohorte analítica. Los participantes del estudio fueron evaluados una sola vez mediante unas pruebas de lenguaje y el diligenciamiento de encuestas por parte de los padres. No se realizó seguimiento ni se tomó una medición basal.

No es un estudio de cohorte analítica sino un estudio de corte transversal. Los participantes fueron elegidos de forma retrospectiva, incluyendo participantes de un estudio multicéntrico realizado previamente "The Research on Sensory and Communicative Disorders (RSCD) project". Se evaluó el desarrollo de lenguaje y aspectos socioeconómicos mediante pruebas y cuestionarios a los cuidadores. No se realizó seguimiento. Dividieron el grupo en niños con ayudas auditivas adaptadas tempranamente vs ayudas auditivas adaptadas tardíamente.

No es un estudio de cohorte analítica. Se evaluaron las habilidades de habla y lenguaje en niños implantados entre los 6 a 12, implantados tardíamente y niños con audición normal. Se compararon los resultados obtenidos en cada grupo. No se obtuvo medición inicial ni tampoco se realizó seguimiento.

No es un estudio de cohorte analítico. Evalúa el desarrollo del lenguaje en un grupo de niños de 3 años edad; no se tomó medición inicial ni se realizó seguimiento posterior. Los participantes no se dividieron en grupos de intervención temprana

vs tardía; la influencia de estas variables se analizó mediante un análisis de regresión. Se asumía que los beneficios de la intervención temprana se derivaban del diagnóstico temprano.

Actualización estudios de efectividad de inicio temprano

[Bayazit YA, Altinyay S, Cevizci R](#). Delayed prelingual cochlear implantation in childhood and puberty. [Int J Pediatr Otorhinolaryngol](#). 2015 Feb;79(2):146-50.

Se evaluaron los resultados del implante coclear en pacientes con pérdida auditiva profunda prelingual, implantados en la infancia o en la pubertad (recibieron el IC entre los 5 a los 19 años), no en niños menores de 12 meses. No cumple con los criterios de elegibilidad de la revisión sistemática seleccionada para actualizar (Wolff, 2010), ya que se incluyeron pacientes mayores de 10 años.

[Sugaya A, Fukushima K, Kasai N, Kataoka Y, Maeda Y, Nagayasu R](#), et al. Impact of early intervention on comprehensive language and academic achievement in Japanese hearing-impaired children with cochlear implants. [Int J Pediatr Otorhinolaryngol](#). 2015 Dec;79(12):2142-6.

Estudio retrospectivo. No cumple con los criterios de elegibilidad de la revisión sistemática seleccionada para actualizar (Wolff, 2010), ya que se incluyeron pacientes mayores de 10 años.

Anexo: Calidad de las revisiones sistemáticas incluidas en la evaluación de pruebas diagnósticas (herramienta AMSTAR)

Criterio	Heidari 2015
1. ¿Fue provisto un diseño a priori? Se establecieron antes de conducir la revisión: <ul style="list-style-type: none">• La pregunta de investigación.• Los criterios de inclusión.	Sí (1)
2. ¿La selección de los estudios y la extracción de datos fue duplicada?: <ul style="list-style-type: none">• Existieron por lo menos dos revisores independientes para la extracción de datos.• Existió un procedimiento de consenso para resolver los desacuerdos.	No (0)
3. ¿Se realizó una búsqueda exhaustiva de literatura?: <ul style="list-style-type: none">• La búsqueda incluyó al menos dos fuentes electrónicas.• El reporte incluyó los años y las bases de datos usadas (por ejemplo, CENTRAL, EMBASE y MEDLINE).• Las palabras clave, los términos MeSH y la estrategia de búsqueda fueron reportados.• Todas las búsquedas fueron complementadas por consulta de revisiones, libros de texto, registros especializados, expertos en el campo de estudio específico y por revisión de las referencias en los estudios identificados.	Sí (1) <i>Observaciones:</i> <i>Se reportan bases de datos empleadas, palabras clave y MeSH, sin embargo, no se presenta anexo con estrategia de búsqueda.</i>
4. ¿El estado de la publicación (por ejemplo, literatura gris) fue utilizado como criterio de inclusión?: <ul style="list-style-type: none">• Los autores declararon que se buscó literatura independientemente del estado de la publicación.• Se indicó si se excluyó o no algún reporte de la revisión sistemática, con base en su estado de publicación, lenguaje, etc.	No es claro (0) <i>Observaciones:</i> <i>Incluyeron búsqueda en "Google Scholar", sin embargo, no es claro si incluyeron literatura gris. No se presenta en el reporte el anexo con las razones de exclusiones de los estudios identificados.</i>
5. ¿Se presentó un listado de estudios incluidos y excluidos?	No (0) <i>Observaciones:</i> <i>No se presenta el listado de los estudios excluidos</i>
6. ¿Se presentaron las características de los estudios incluidos?: <ul style="list-style-type: none">• Se presentaron los datos de los estudios originales: participantes, intervenciones y desenlaces.• Se reportaron las características de todos los estudios analizados: edad, raza, sexo,	Sí (1)

<p>nivel socioeconómico, estado, duración y severidad de la enfermedad o comorbilidades.</p>	
7. ¿La calidad de los estudios incluidos fue evaluada y documentada?:	Sí (1)
<ul style="list-style-type: none"> • Se definieron a priori los criterios de evaluación de calidad (por ejemplo, para estudios de efectividad, si los autores decidieron incluir solamente estudios aleatorizados, doble ciego, placebo controlados, o si el ocultamiento de la asignación se empleó como un criterio de inclusión). • Se consideraron ítems relevantes para otro tipo de estudios. 	<p><i>Observaciones:</i></p> <p><i>La calidad de los estudios fue evaluada con la herramienta QUADAS.</i></p>
8. ¿Se utilizó adecuadamente la calidad de los estudios para formular las conclusiones?:	Sí (1)
<ul style="list-style-type: none"> • Los resultados del rigor metodológico y la calidad científica se consideraron en el análisis, las conclusiones y explícitamente en la formulación de recomendaciones. 	
9. ¿Fueron apropiados los métodos para combinar los hallazgos de los estudios?:	Sí (1)
<ul style="list-style-type: none"> • Se realizó una prueba para asegurar que los estudios fueran combinables, para evaluar su homogeneidad (por ejemplo, prueba ji cuadrado, I²). • Si la heterogeneidad existió, se debió usar un modelo de efectos aleatorios o se debió tomar en consideración la pertinencia clínica de combinar los estudios (¿es factible combinarlos?). 	
10. ¿Se evaluó la probabilidad de sesgo de publicación?:	No (0)
<ul style="list-style-type: none"> • La evaluación del sesgo de publicación debió incluir una combinación de ayudas gráficas (por ejemplo, gráfico de embudo u otras pruebas disponibles) o pruebas estadísticas (por ejemplo, prueba de Egger). 	
11. ¿Se declaró la existencia de conflictos de interés?:	Sí (1)
<ul style="list-style-type: none"> • Las fuentes de financiación o apoyo fueron claramente reconocidas tanto en la revisión, como en los estudios incluidos. 	
Calidad global	Media (7)

Anexo: Calidad de las revisiones sistemáticas revisadas durante la evaluación de efectividad y seguridad de inicio temprano del tratamiento (herramienta AMSTAR)

Criterio	Vlastarakos 2010
1. ¿Fue provisto un diseño a priori? Se establecieron antes de conducir la revisión: <ul style="list-style-type: none">• La pregunta de investigación.• Los criterios de inclusión.	Sí (1)
2. ¿La selección de los estudios y la extracción de datos fue duplicada?: <ul style="list-style-type: none">• Existieron por lo menos dos revisores independientes para la extracción de datos.• Existió un procedimiento de consenso para resolver los desacuerdos.	No es claro (0) <i>Observaciones: No se menciona en el artículo.</i>
3. ¿Se realizó una búsqueda exhaustiva de literatura?: <ul style="list-style-type: none">• La búsqueda incluyó al menos dos fuentes electrónicas.• El reporte incluyó los años y las bases de datos usadas (por ejemplo, CENTRAL, EMBASE y MEDLINE).• Las palabras clave, los términos MeSH y la estrategia de búsqueda fueron reportados.• Todas las búsquedas fueron complementadas por consulta de revisiones, libros de texto, registros especializados, expertos en el campo de estudio específico y por revisión de las referencias en los estudios identificados.	No es claro (0) <i>Observaciones: Se menciona que la búsqueda se realizó en Medline y en otras bases de datos disponibles; sin embargo, no reportan específicamente cuales se revisaron. No se incluyó estrategia de búsqueda, solo los términos empleados.</i>
4. ¿El estado de la publicación (por ejemplo, literatura gris) fue utilizado como criterio de inclusión?: <ul style="list-style-type: none">• Los autores declararon que se buscó literatura independientemente del estado de la publicación.• Se indicó si se excluyó o no algún reporte de la revisión sistemática, con base en su estado de publicación, lenguaje, etc.	No (0)
5. ¿Se presentó un listado de estudios incluidos y excluidos?	No (0)
6. ¿Se presentaron las características de los estudios incluidos?: <ul style="list-style-type: none">• Se presentaron los datos de los estudios originales: participantes, intervenciones y desenlaces.• Se reportaron las características de todos los estudios analizados: edad, raza, sexo, nivel socioeconómico, estado, duración y severidad de la enfermedad o comorbilidades.	Sí (1)

7. ¿La calidad de los estudios incluidos fue evaluada y documentada?:	No (0)
<ul style="list-style-type: none"> • Se definieron a priori los criterios de evaluación de calidad (por ejemplo, para estudios de efectividad, si los autores decidieron incluir solamente estudios aleatorizados, doble ciego, placebo controlados, o si el ocultamiento de la asignación se empleó como un criterio de inclusión). • Se consideraron ítems relevantes para otro tipo de estudios. 	
8. ¿Se utilizó adecuadamente la calidad de los estudios para formular las conclusiones?:	No es claro (0)
<ul style="list-style-type: none"> • Los resultados del rigor metodológico y la calidad científica se consideraron en el análisis, las conclusiones y explícitamente en la formulación de recomendaciones. 	<i>Observaciones: Aunque no se evaluó la calidad de los estudios, se reconoce en la discusión y las conclusiones que los estudios incluidos eran de baja calidad debido al diseño.</i>
9. ¿Fueron apropiados los métodos para combinar los hallazgos de los estudios?:	No (0)
<ul style="list-style-type: none"> • Se realizó una prueba para asegurar que los estudios fueran combinables, para evaluar su homogeneidad (por ejemplo, prueba ji cuadrado, I²). • Si la heterogeneidad existió, se debió usar un modelo de efectos aleatorios o se debió tomar en consideración la pertinencia clínica de combinar los estudios (¿es factible combinarlos?). 	<i>Observaciones: No se realizó meta análisis debido a la heterogeneidad entre los estudios por la ausencia de un desenlace comparable entre ellos, que haya sido medido con la misma escala y diferencias en los tiempos de seguimiento.</i>
10. ¿Se evaluó la probabilidad de sesgo de publicación?:	No (0)
<ul style="list-style-type: none"> • La evaluación del sesgo de publicación debió incluir una combinación de ayudas gráficas (por ejemplo, gráfico de embudo u otras pruebas disponibles) o pruebas estadísticas (por ejemplo, prueba de Egger). 	
11. ¿Se declaró la existencia de conflictos de interés?:	No (0)
<ul style="list-style-type: none"> • Las fuentes de financiación o apoyo fueron claramente reconocidas tanto en la revisión, como en los estudios incluidos. 	
Calidad global	Baja (2)

Crterio	Wolff 2010
1. ¿Fue provisto un diseño a priori? Se establecieron antes de conducir la revisión:	Sí (1)
<ul style="list-style-type: none"> • La pregunta de investigación. • Los criterios de inclusión. 	
2. ¿La selección de los estudios y la extracción de datos fue duplicada?:	Sí (1)
<ul style="list-style-type: none"> • Existieron por lo menos dos revisores independientes para la extracción de datos. • Existió un procedimiento de consenso para resolver los desacuerdos. 	
3. ¿Se realizó una búsqueda exhaustiva de literatura?:	Sí (1)
<ul style="list-style-type: none"> • La búsqueda incluyó al menos dos fuentes electrónicas. • El reporte incluyó los años y las bases de 	

Anexo B. Nombrar el anexo B de acuerdo con su contenido

- datos usadas (por ejemplo, CENTRAL, EMBASE y MEDLINE).
- Las palabras clave, los términos MeSH y la estrategia de búsqueda fueron reportados.
 - Todas las búsquedas fueron complementadas por consulta de revisiones, libros de texto, registros especializados, expertos en el campo de estudio específico y por revisión de las referencias en los estudios identificados.
4. ¿El estado de la publicación (por ejemplo, literatura gris) fue utilizado como criterio de inclusión?: No es claro (0)
- Observaciones: No se realizó restricción por idioma. No se menciona si se buscó referencias adicionales en literatura gris.*
- Los autores declararon que se buscó literatura independientemente del estado de la publicación.
 - Se indicó si se excluyó o no algún reporte de la revisión sistemática, con base en su estado de publicación, lenguaje, etc.
5. ¿Se presentó un listado de estudios incluidos y excluidos? No (0)
6. ¿Se presentaron las características de los estudios incluidos?: No es claro (0)
- Observaciones: Solo hay una tabla de las características de los estudios para la revisión de estudios de tamización.*
- Se presentaron los datos de los estudios originales: participantes, intervenciones y desenlaces.
 - Se reportaron las características de todos los estudios analizados: edad, raza, sexo, nivel socioeconómico, estado, duración y severidad de la enfermedad o comorbilidades.
7. ¿La calidad de los estudios incluidos fue evaluada y documentada?: No es claro (0)
- Observaciones: Se incluyeron estudios controlados aleatorizados, no aleatorizados y estudios de cohorte. Se empleó una herramienta del "Centre for Reviews and Dissemination (CRD)". Evaluaron aspectos tales como planeación del tamaño de muestra, cegamiento y comparabilidad de las características basales entre los grupos, consideración de factores de confusión y transparencia. Sin embargo; no se presenta alguna tabla con el resultado de calidad para cada estudio, solo se indica un nivel de calidad en general para todos los estudios incluidos (bajo).*
- Se definieron a priori los criterios de evaluación de calidad (por ejemplo, para estudios de efectividad, si los autores decidieron incluir solamente estudios aleatorizados, doble ciego, placebo controlados, o si el ocultamiento de la asignación se empleó como un criterio de inclusión).
 - Se consideraron ítems relevantes para otro tipo de estudios.
8. ¿Se utilizó adecuadamente la calidad de los estudios para formular las conclusiones?: Sí (1)
- Observaciones: En las conclusiones se reconoce la ausencia de evidencia de alta calidad.*
- Los resultados del rigor metodológico y la calidad científica se consideraron en el análisis, las conclusiones y explícitamente en la formulación de recomendaciones.
9. ¿Fueron apropiados los métodos para combinar los hallazgos de los estudios?: No (0)
- Observaciones: Debido a las limitaciones de los estudios incluidos, no se realizó meta análisis ni análisis de sensibilidad.*
- Se realizó una prueba para asegurar que los estudios fueran combinables, para evaluar su homogeneidad (por ejemplo, prueba ji cuadrado, I²).
 - Si la heterogeneidad existió, se debió usar un modelo de efectos aleatorios o se debió

tomar en consideración la pertinencia clínica de combinar los estudios (¿es factible combinarlos?).	
10. ¿Se evaluó la probabilidad de sesgo de publicación?:	No (0)
<ul style="list-style-type: none"> La evaluación del sesgo de publicación debió incluir una combinación de ayudas gráficas (por ejemplo, gráfico de embudo u otras pruebas disponibles) o pruebas estadísticas (por ejemplo, prueba de Egger). 	
11. ¿Se declaró la existencia de conflictos de interés?:	Si (1)
<ul style="list-style-type: none"> Las fuentes de financiación o apoyo fueron claramente reconocidas tanto en la revisión, como en los estudios incluidos. 	
Calidad global	Media (5)

Criterio	Forli 2011
1. ¿Fue provisto un diseño a priori? Se establecieron antes de conducir la revisión:	Sí (1)
<ul style="list-style-type: none"> La pregunta de investigación. Los criterios de inclusión. 	
2. ¿La selección de los estudios y la extracción de datos fue duplicada?:	Sí (1)
<ul style="list-style-type: none"> Existieron por lo menos dos revisores independientes para la extracción de datos. Existió un procedimiento de consenso para resolver los desacuerdos. 	
3. ¿Se realizó una búsqueda exhaustiva de literatura?:	Sí (1)
<ul style="list-style-type: none"> La búsqueda incluyó al menos dos fuentes electrónicas. El reporte incluyó los años y las bases de datos usadas (por ejemplo, CENTRAL, EMBASE y MEDLINE). Las palabras clave, los términos MeSH y la estrategia de búsqueda fueron reportados. Todas las búsquedas fueron complementadas por consulta de revisiones, libros de texto, registros especializados, expertos en el campo de estudio específico y por revisión de las referencias en los estudios identificados. 	
4. ¿El estado de la publicación (por ejemplo, literatura gris) fue utilizado como criterio de inclusión?:	No es claro (0)
<ul style="list-style-type: none"> Los autores declararon que se buscó literatura independientemente del estado de la publicación. Se indicó si se excluyó o no algún reporte de la revisión sistemática, con base en su estado de publicación, lenguaje, etc. 	<i>Observaciones: No se reporta búsqueda en literatura gris. Se excluyeron estudios publicados en idiomas diferentes al inglés.</i>
5. ¿Se presentó un listado de estudios incluidos y excluidos?	No (0)
	<i>Observaciones: No hay listado de estudios excluidos.</i>
6. ¿Se presentaron las características de los	Sí (1)

Anexo B. Nombrar el anexo B de acuerdo con su contenido

estudios incluidos?:

- Se presentaron los datos de los estudios originales: participantes, intervenciones y desenlaces.
- Se reportaron las características de todos los estudios analizados: edad, raza, sexo, nivel socioeconómico, estado, duración y severidad de la enfermedad o comorbilidades.

7. ¿La calidad de los estudios incluidos fue evaluada y documentada?: No es claro (0)

- Se definieron a priori los criterios de evaluación de calidad (por ejemplo, para estudios de efectividad, si los autores decidieron incluir solamente estudios aleatorizados, doble ciego, placebo controlados, o si el ocultamiento de la asignación se empleó como un criterio de inclusión).
- Se consideraron ítems relevantes para otro tipo de estudios.

Observaciones: No se definió a priori el diseño de los estudios a incluir. Aunque se indica que la calidad metodológica fue evaluada mediante los instrumentos sugeridos por el reporte "Systematic Reviews CRD's guidance for undertaking reviews in health care", no se indica cual herramienta se empleó ni los resultados derivados de ella. No se especificaron otros aspectos relacionados con la calidad metodológica.

8. ¿Se utilizó adecuadamente la calidad de los estudios para formular las conclusiones?: No (0)

- Los resultados del rigor metodológico y la calidad científica se consideraron en el análisis, las conclusiones y explícitamente en la formulación de recomendaciones.

9. ¿Fueron apropiados los métodos para combinar los hallazgos de los estudios?: No (0)

- Se realizó una prueba para asegurar que los estudios fueran combinables, para evaluar su homogeneidad (por ejemplo, prueba ji cuadrado, I²).
- Si la heterogeneidad existió, se debió usar un modelo de efectos aleatorios o se debió tomar en consideración la pertinencia clínica de combinar los estudios (¿es factible combinarlos?).

Observaciones: No se realizó meta análisis debido a la variabilidad entre los estudios respecto al tipo de intervenciones, desenlaces (diferencias clínicas), diseño del estudio y riesgo de error (diferencias metodológicas).

10. ¿Se evaluó la probabilidad de sesgo de publicación?: No (0)

- La evaluación del sesgo de publicación debió incluir una combinación de ayudas gráficas (por ejemplo, gráfico de embudo u otras pruebas disponibles) o pruebas estadísticas (por ejemplo, prueba de Egger).

11. ¿Se declaró la existencia de conflictos de interés?: No (0)

- Las fuentes de financiación o apoyo fueron claramente reconocidas tanto en la revisión, como en los estudios incluidos.

Calidad global

Media (4)

Criterio	Terry 2015
1. ¿Fue provisto un diseño a priori? Se establecieron antes de conducir la revisión: • La pregunta de investigación. • Los criterios de inclusión.	Sí (1)
2. ¿La selección de los estudios y la extracción de datos fue duplicada?: • Existieron por lo menos dos revisores independientes para la extracción de datos. • Existió un procedimiento de consenso para resolver los desacuerdos.	No es claro (0) <i>Observaciones: No se reporta</i>
3. ¿Se realizó una búsqueda exhaustiva de literatura?: • La búsqueda incluyó al menos dos fuentes electrónicas. • El reporte incluyó los años y las bases de datos usadas (por ejemplo, CENTRAL, EMBASE y MEDLINE). • Las palabras clave, los términos MeSH y la estrategia de búsqueda fueron reportados. • Todas las búsquedas fueron complementadas por consulta de revisiones, libros de texto, registros especializados, expertos en el campo de estudio específico y por revisión de las referencias en los estudios identificados.	No (0)
4. ¿El estado de la publicación (por ejemplo, literatura gris) fue utilizado como criterio de inclusión?: • Los autores declararon que se buscó literatura independientemente del estado de la publicación. • Se indicó si se excluyó o no algún reporte de la revisión sistemática, con base en su estado de publicación, lenguaje, etc.	No (0)
5. ¿Se presentó un listado de estudios incluidos y excluidos?	No (0)
6. ¿Se presentaron las características de los estudios incluidos?: • Se presentaron los datos de los estudios originales: participantes, intervenciones y desenlaces. • Se reportaron las características de todos los estudios analizados: edad, raza, sexo, nivel socioeconómico, estado, duración y severidad de la enfermedad o comorbilidades.	No (0)
7. ¿La calidad de los estudios incluidos fue evaluada y documentada?: • Se definieron a priori los criterios de evaluación de calidad (por ejemplo, para estudios de efectividad, si los autores decidieron incluir solamente estudios aleatorizados, doble ciego, placebo controlados, o si el ocultamiento de la asignación se empleó como un criterio de inclusión). • Se consideraron ítems relevantes para otro tipo de estudios.	No (0)
8. ¿Se utilizó adecuadamente la calidad de los estudios para formular las conclusiones?:	No (0)

Anexo B. Nombrar el anexo B de acuerdo con su contenido

- Los resultados del rigor metodológico y la calidad científica se consideraron en el análisis, las conclusiones y explícitamente en la formulación de recomendaciones.
9. ¿Fueron apropiados los métodos para combinar los hallazgos de los estudios? No (0)
- Se realizó una prueba para asegurar que los estudios fueran combinables, para evaluar su homogeneidad (por ejemplo, prueba ji cuadrado, I²).
 - Si la heterogeneidad existió, se debió usar un modelo de efectos aleatorios o se debió tomar en consideración la pertinencia clínica de combinar los estudios (¿es factible combinarlos?).
- Observaciones: Debido a las limitaciones de los estudios incluidos, no se realizó meta análisis ni análisis de sensibilidad.
10. ¿Se evaluó la probabilidad de sesgo de publicación? No (0)
- La evaluación del sesgo de publicación debió incluir una combinación de ayudas gráficas (por ejemplo, gráfico de embudo u otras pruebas disponibles) o pruebas estadísticas (por ejemplo, prueba de Egger).
11. ¿Se declaró la existencia de conflictos de interés? Si (1)
- Las fuentes de financiación o apoyo fueron claramente reconocidas tanto en la revisión, como en los estudios incluidos.
- Calidad global Baja (2)

Anexo: Calidad de los estudios de cohortes analíticas incluidos en la evaluación de efectividad de inicio temprano del tratamiento (Riesgo de sesgo de la Colaboración Cochrane)

Dominio	Yang 2015	Fulcher 2012
Sesgo debido a factores de confusión en la línea de base	<p><i>Bajo riesgo:</i></p> <p>Es posible que el tipo de ayuda auditiva favoreciera o no el desempeño de los niños (26 niños con audífonos bilaterales, 19 niños con audífono unilateral, he implante coclear contralateral). Se desconoce si el nivel educativo de los padres o el nivel de comprensión para ejecutar el plan de intervención en el hogar influyeron en los resultados obtenidos.</p>	<p><i>Riesgo no claro:</i></p> <p>Los posibles factores de confusión no fueron identificados en el estudio; sin embargo, durante la selección de los participantes para cada grupo se aseguraron de incluir aquellos con características auditivas y demográficas similares.</p>
Sesgo en la selección de participantes del estudio	<p><i>Alto riesgo:</i></p> <p>Los grupos no fueron asignados al azar sino por conveniencia, según la edad cronológica de adaptación de las ayudas auditivas. Se desconoce si los grupos son comparables respecto a variables demográficas ya que la única incluida en el reporte fue la edad cronológica a la primera adaptación. Las características auditivas fueron comparables respecto a la severidad de la pérdida auditiva, con y sin ayudas auditivas entre los grupos. Se desconoce si los niños presentaban comorbilidades que pudieran afectar el pronóstico.</p>	<p><i>Alto riesgo:</i></p> <p>Cada grupo de intervención (temprana vs tardía) fue seleccionado de formas diferentes (prospectivamente vs retrospectivamente, respectivamente). Cada grupo se diferenció respecto a la edad de diagnóstico y la edad de amplificación. Los grupos fueron homogéneos respecto a: tipo de pérdida auditiva (congénita), ausencia de diagnósticos concomitantes, necesidades especiales o discapacidad intelectual, uso previo de audífonos en participantes con pérdidas severas/profundas antes de del implante coclear, uso de tecnología similar de implante coclear o de programación de audífonos.</p>
Sesgo debido a desviación de las intervenciones de interés	<p><i>Riesgo no claro:</i></p> <p>No se reportaron diferencias sistemáticas en la ejecución de la intervención en cada grupo; sin embargo, se desconoce si la intervención se realizó siguiendo los parámetros sugeridos (ejecución diaria durante dos horas).</p>	<p><i>Riesgo no claro:</i></p> <p>Se desconoce si los investigadores conocían el grupo al que pertenecían los participantes al evaluar los resultados de las pruebas.</p>

Anexo B. Nombrar el anexo B de acuerdo con su contenido

Sesgo debido a datos perdidos

Bajo riesgo:

Los seguimientos se realizaron en el mismo lapso de tiempo para todos los participantes, no se reporta si se presentaron pérdidas al seguimiento.

Alto riesgo:

En las tablas incluidas en el estudio se observó una reducción en el número de participantes por grupo a los 3, 4 y 5 años; sin embargo, no se mencionan las razones de pérdida de seguimiento ni se analizan sus implicaciones en el análisis.

Sesgo en la toma de mediciones

Riesgo no claro:

Se desconoce si los evaluadores conocían el grupo asignado a cada niño.

Riesgo no claro:

Debido a que la captura de información se realizó de forma diferente en cada grupo (prospectivamente o retrospectivamente), se desconoce si los evaluadores realizaron bajo condiciones similares las pruebas. Se desconoce también la calidad de la información retrospectiva.

Sesgo en la selección de resultados reportados

Riesgo no claro:

Se desconoce si hubo una notificación selectiva de los resultados

Alto riesgo:

No se presentó un análisis de los resultados en las pruebas según nivel de severidad en el grupo de intervención tardía ni tampoco se evaluó si este grupo logro puntajes dentro de los límites normales, como si se realizó en el grupo de intervención temprana.

Anexo: Características de la revisión sistemática incluida en la síntesis de evidencia de características operativas

Características	Heidari, 2015
Tipo de revisión	Sistemática y meta análisis. Se incluyeron estudios de precisión diagnóstica.
Población	Lactantes menores de 12 meses con y sin factores de riesgo.
Subgrupos	Ninguno
Condición objetivo de la revisión	Tamización auditiva neonatal. No se incluyen los criterios establecidos por los estudios incluidos que definen la presencia de la condición.
Prueba índice y estándar de referencia.	<ul style="list-style-type: none"> - Otoemisiones acústicas (OEA) Vs. Potenciales evocados auditivos de tallo cerebral (ABR). - Potenciales evocados auditivos automatizados (PEAA) Vs. ABR - OEA + PEAA Vs. ABR
Desenlaces	Sensibilidad y especificidad
Número de estudios (diseño) y pacientes incluidos	17 estudios de pruebas diagnósticas. OEA Vs. ABR: 3914 pacientes con y sin factores de riesgo PEAA Vs. ABR: 2575 pacientes
Bases de datos consultadas	MEDLINE, PubMed, Cochrane Library, Science Direct, Trip.
Fuentes de literatura gris	Google Scholar
Fecha de búsqueda	Última búsqueda agosto de 2014
Rango de fecha de búsqueda	Sin límite de tiempo
Restricciones de lenguaje	No se incluyeron estudios publicados en idiomas diferentes al inglés y persa.
Otros límites empleados	<p><i>Criterios de inclusión:</i></p> <ul style="list-style-type: none"> - Prueba índice: dispositivos de OAE y ABR (solos o en conjunto) como herramientas de tamización auditiva - Patrón de referencia: ABR - Resultados: sensibilidad, especificidad. - Tipo de estudios: Estudios de precisión diagnóstica. <p><i>Criterios de exclusión:</i></p> <ul style="list-style-type: none"> - Estudios duplicados que tienen versiones actualizadas disponibles. - Estudios en los que se haya empleado un patrón de referencia diferente. - Estudios en los que se haya reportado sensibilidad y especificidad sin mencionar el patrón de referencia.
Calidad de los estudios primarios	Los estudios fueron evaluados con la herramienta QUADAS: Calidad aceptable: 10 Calidad baja: 7
Fuentes de financiación	Grant N° 241 /m/93124 del Instituto Nacional de Investigación en Salud de Irán, Universidad de Teherán de Ciencias Médicas.
Conclusiones	<p>OEA Vs. ABR:</p> <p>Todos los estudios incluidos:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Sensibilidad: 0.75 (IC95% 0.694-0.804), I²: 91,2%. - Especificidad: 0.88 (IC95% 0.873-0.894), I²: 98,2%. <p>Al excluir estudios que generaban heterogeneidad:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Sensibilidad: 0.77 (IC95% 0.65-0.86), I²: 35,1%. - Especificidad: 0.93 (IC95% 0.92-0.93), I²: 96%.

Anexo B. Nombrar el anexo B de acuerdo con su contenido

PEAA Vs. ABR:

Todos los estudios incluidos:

- Sensibilidad: 0.88 (IC95% 0.836-0.913), I^2 : 92,5%.
- Especificidad: 0.90 (IC95% 0.886-0.912), I^2 : 98,4%.

Al excluir estudios que generaban heterogeneidad:

- Sensibilidad: 0.93 (IC95% 0.87-0.96), I^2 : 29%.
- Especificidad: 0.93 (IC95% 0.96-0.98), I^2 : 81,1%.

Anexo: Características de los estudios incluidos en la síntesis de evidencia de efectividad y seguridad de inicio temprano del tratamiento.

Características	Yang, 2015
Métodos	Estudio prospectivo. Seguimiento durante 24 meses.
Participantes	45 niños con PA bilateral severa a profunda, usuarios de audífonos o IC. Los tres grupos se clasificaron según la edad cronológica en la que iniciaron el uso de las AA: Grupo A (7-12 meses), grupo B (13-18 meses), grupo C (19-24 meses).
Intervenciones	Programa de intervención temprana en el hogar. Los padres y/o cuidadores fueron entrenados para ejecutar unos planes de intervención (incluyendo instrucciones y materiales) para los niños, en habilidades de audición, habla y lenguaje. Las sesiones tuvieron una duración de 2 horas por día, durante 24 meses. Los padres y/o cuidadores respondieron cuestionarios respecto al desarrollo del habla y del lenguaje (CAP y SIR) de los niños en el momento de la habilitación (línea de base, 3, 6, 9, 12, 18 y 24 meses).
Desenlaces	<p><i>Desarrollo auditivo (Escala CAP):</i></p> <p>La puntuación de línea de base (antes de la adaptación de ayudas auditivas) de los tres grupos fue: Grupo A: 0.4 ± 0.5, Grupo B: 0.0 ± 0.0 y Grupo C: 0.2 ± 0.4. Los tres grupos lograron una puntuación promedio de 4.0, 3.3 y 3.0 después de 12 meses de habilitación. Se observó una diferencia significativa en la edad cronológica ($F = 3.407$, $P = 0.043$) y el tiempo de recuperación ($F = 603.443$, $P = 0.000$) para la escala CAP.</p> <p>Las diferencias fueron significativas entre los grupos A y B ($P = 0.028$) y grupos A y C ($P = 0.012$), pero no entre los grupos B y C ($P = 0.769$).</p> <p>A los 24 meses, 21 participantes lograron una categoría 5 y 14 pacientes una categoría 6 del CAP, indicando que el 47% y el 31% de los pacientes fueron capaces de comprender frases comunes y conversaciones sin lectura labial, respectivamente; solo el 4% logró utilizar el teléfono con un oyente conocido.</p> <p><i>Desarrollo del habla (Escala SIR):</i></p> <p>El efecto principal demostró una diferencia significativa en grupo ($F = 7.373$, $P = 0.002$) y el tiempo de recuperación ($F = 288.835$, $P = 0.00$) para SIR. Se observaron diferencias significativas entre los grupos A y B ($P = 0.042$) y los grupos A y C ($P = 0.002$), pero no entre B y C ($P = 0.217$).</p> <p>No se observaron diferencias significativas a los 0, 3 y 6 meses en los grupos A-C, respectivamente ($P > 0.05$); solo se observaron diferencias significativas entre los 9, 12, 18 y 24 meses en todos los grupos ($P < 0.05$).</p> <p>A los 24 meses, 19 participantes (42%) alcanzaron una categoría 4 del SIR (el habla puede ser inteligible para un oyente que realice lectura labial o que ha tenido experiencia en el habla de una persona sorda), y sólo el 2% lograron un habla inteligible para todos los oyentes.</p> <p>Quienes recibieron adaptación de ayudas auditivas antes de los 12 meses de edad, tuvieron un mejor desempeño global que los niños que recibieron adaptación después de los 12 meses.</p>

Anexo B. Nombrar el anexo B de acuerdo con su contenido

Notas Los resultados no demostraron una interacción significativa entre la edad cronológica y el tiempo de recuperación ($F= 1.772$, $P= 0.094$) con la escala CAP. Sin embargo, si se demostró en la escala SIR entre la edad cronológica y el tiempo de recuperación ($F= 2.868$, $P=0.04$).

PA: Pérdida auditiva. IC: Implante coclear. AA: Ayudas auditivas. CAP: Categories auditory performance scale. SIR: Speech intelligibility rating scale.

Características	Fulcher, 2012
Métodos	Estudio prospectivo/retrospectivo.
Participantes	Niños con PA congénita neurosensorial sin diagnósticos concomitantes adicionales. Los grupos se compararon respecto a: 1) identificación temprana versus tardía de la PA, y 2) grado de pérdida auditiva: leve versus moderada, versus severa a profunda. Grupo ITE: 45 niños con PA, amplificación e intervención realizada antes de los 12 meses de edad. Todos habían recibido al menos 1 IC y/o AA antes de los 18 meses de edad. Los resultados de este grupo se capturaron de forma prospectiva. Grupo ITA: 49 niños con PA, amplificación e intervención realizada entre >12 meses de edad y < 5 años de edad. Los resultados de este grupo se capturaron de forma retrospectiva mediante la revisión de historias clínicas entre 1995 - 2010.
Intervenciones	Seguimiento a los 3, 4 y 5 años. Se emplearon las herramientas Goldman-Fristoe Test of Articulation-2; Sounds-in-Words (GFTA-2); The Peabody Picture Vocabulary Test (medición de vocabulario receptivo) y The Preschool Language Scale-4 (PLS-4) (escalas de lenguaje receptivo y expresivo).
Desenlaces	El grupo de ITE superó significativamente al grupo de ITA en las habilidades de habla, vocabulario receptivo y lenguaje receptivo/expresivo en todas las edades y para todas las severidades. En el grupo de ITE, el 93% de niños obtuvieron un desempeño en habla dentro de los límites normales, aumentando al 96% a los 5 años; el 90% obtuvieron un desempeño dentro de los límites normales en vocabulario receptivo a los 3 años, aumentando al 100% a los 4 y 5 años. El 95% de los participantes del grupo ITE a los 3 años de edad obtuvieron un desempeño del lenguaje expresivo y receptivo dentro de los límites normales, alcanzando el 100% a los 5 años. El puntaje promedio para el grupo de ITE severo/profundo ($M=107.43$, $SD= 9.15$) fue significativamente mejor que el grupo moderado ($M=97.2$, $SD=10.12$, $P=.009$) y que en el grupo leve ($M=93.15$, $SD= 10.29$, $P<.001$). No se observaron diferencias significativas entre los grupos moderado y leve. A los 4 y 5 años también se observaron diferencias significativas entre los tres grupos, excepto entre los grupos moderado y leve.
Notas	No se evaluó si en el grupo de ITA se lograron puntajes dentro de los límites normales o que porcentaje de los participantes lo logró. Los desenlaces de habla y lenguaje según la severidad de la PA solo se analizaron en el grupo de intervención temprana.

PA: Pérdida auditiva. ITE: Intervención temprana. ITA: Intervención tardía. IC: Implante coclear. AA: Ayudas auditivas.

Características	Terry, 2015
Tipo de revisión	Revisión sistemática de la literatura.
Población	Pacientes niños y adultos que han presentado complicaciones después del implante coclear.
Subgrupos	Niños y adultos.
Desenlaces	Complicaciones tardías, posteriores al procedimiento quirúrgico del implante coclear (después de 3 días postoperatorios)
Número de estudios (diseño) y pacientes incluidos	88 estudios (22842 pacientes)
Bases de datos consultadas	MEDLINE a través de Pubmed y OVID.
Fuentes de literatura gris	No se reporta.
Fecha de búsqueda	Última búsqueda diciembre 31 de 2013
Rango de fecha de búsqueda	Enero 1 de 2003 a diciembre 31 de 2013
Restricciones de lenguaje	Sólo se incluyeron estudios publicados en inglés.
Otros límites empleados	<p><i>Criterios de inclusión:</i></p> <ul style="list-style-type: none"> - Estudios que reportaran complicaciones tardías. <p><i>Criterios de exclusión:</i></p> <ul style="list-style-type: none"> - Estudios publicados en idiomas diferentes al inglés - No se reporta el tiempo de seguimiento
Calidad de los estudios primarios	No fue evaluada
Fuentes de financiación	No se reporta. El estudio se presentó en el evento: 117th Annual Meeting of the Triologic Combined Otolaryngology Spring Meetings; May 16, 2014; Las Vegas, Nevada.
Conclusiones	El implante coclear sigue siendo un procedimiento confiable y seguro con un bajo porcentaje de complicaciones graves cuando se realizan cirujanos con experiencia. Las 3 complicaciones tardías más comunes encontradas en este estudio incluyen falla del dispositivo, infecciones de la piel y problemas vestibulares. Aunque la incidencia de complicaciones es baja, la posibilidad de complicaciones a largo plazo garantiza un seguimiento de por vida para el paciente.

Anexo: Perfil de evidencia GRADE de las otoemisiones acústicas

Pregunta: Debería usarse otoemisiones acústicas para diagnosticar hipoacusia congénita bilateral de grado severo a profundo en recién nacidos sin factores de riesgo?

Sensibilidad	0.77 (95% CI: 0.65 a 0.86)
Especificidad	0.93 (95% CI: 0.92 a 0.93)

Prevalencias	1.6%		
--------------	------	--	--

Resultado	Nº de estudios (Nº de pacientes)	Diseño de estudio	Factores que pueden disminuir la calidad de la evidencia					Efecto por 1.000 pacientes evaluados probabilidad pre-test de 1.6%	QoE de precisión de la prueba	Importancia
			Riesgo de sesgo	Evidencia indirecta	Inconsistencia	Imprecisión	Sesgo de publicación			
verdaderos positivos (pacientes con)	8 Estudios 2876	corte transversal (estudio preciso)	serio ²	no es serio	no es serio ³	no es serio ⁴	ninguno	12 (10 a 14)	⊕⊕⊕○	

Resultado	Nº de estudios (Nº de pacientes)	Diseño de estudio	Factores que pueden disminuir la calidad de la evidencia					Efecto por 1.000 pacientes evaluados	QoE de precisión de la prueba	Importancia
			Riesgo de sesgo	Evidencia indirecta	Inconsistencia	Imprecisión	Sesgo de publicación	probabilidad pre-test de 1.6%		
Falsos negativos (pacientes incorrectamente clasificados de no tener)	pacientes	de tipo cohorte) ¹						4 (2 a 6)	MODERADO	
Verdaderos negativos (pacientes sin)	8 Estudios 3205 pacientes	corte transversal (estudio preciso de tipo cohorte) ⁵	serio ²	no es serio	muy serio ⁶	no es serio	ninguno	915 (905 a 915)	⊕○○○ MUY BAJA	
Falsos positivos (pacientes clasificados incorrectamente como)								69 (69 a 79)		
Inconcluso	Estudios pacientes	-	-	-	-	-	-		-	
Complicaciones	Estudios pacientes								-	

1. Se incluyó 1 estudio de corte transversal y 7 estudios de pruebas diagnósticas. En todos los estudios incluidos, los participantes recibieron la prueba índice y el estándar de referencia
2. QUADAS: 1) Retrasos no aceptables entre las pruebas: Se presentaron en 5 estudios. 2) Cegamiento en los resultados del estándar de referencia: Sólo en 3 estudios. 3) Cegamiento en los resultados de la prueba índice: Sólo en dos estudios. 4) Reporte de los resultados no interpretables/intermedios de las pruebas: No es claro en ningún estudio. 5) Reporte de retiros en los estudios: Sólo se realizó en un estudio.

3. Se realizó meta análisis excluyendo los que generaban heterogeneidad. En general, aunque aún se observan diferencias en los estimadores puntuales, los intervalos de confianza de los estimadores se superponen, el valor P de la prueba estadística de heterogeneidad es de 0.01482, y el I² es de 35,1%, lo que sugiere una inconsistencia baja.
4. Los 8 estudios incluidos presentan intervalos de confianza amplios y dos de los estudios incluyen el valor de nulidad, sin embargo, la estimación agrupada presenta un valor preciso.
5. Se incluyó 1 estudio de corte transversal, 1 estudio de cohorte y 6 estudios de pruebas diagnósticas. En todos los estudios incluidos, los participantes recibieron la prueba índice y el estándar de referencia
6. Se realizó meta análisis excluyendo los estudios que generaban heterogeneidad, sin embargo, se continuó observando diferencias en los estimadores puntuales, baja superposición de los intervalos de confianza, valor p de heterogeneidad de 0.00 e I² de 96%, lo cual sugiere una heterogeneidad considerable.

Anexo: Perfil de evidencia GRADE de potenciales evocados auditivos automatizados.

Pregunta: Debería usarse potenciales evocados auditivos automatizados para diagnosticar hipoacusia congénita bilateral de grado severo a profundo en recién nacidos sin factores de riesgo?

Sensibilidad	0.93 (95% CI: 0.87 a 0.96)
Especificidad	0.97 (95% CI: 0.96 a 0.98)

Prevalencias	1.6%		
--------------	------	--	--

Resultado	Nº de estudios (Nº de pacientes)	Diseño de estudio	Factores que pueden disminuir la calidad de la evidencia					Effect per 1.000 patients tested	QoE de precisión de la prueba	Importancia
			Riesgo de sesgo	Evidencia indirecta	Inconsistencia	Imprecisión	Sesgo de publicación	probabilidad pre-test de 1.6%		
verdaderos positivos (pacientes con)	5 Estudios 1333 pacientes	corte transversal (estudio preciso de tipo cohorte) ¹	no es serio ²	no es serio	no es serio ³	no es serio ⁴	ninguno	15 (14 a 15)	⊕⊕⊕⊕ ALTA	
Falsos negativos (pacientes incorrectamente clasificados de no tener)								1 (1 a 2)		
Verdaderos negativos (pacientes sin)	6 Estudios 1975 pacientes	corte transversal (estudio preciso de tipo cohorte) ¹	no es serio ⁵	no es serio	serio ⁶	no es serio	ninguno	954 (945 a 964)	⊕⊕⊕○ MODERADO	

Resultado	Nº de estudios (Nº de pacientes)	Diseño de estudio	Factores que pueden disminuir la calidad de la evidencia					Effect per 1.000 patients tested	QoE de precisión de la prueba	Importancia
			Riesgo de sesgo	Evidencia indirecta	Inconsistencia	Imprecisión	Sesgo de publicación	probabilidad pre-test de 1.6%		
Falsos positivos (pacientes clasificados incorrectamente como)								30 (20 a 39)		
Inconcluso	Estudios pacientes	-	-	-	-	-	-		-	
Complicaciones	Estudios pacientes								-	

1. Estudios de pruebas diagnósticas. Todos los participantes de los estudios fueron evaluados con la prueba índice y el estándar de referencia.
2. Se observó demoras en la ejecución entre las pruebas en dos estudios; en uno de los estudios no se realizó cegamiento para la prueba de referencia ni la prueba índice; en ningún estudio es claro si se presentaron resultados intermedios o no interpretables, ni se explicaron las causas de retiros del estudio
3. Se excluyeron del meta análisis los estudios que generaban heterogeneidad. Aunque se observan diferencias en los estimadores puntuales, los intervalos de confianza se superponen, el valor p de la prueba de heterogeneidad es de 0.22 y el I2 es del 29% lo que sugiere una heterogeneidad baja.
4. Dos de los estudios incluidos incluyen el valor de nulidad en sus intervalos de confianza, sin embargo, el intervalo de confianza del estimador agrupado es preciso.
5. Un estudio presenta espectro representativo; tres estudios presentan retrasos entre la ejecución de las pruebas; en un estudio no se realizó cegamiento de las pruebas índice y de referencia; en ningún estudio es claro si se presentaron resultados intermedios o no interpretables, ni se explicaron las causas de retiros del estudio.
6. Aunque los estimadores puntuales no varían de forma importante y los intervalos de confianza se sobreponen, se obtuvo un valor de p de la prueba de heterogeneidad de 0.00 con un I2 de 81,1% lo que sugiere una heterogeneidad considerable.

Anexo: Perfil de evidencia GRADE de efectividad del inicio temprano del tratamiento en hipoacusias congénita

Pregunta: Intervención auditiva temprana (antes de los 12 meses de edad) comparado con una intervención auditiva tardía (mayor a los 12 meses de edad) para las alteraciones auditivas congénitas bilaterales

Bibliografía: Fulcher A, Purcell A, Baker E, Munro N. Listen up: Children with early identified hearing loss achieve age-appropriate speech/language outcomes by 3 years-of-age. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2012 Dec;76(12):1785-94. Yang Y, Liu YH, Fu MF, Li CL, Wang LY, Wang Q, et al. Home-based early intervention on auditory and speech development in mandarin-speaking deaf infants and toddlers with chronological aged 7–24 months. *Chin Med J (Engl).* 2015;128(16):2202–7.

Evaluación de la calidad							№ de pacientes		Efecto		Calidad	Importancia
№ de estudios	Diseño de estudio	Riesgo de sesgo	Inconsistencia	Evidencia indirecta	Imprecisión	Otras consideraciones	una intervención auditiva temprana (antes de los 12 meses de edad)	una intervención auditiva tardía (mayor a los 12 meses de edad)	Relativo (95% CI)	Absoluto (95% CI)		
Vocabulario receptivo a los 5 años de edad (evaluado con : The Peabody Picture Vocabulary Test)												
1	estudios observacionales	serio ^a	no es serio	no es serio	muy serio ^b	todos los posibles factores de confusión residuales podrían reducir el efecto demostrado	45	49	-	SMD 0.94 SD más alto. (0 a 0)	⊕○○○ MUY BAJA	No aplica
Lenguaje receptivo y expresivo a los 5 años de edad (evaluado con : The Preschool Language Scale-4)												

Evaluación de la calidad							Nº de pacientes		Efecto		Calidad	Importancia
Nº de estudios	Diseño de estudio	Riesgo de sesgo	Inconsistencia	Evidencia indirecta	Imprecisión	Otras consideraciones	una intervención auditiva temprana (antes de los 12 meses de edad)	una intervención auditiva tardía (mayor a los 12 meses de edad)	Relativo (95% CI)	Absoluto (95% CI)		
1	estudios observacionales	serio ^a	no es serio	no es serio	muy serio ^b	todos los posibles factores de confusión residuales podrían reducir el efecto demostrado	45	49	-	SMD 1.2 SD más alto. (0 a 0)	⊕○○○ MUY BAJA	No aplica
Producción del habla a los 5 años de edad (seguimiento: rango 1 años a 3 años ; evaluado con : Goldman–Fristoe Test of Articulation-2; Sound in words.)												
1	estudios observacionales	serio ^a	no es serio	no es serio	muy serio ^b	todos los posibles factores de confusión residuales podrían reducir el efecto demostrado	45	49	-	SMD 1.57 SD más alto. (0 a 0)	⊕○○○ MUY BAJA	No aplica
Desarrollo auditivo (evaluado con : Categories auditory performance scale)												
1	estudios observacionales	serio ^c	no es serio	no es serio	serio ^b	fuerte asociación todos los posibles factores de confusión residuales podrían reducir el efecto demostrado			-	no estimable	⊕⊕○○ BAJA	No aplica
Desarrollo del habla (evaluado con : Speech intelligibility rating scale)												

Evaluación de la calidad							Nº de pacientes		Efecto		Calidad	Importancia
Nº de estudios	Diseño de estudio	Riesgo de sesgo	Inconsistencia	Evidencia indirecta	Imprecisión	Otras consideraciones	una intervención auditiva temprana (antes de los 12 meses de edad)	una intervención auditiva tardía (mayor a los 12 meses de edad)	Relativo (95% CI)	Absoluto (95% CI)		
1	estudios observacionales	serio ^c	no es serio	no es serio	serio ^b	fuerte asociación todos los posibles factores de confusión residuales podrían reducir el efecto demostrado			-	no estimable	⊕⊕○○ BAJA	No aplica

CI: Intervalo de confianza ; **SMD:** Diferencia media estandarizada

a. Diferencias en la selección de los participantes en cada grupo y en la recolección de información. Los participantes del grupo de intervención temprana se capturaron de forma prospectiva, al igual que sus resultados; en cambio, los participantes de intervención tardía se capturaron de forma retrospectiva. No se evaluó o consideró la presencia de factores de confusión.

b. Tamaño de muestra menor a 400 y no se reportan intervalos de confianza

c. No se reporta si se consideraron posibles factores de confusión en el estudio.

Anexo: Reportes de búsqueda de evidencia de literatura económica

Reporte de búsqueda electrónica #1

Tipo de búsqueda
Bases de datos

Nueva
MEDLINE(R) In-Process & Other Non-Indexed Citations
MEDLINE(R) 1946 to Present
MEDLINE(R) Daily Update February 25, 2016

Plataforma
Fecha de búsqueda
Rango de fecha de búsqueda

Ovid
25/02/2015
No se empleó restricción de fecha de búsqueda

Restricciones de lenguaje
Otros límites

Ninguna
Filtro SIGN evaluaciones económicas

Estrategia de búsqueda
(resultados)

No.	Términos de búsqueda	Resultados
1	(neonatal screening/ OR neonatal screening.mp. OR Hearing loss/ OR Hearing loss.mp. OR Infant screening.mp. OR Newborn screening.mp. OR Congenital hearing loss.mp. OR Newborn hearing screening.mp. OR Neonatal hearing screening.mp. OR hearing impairment.mp. OR congenital deafness screening.mp.)	65502
2	(Hearing tests/ OR Hearing tests.mp. OR Automated auditory brainstem response.mp. OR AABR.mp. OR Otoacoustic emissions.mp. OR Transiently evoked otoacoustic emissions.mp. OR "Transiently evoked otoacoustic emissions".mp. OR TEOAE.mp. OR Distortion product otoacoustic emissions.mp. OR DPOAE.mp. OR "ABR/OAE".mp. OR Evoked potentials, auditory, Brain stem/ OR Evoked potentials, auditory, Brain stem.mp. OR Brainstem auditory evoked potentials.mp OR Brainstem auditory evoked response.mp.)	78692
3	#1 AND #2	65502

Referencias identificadas 193
Referencias sin duplicados 193

Reporte de búsqueda electrónica #2

Tipo de búsqueda Nueva
Bases de datos EMBASE
Plataforma Wiley
Fecha de búsqueda 25/02/2016
Rango de fecha de búsqueda No se restringió por fecha
Restricciones de lenguaje Ninguna
Otros límites Filtro SIGN evaluaciones económicas

Estrategia de búsqueda (resultados)

No.	Términos de búsqueda	Resultados
1	(neonatal NEAR/4 screening OR Infant NEAR/4 screening OR 'Newborn screening'/de OR 'Newborn screening'/exp OR Hearing NEAR/4 loss OR 'hearing loss'/exp OR congenital NEAR/4 hearing AND loss OR 'congenital deafness'/de OR 'hearing impairment'/de OR newborn NEAR/4 hearing NEAR/4 screening OR neonatal NEAR/4 hearing NEAR/4 screening OR congenital NEAR/4 deafness NEAR/4 screening OR 'auditory screening'/de OR 'auditory screening'/exp)	119956
2	('Hearing test'/de OR 'Hearing test'/exp OR automated NEAR/4 auditory NEAR/4 brainstem NEAR/4 response OR 'evoked brain stem auditory response'/de OR 'evoked brain stem auditory response'/exp OR 'AABR'/exp OR 'otoacoustic emissions' OR 'distortion product otoacoustic emission'/de OR 'distortion product otoacoustic emission'/exp OR Transiently NEAR/4 evoked NEAR/4 otoacoustic NEAR/4 emission* OR 'teoe' OR 'DPOAE'/exp OR 'abr/oe' Brainstem NEAR/4 auditory NEAR/4 evoked NEAR/4 potentials)	51247
3	#1 AND #2	22987

Referencias identificadas 366
Referencias sin duplicados 366

Reporte de búsqueda electrónica #3

Tipo de búsqueda
Bases de datos

Nueva
Cochrane Database of Systematic Reviews, Cochrane Central Register of Controlled Trials (CENTRAL), Database of Abstracts of Reviews of Effects (DARE), Centre for Reviews and Dissemination (NHS), Health Technology Assessment (HTA).

Plataforma
Fecha de búsqueda
Rango de fecha de búsqueda

Wiley
29/02/2016
No se restringió por fecha

Restricciones de lenguaje
Otros límites
Estrategia de búsqueda (resultados)

Ninguna
Filtro SIGN evaluaciones económicas

No.	Términos de búsqueda	Resultados
1	(([mh ^"neonatal screening"] OR (neonatal screening):ti,ab,kw OR [mh ^"Hearing loss"] OR (Hearing loss):ti,ab,kw OR (Infant screening):ti,ab,kw OR (Newborn screening):ti,ab,kw OR (Congenital hearing loss):ti,ab,kw OR (Newborn hearing screening):ti,ab,kw OR (Neonatal hearing screening):ti,ab,kw OR (hearing impairment):ti,ab,kw OR (congenital deafness screening):ti,ab,kw)	3127
2	([mh ^"Hearing tests"] OR (Hearing tests):ti,ab,kw OR (Automated auditory brainstem response):ti,ab,kw OR (AABR):ti,ab,kw OR (Otoacoustic emissions):ti,ab,kw OR (Transiently evoked otoacoustic emissions):ti,ab,kw OR (TEOAE):ti,ab,kw OR (Distortion product otoacoustic emissions):ti,ab,kw OR (DPOAE):ti,ab,kw OR (ABR OAE):ti,ab,kw OR [mh ^"Evoked potentials, auditory, Brain stem"] OR (Evoked potentials, auditory, Brain stem):ti,ab,kw OR (Brainstem auditory evoked response):ti,ab,kw))	847
3	#1 AND #2	421

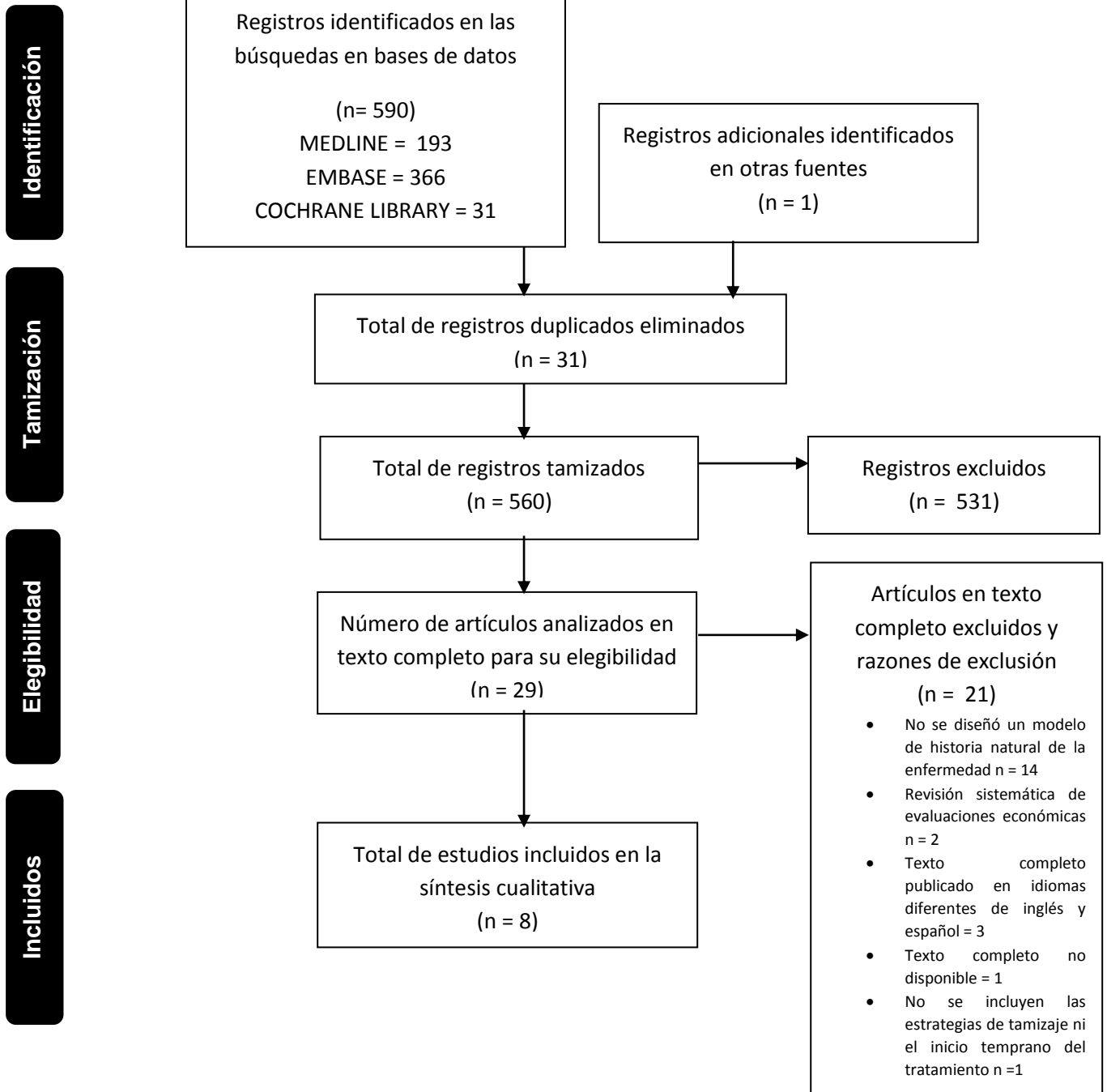
Referencias identificadas

CENTRAL:9
Cochrane reviews: 1
NHS: 16
HTA: 5

Referencias sin duplicados

31

Anexo: Diagrama de flujo de búsqueda de literatura económica



Anexo: Listado de estudios incluidos en la revisión de literatura económica para el diseño del modelo de historia natural

Castillo Laborde C, Loayza S, Aravena M, Freile B, Castillo Riquelme M. Costo efectividad del screening y tratamiento de hipoacusia bilateral en recién nacidos. Chile; 2013.

Huang L-H, Zhang L, Tobe R-YG, Qi F-H, Sun L, Teng Y, et al. Cost-effectiveness analysis of neonatal hearing screening program in China: should universal screening be prioritized? *BMC Health Serv Res.* 2012;12(1):97.

Tobe RG, Mori R, Huang L, Xu L, Han D, Shibuya K. Cost-Effectiveness Analysis of a National Neonatal Hearing Screening Program in China: Conditions for the Scale-Up. *PLoS One.* 2013;8(1):1–9.

Burke MJ, Shenton RC, Taylor MJ. The economics of screening infants at risk of hearing impairment: An international analysis. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* Elsevier Ireland Ltd; 2012;76(2):212–8.

Grill E, Uus K, Hessel F, Davies L, Taylor RS, Wasem J, et al. Neonatal hearing screening: modelling cost and effectiveness of hospital- and community-based screening. *BMC Health Serv Res.* 2006;6(1):14.

Hessel F, Grill E, Schnell-Inderst P, Siebert U, Kunze S, Nickisch A, et al. Economic evaluation of newborn hearing screening: modelling costs and outcomes. *Ger Med Sci GMS e-journal.* 2003;1:1–10.

Keren R, Helfand M, Homer C, McPhillips H, Lieu T a. Projected cost-effectiveness of statewide universal newborn hearing screening. *Pediatrics.* 2002;110(5):855–64.

Kezirian EJ, White KR, Yueh B, Sullivan SD. Cost and cost-effectiveness of universal screening for hearing loss in newborns. *Otolaryngol - Head Neck Surg.* 2001;124(4):359–67.

Anexo: Listado de estudios excluidos en la revisión de literatura económica para el diseño del modelo de historia natural

Nombre del estudio	Razón de exclusión
Barton, G. R., et al. (2006). "Hearing-impaired children in the United Kingdom, IV: cost-effectiveness of pediatric cochlear implantation." <i>Ear and hearing</i> 27(5): 575-588.	No se diseñó un modelo de decisión.
Boshuizen, H. C., et al. (2001). "Costs of different strategies for neonatal hearing screening: a modelling approach." <i>Archives of disease in childhood. Fetal and neonatal edition</i> 85(3): F177-181.	Sólo se realizó un análisis de costos mediante un análisis de sensibilidad multivariado de Montecarlo. No se diseñó un modelo de decisión.
Colgan, S., et al. (2012). "The cost-effectiveness of universal newborn screening for bilateral permanent congenital hearing impairment: systematic review." <i>Academic pediatrics</i> 12(3): 171-180.	Es una revisión sistemática de evaluaciones económicas en la cual se resumen la evidencia actual disponible. No se presenta un modelo de decisión general o se sugieren estados en salud en común
Dort, J. C., et al. (2000). "Screening strategies for neonatal hearing loss: which test is best?" <i>The Journal of otolaryngology</i> 29(4): 206-210.	No se diseñó un modelo de decisión.
Gorga, M. P. and S. T. Neely (2003). "Cost-effectiveness and test-performance factors in relation to universal newborn hearing screening." <i>Mental retardation and developmental disabilities research reviews</i> 9(2): 103-108.	No se diseñó un modelo de decisión.
Han, Y., et al. (2015). "[Cost-effectiveness of three-stage newborns hearing screening in Beijing]." <i>Zhonghua liu xing bing xue za zhi = Zhonghua liuxingbingxue zazhi</i> 36(5): 455-459.	Disponible en texto completo en un idioma diferente al inglés o español.
Kemper, A. R. and S. M. Downs (2000). "A cost-effectiveness analysis of newborn hearing screening strategies." <i>Archives of pediatrics & adolescent medicine</i> 154(5): 484-488.	No se encuentra disponible en texto completo.
Korres, S., et al. (2005). "Newborn hearing screening: effectiveness, importance of high-risk factors, and characteristics of infants in the neonatal intensive care unit and well-baby nursery." <i>Otology & neurotology : official publication of the American Otological Society, American Neurotology Society [and] European Academy of Otology and Neurotology</i> 26(6): 1186-1190.	No se diseñó un modelo de decisión.
Lammers, M. J. W., et al. (2011). "The cost-utility of bilateral cochlear implantation: a systematic review." <i>The Laryngoscope</i> 121(12): 2604-2609.	Revisión sistemática de evaluaciones económicas.

Anexo B. Nombrar el anexo B de acuerdo con su contenido

- Lin, H.-C., et al. (2002). "A universal newborn hearing screening program in Taiwan." *International journal of pediatric otorhinolaryngology* 63(3): 209-218. No se diseñó un modelo de decisión.
- Lin, H.-C., et al. (2005). "Comparison of hearing screening programs between one step with transient evoked otoacoustic emissions (TEOAE) and two steps with TEOAE and automated auditory brainstem response." *The Laryngoscope* 115(11): 1957-1962. No se diseñó un modelo de decisión.
- Mezzano, P., et al. (2009). "Cost analysis of an Italian neonatal hearing screening programme." *The journal of maternal-fetal & neonatal medicine : the official journal of the European Association of Perinatal Medicine, the Federation of Asia and Oceania Perinatal Societies, the International Society of Perinatal Obstetricians* 22(9): 806-811. Sólo se realizó un análisis de costos, no se diseñó un modelo de decisión.
- Baltussen, R., et al. (2009). "Costs of screening children for hearing disorders and delivery of hearing aids in China." *BMC health services research*. Sólo se realizó un análisis de costos, no se diseñó un modelo de decisión.
- Lemons, J., et al. (2002). "Newborn hearing screening: Costs of establishing a program." *Journal of Perinatology* 22(2): 120-124. Sólo se realizó un análisis de costos, no se diseñó un modelo de decisión.
- Lin, H. C., et al. (2007). "Reducing false positives in newborn hearing screening program: How and why." *Otology and Neurotology* 28(6): 788-792. No se encontró disponible en texto completo.
- Olusanya, B. O., et al. (2009). "Costs and performance of early hearing detection programmes in Lagos, Nigeria." *Transactions of the Royal Society of Tropical Medicine and Hygiene* 103(2): 179-186. Sólo se realizó un análisis de costos, no se diseñó un modelo de decisión.
- Uus, K., et al. (2006). "An analysis of the costs of implementing the National Newborn Hearing Screening Programme in England." *Journal of medical screening* 13(1): 14-19. Sólo se realizó un análisis de costos, no se diseñó un modelo de decisión.
- Weirather, Y. P., et al. (1997). "Cost analysis of TEOAE-based universal newborn hearing screening." *Journal of Communication Disorders* 30(6): 477-493. Sólo se realizó un análisis de costos, no se diseñó un modelo de decisión.
- Langer A, Brockow I, Nennstiel-Ratzel U, Menn P. The cost-effectiveness of tracking newborns with bilateral hearing impairment in Bavaria: a decision-analytic model (Provisional abstract). 2012 12:418 (2). *BMC Health Services Research*. Evalúa la costo efectividad de un programa de seguimiento para RN detectados con pérdida auditiva bilateral. No incluye las estrategias de tamizaje de interés ni los desenlaces de interés para la evaluación.
- Kunze S, Schnell-Inderst P, Hessel F, Grill E, Nickisch A, Siebert U, Voss Von H, Wasem J. Screening of the hearing of newborns - systematic review of medical efficacy and economic efficiency. 2004. German Agency for Health Technology Assessment at the German Institute for Medical Documentations and Information Disponible en texto completo en un idioma diferente al inglés o español. Abstract disponible en inglés.
- Clinical and economic evaluation: screening for permanent hearing loss in neonates using otoacoustic emissions. 1999, L'Agence Nationale d'Accreditation d'Evaluation en Sante (ANAES). HTA-32005000438 Disponible en texto completo en un idioma diferente al inglés o español. Abstract disponible en inglés.

Anexo: Evaluación de calidad de evaluaciones económicas con la herramienta QUES.

Preguntas	Peso	Castillo, 2013	Tobe, 2013	Huang, 2012	Burke, 2012	Grill, 2006	Hessel, 2003	Keren, 2002	Kezirian, 2001
1. ¿El objetivo del estudio se presentó de forma clara, específica y medible?	7	7	7	7	0	7	7	7	7
2. ¿Se declaró la perspectiva del análisis (sociedad, tercer pagador, etc.) y las razones para su selección?	4	4	0	4	4	4	4	4	4
3. ¿Las estimaciones de las variables empleadas en el análisis provienen de la mejor fuente disponible (Por ejemplo, ensayos controlados aleatorizados - Mejor, Opinión de expertos - Peor)	8	0	8	0	0	0	0	0	0
4. Si las estimaciones provienen de un análisis por subgrupos, ¿se pre-especificaron los grupos al inicio del estudio?	1	1	0	1	1	1	0	1	0
5. ¿La incertidumbre se maneja por: 1) análisis estadístico para abordar eventos aleatorios; 2) análisis de sensibilidad para cubrir un rango de supuestos?	9	9	9	9	0	9	9	9	9
6. ¿Se realizó análisis incremental entre las alternativas para los recursos y los costos?	6	6	6	6	6	6	0	6	0
7. ¿Se estableció la metodología para la extracción de datos (incluyendo el valor de los estados de salud y otros	5	5	5	5	5	5	0	5	5

beneficios)?

8. ¿El horizonte analítico dio tiempo para todos los resultados relevantes e importantes? ¿los beneficios y costos que fueron más allá de un año se descontaron? ¿se presentó una justificación respecto a la tasa de descuento?	7	7	0	7	0	7	7	7	0
9. ¿La medición de los costos fue apropiada y se describió claramente la metodología para la estimación de cantidades y costos unitarios ?	8	8	8	8	0	8	0	0	8
10. ¿Se establecieron las medidas de los resultados primarios para la evaluación económica de manera clara y se incluyeron los principales resultados a corto plazo, largo plazo y desenlaces negativos?	6	6	6	6	6	6	6	6	6
11. ¿Las medidas/escalas de los resultados en salud son válidos y confiables? Si las medidas válidas y confiables comprobadas previamente no están disponibles, ¿se presentó una justificación para las medidas/escala empleadas?	7	7	7	7	0	7	7	0	0
12. ¿Se presentó de manera clara y transparente el modelo económico (incluyendo la estructura), los métodos de estudio y análisis, y los componentes del numerador y del denominador?	8	8	8	8	8	8	0	8	8
13. ¿Se estableció y justificó la decisión del modelo económico, los principales supuestos y las limitaciones del estudio?	7	7	7	7	0	7	7	7	7

14. ¿El autor(es) discutieron explícitamente la dirección y magnitud de los sesgos potenciales?	6	6	0	6	0	6	0	6	0
15. ¿Las conclusiones/recomendaciones del estudio se justificaron y se basaron en los resultados del estudio?	8	8	8	8	8	8	8	0	8
16. ¿Hay una declaración de la fuente de financiación del estudio?	3	3	3	0	3	3	3	3	3
Total	100	92	82	89	41	92	58	69	65

pRN_SFR: Probabilidad de hipoacusia en RN sin factores de riesgo. pProf: Probabilidad de presentar hipoacusia profunda. pSev: Probabilidad de presentar hipoacusia severa. pTam: Probabilidad de recibir tamización. VPP: Valor predictivo positivo. VPN: Valor predictivo negativo. p_Rtam: Probabilidad de recibir re-tamización.

Fórmulas empleadas*:

- Sen1: probabilidad de obtener un resultado positivo en la primera prueba, con cada una de las estrategias de tamización (OEA+PEAA, PEAA, OEA). Fórmula empleada: $((\text{Sensibilidad} \cdot \text{pRN_SFR}) + ((1 - \text{Especificidad}) \cdot (1 - \text{pRN_SFR})))$.
- Sen2: probabilidad de obtener un resultado positivo en la segunda prueba dado que se obtuvo un resultado positivo en la primera. Fórmula empleada: $((\text{Sensibilidad} \cdot \text{VPP}) + ((1 - \text{Especificidad}) \cdot (1 - \text{VPP})))$.
- VPP1: probabilidad de obtener un diagnóstico de hipoacusia dado que en la re-tamización se obtuvo un resultado positivo. Fórmula empleada: $((\text{Sensibilidad} \cdot \text{VPP}) / ((\text{Sensibilidad} \cdot \text{VPP}) + ((1 - \text{Especificidad}) \cdot (1 - \text{VPP}))))$
- VPN1: probabilidad de obtener un resultado falso negativo dado que se obtuvo un resultado negativo durante la re-tamización. Fórmula empleada: $((1 - \text{VPP}) \cdot \text{Especificidad} / (1 - ((\text{Sensibilidad} \cdot \text{VPP}) + ((1 - \text{Especificidad}) \cdot (1 - \text{VPP}))))))$
- VPP2: probabilidad de obtener un diagnóstico de hipoacusia dado que presentó un resultado positivo en la primera prueba de tamización, pero no recibió re-tamización. Fórmula empleada: $((\text{Sensibilidad} \cdot \text{pRN_SFR}) / ((\text{Sensibilidad} \cdot \text{pRN_SFR}) + ((1 - \text{Especificidad}) \cdot (1 - \text{pRN_SFR}))))$.
- VPN2: probabilidad de obtener un diagnóstico de audición normal dado que en la primera prueba de tamización se obtuvo un resultado negativo. Fórmula empleada: $((1 - \text{pRN_SFR}) \cdot \text{Especificidad} / (1 - ((\text{Sensibilidad} \cdot \text{pRN_SFR}) + ((1 - \text{Especificidad}) \cdot (1 - \text{pRN_SFR}))))))$.

Fórmulas empleadas para la estimación de costos y desenlaces en cada rama del árbol de decisión:

- Rama 1: $C_Dx + C_Pps + (C_rehps \cdot (((1 + Ta_Des)^6 - 1) / (Ta_Des \cdot (1 + Ta_Des)^5))) + (C_segups \cdot (((1 + Ta_Des)^6 - 1) / (Ta_Des \cdot (1 + Ta_Des)^5))) / Dal_Prof \cdot (((1 + T_Des_DALY)^{75} - 1) / (T_Des_DALY \cdot (1 + T_Des_DALY)^{74}))$.
- Rama 2: $C_Dx + C_Pps + (C_rehps \cdot (((1 + Ta_Des)^6 - 1) / (Ta_Des \cdot (1 + Ta_Des)^5))) + (C_segups \cdot (((1 + Ta_Des)^6 - 1) / (Ta_Des \cdot (1 + Ta_Des)^5))) / Dal_sev \cdot (((1 + T_Des_DALY)^{75} - 1) / (T_Des_DALY \cdot (1 + T_Des_DALY)^{74}))$.
- Rama 3: $C_Dx + C_psm + (C_rehm \cdot (((1 + Ta_Des)^6 - 1) / (Ta_Des \cdot (1 + Ta_Des)^5))) + (C_segum \cdot (((1 + Ta_Des)^6 - 1) / (Ta_Des \cdot (1 + Ta_Des)^5))) / Dal_mod \cdot (((1 + T_Des_DALY)^{75} - 1) / (T_Des_DALY \cdot (1 + T_Des_DALY)^{74}))$.

- Rama 4: 0/0
- Rama 5: $C_Tam+(C_PO/C_OEA/C_PEAA)+((C_manPO/C_manOEA/C_manPEAA)*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+C_Dx+C_Pps+(C_rehps*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+(C_segups*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))) / Dal_mod*(((1+T_Des_DALY)^75-1)/(T_Des_DALY*(1+T_Des_DALY)^74))$.
- Rama 6: $C_Tam+(C_PO/C_OEA/C_PEAA)+((C_manPO/C_manOEA/C_manPEAA)*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+C_Dx+C_Pps+(C_rehps*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+(C_segups*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))) / Dal_mod*(((1+T_Des_DALY)^75-1)/(T_Des_DALY*(1+T_Des_DALY)^74))$.
- Rama 7: $C_Tam+(C_PO/C_OEA/C_PEAA)+((C_manPO/C_manOEA/C_manPEAA)*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+C_Dx+C_psm+(C_rehm*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+(C_segum*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))) / Dal_lev*(((1+T_Des_DALY)^75-1)/(T_Des_DALY*(1+T_Des_DALY)^74))$.
- Rama 8: $C_Tam+(C_PO/C_OEA/C_PEAA)+(C_manPO/C_manOEA/C_manPEAA)*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))+C_Dx / 0$
- Rama 9: $C_Tam+(C_PO/C_OEA/C_PEAA)+(C_manPO/C_manOEA/C_manPEAA)*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))+C_Dx+C_Pps+(C_rehps*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+(C_segups*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))) / Dal_Prof*(((1+T_Des_DALY)^75-1)/(T_Des_DALY*(1+T_Des_DALY)^74))$
- Rama 10: $C_Tam+(C_PO/C_OEA/C_PEAA)+(C_manPO/C_manOEA/C_manPEAA)*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))+C_Dx+C_Pps+(C_rehps*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+(C_segups*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))) / Dal_sev*(((1+T_Des_DALY)^75-1)/(T_Des_DALY*(1+T_Des_DALY)^74))$
- Rama 11: $C_Tam+(C_PO/C_OEA/C_PEAA)+(C_manPO/C_manOEA/C_manPEAA)*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))+C_Dx+C_psm+(C_rehm*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+(C_segum*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))) / Dal_mod*(((1+T_Des_DALY)^75-1)/(T_Des_DALY*(1+T_Des_DALY)^74))$
- Rama 12: $C_Tam+(C_PO/C_OEA/C_PEAA)+(C_manPO/C_OEA/C_PEAA)*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))) / 0$
- Rama 13: $C_Tam+(C_PO/C_OEA/C_PEAA)+(C_manPO/C_OEA/C_PEAA)*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))+C_Dx+C_Pps+(C_rehps*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+(C_segups*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))) / Dal_Prof*(((1+T_Des_DALY)^75-1)/(T_Des_DALY*(1+T_Des_DALY)^74))$
- Rama 14: $C_Tam+(C_PO/C_OEA/C_PEAA)+(C_manPO/C_OEA/C_PEAA)*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))+C_Dx+C_Pps+(C_rehps*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5)))+(C_segups*(((1+Ta_Des)^6-1)/(Ta_Des*(1+Ta_Des)^5))) / Dal_sev*(((1+T_Des_DALY)^75-1)/(T_Des_DALY*(1+T_Des_DALY)^74))$

- Rama 15: $C_{Tam}+(C_{PO}/C_{OEA}/C_{PEAA})+(C_{manPO}/C_{OEA}/C_{PEAA} *(((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)))+(C_{Dx}+C_{psm}+(C_{rehm} * (((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)))+(C_{segum} * (((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5))) / Dal_{mod} * (((1+T_{Des_DALY})^75-1)/(T_{Des_DALY} * (1+T_{Des_DALY})^74))$
- Rama 16: $C_{Tam}+(C_{PO}/C_{OEA}/C_{PEAA})+(C_{manPO}/C_{OEA}/C_{PEAA} *(((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5))) / 0$
- Rama 17: $C_{Tam}+(C_{PO}/C_{OEA}/C_{PEAA})+(C_{manPO}/C_{OEA}/C_{PEAA} *(((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)))+(C_{Dx}+C_{Pps}+(C_{rehps} * (((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)))+(C_{segups} * (((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5))) / Dal_{Prof} * (((1+T_{Des_DALY})^75-1)/(T_{Des_DALY} * (1+T_{Des_DALY})^74))$
- Rama 18: $C_{Tam}+(C_{PO}/C_{OEA}/C_{PEAA})+(C_{manPO}/C_{OEA}/C_{PEAA} *(((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)))+(C_{Dx}+C_{Pps}+(C_{rehps} * (((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)))+(C_{segups} * (((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5))) / Dal_{sev} * (((1+T_{Des_DALY})^75-1)/(T_{Des_DALY} * (1+T_{Des_DALY})^74))$
- Rama 19: $C_{Tam}+(C_{PO}/C_{OEA}/C_{PEAA})+(C_{manPO}/C_{OEA}/C_{PEAA} *(((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)))+(C_{Dx}+C_{psm}+(C_{rehm} * (((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)))+(C_{segum} * (((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5))) / Dal_{mod} * (((1+T_{Des_DALY})^75-1)/(T_{Des_DALY} * (1+T_{Des_DALY})^74))$
- Rama 20: $C_{Tam}+(C_{PO}/C_{OEA}/C_{PEAA})+(C_{manPO}/C_{OEA}/C_{PEAA} *(((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5))) / 0$
- Rama 21: $C_{Dx}+C_{Pps}+(C_{rehps} * (((1+Ta_{Des})^5-1)/Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5))+(C_{segups} * (((1+Ta_{Des})^5-1)/Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)) / Dal_{Prof} * (((1+T_{Des_DALY})^75-1)/(T_{Des_DALY} * (1+T_{Des_DALY})^74))$
- Rama 22: $C_{Dx}+C_{Pps}+(C_{rehps} * (((1+Ta_{Des})^5-1)/Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5))+(C_{segups} * (((1+Ta_{Des})^5-1)/Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)) / Dal_{sev} * (((1+T_{Des_DALY})^75-1)/(T_{Des_DALY} * (1+T_{Des_DALY})^74))$
- Rama 23: $C_{Dx}+C_{psm}+(C_{rehm} * (((1+Ta_{Des})^5-1)/Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5))+(C_{segum} * (((1+Ta_{Des})^5-1)/Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5)) / Dal_{mod} * (((1+T_{Des_DALY})^75-1)/(T_{Des_DALY} * (1+T_{Des_DALY})^74))$
- Rama 24: $C_{Tam}+(C_{PO}/C_{OEA}/C_{PEAA})+(C_{manPO}/C_{OEA}/C_{PEAA} *(((1+Ta_{Des})^6-1)/(Ta_{Des} * (1+Ta_{Des})^5))) / 0$

Bibliografía

1. Fulcher A, Purcell A a, Baker E, Munro N. Listen up : Children with early identified hearing loss achieve age-appropriate speech /language outcomes by 3 years-of-age. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* [Internet]. 2012;76(12):1785–94. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2012.09.001>
2. American Academy of Pediatrics, Joint Committee on Infant Hearing. Year 2007 Position Statement: Principles and Guidelines for Early Hearing Detection and Intervention Programs. *Pediatrics* [Internet]. 2007;120(4):898–921. Available from: <http://pediatrics.aappublications.org/cgi/doi/10.1542/peds.2007-2333>
3. Philips B, Corthals P, De Raeve L, D'haenens W, Maes L, Bockstael A, et al. Impact of newborn hearing screening. *Laryngoscope* [Internet]. 2009 May [cited 2016 Oct 31];119(5):974–9. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1002/lary.20188>
4. Caselli MC, Rinaldi P, Varuzza C, Giuliani A, Burdo S. Cochlear implant in the second year of life: lexical and grammatical outcomes. *J Speech Lang Hear Res* [Internet]. 2012 Apr 1 [cited 2016 Oct 31];55(2):382. Available from: [http://jslhr.pubs.asha.org/article.aspx?doi=10.1044/1092-4388\(2011/10-0248\)](http://jslhr.pubs.asha.org/article.aspx?doi=10.1044/1092-4388(2011/10-0248))
5. Connor CM, Craig HK, Raudenbush SW, Heavner K, Zwolan TA. The age at which young deaf children receive cochlear implants and their vocabulary and speech-production growth: is there an added value for early implantation? *Ear Hear* [Internet]. 2006 Dec [cited 2016 Oct 31];27(6):628–44. Available from: <http://content.wkhealth.com/linkback/openurl?sid=WKPTLP:landingpage&an=00003446-200612000-00004>
6. Burke MJ, Shenton RC, Taylor MJ. The economics of screening infants at risk of hearing impairment: An international analysis. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* [Internet]. 2012;76(2):212–8. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2011.11.004>

7. Castillo Laborde C, Loayza S, Aravena M, Freile B, Castillo Riquelme M. Costo-efectividad del screening y tratamiento de hipoacusia bilateral en recién nacidos. Chile; 2013.
8. Huang L-H, Zhang L, Tobe R-YG, Qi F-H, Sun L, Teng Y, et al. Cost-effectiveness analysis of neonatal hearing screening program in China: should universal screening be prioritized? *BMC Health Serv Res* [Internet]. 2012;12(1):97. Available from: <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender.fcgi?artid=3353179&tool=pmcentrez&rendertype=abstract>
9. Keren R, Helfand M, Homer C, McPhillips H, Lieu T a. Projected cost-effectiveness of statewide universal newborn hearing screening. *Pediatrics*. 2002;110(5):855–64.
10. Instituto de Evaluación Tecnológica en Salud. Manual para la elaboración de evaluaciones económicas en salud. Bogotá D.C.: IETS; 2014.
11. Higgins JPT, Green S (editors). *Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Interventions Version 5.1.0* [updated March 2011]. The Cochrane Collaboration, 2011. Available from www.cochrane-handbook.org.
12. Díaz M, Peña E, Mejía A, Flórez I. Manual metodológico para la elaboración de evaluaciones de efectividad, seguridad y validez diagnóstica de tecnologías en salud. Bogotá D.C.: Instituto de Evaluación Tecnológica en Salud - IETS; 2014.
13. Alam S, Gaffney M, Eichwald J. Improved Newborn Hearing Screening Follow-up Results in More Infants Identified. *J Public Heal Manag Pract* [Internet]. 2014;20(2):220–3. Available from: <http://content.wkhealth.com/linkback/openurl?sid=WKPTLP:landingpage&an=00124784-201403000-00009>
14. Kraft CT, Malhotra S, Boerst A, Thorne MC. Risk Indicators for Congenital and Delayed-Onset Hearing Loss. 2014;1839–43.
15. Vela-Amieva M, Gamboa-Cardiel S, Pérez-Andrade ME, Ortiz-Cortés J, González-Contreras CR, Ortega-Velázquez V. Epidemiología del hipotiroidismo congénito en México. *Salud Publica Mex*. 2004;46(2):141–8.

16. World Health Organization (WHO). WHO global estimates on prevalence of hearing loss [Internet]. 2012 [cited 2015 Jul 2]. Available from: http://www.who.int/pbd/deafness/WHO_GE_HL.pdf?ua=1.
17. Tucci D, Merson MH, Wilson BS. A summary of the literature on global hearing impairment: current status and priorities for action. *Otol Neurotol*. 2010;31(1):31–41.
18. INSOR. Boletín Territorial Observatorio Social Educación Observatorio Social. 2014;(242).
19. DANE. Departamento Administrativo Nacional de Estadística (DANE) [Internet]. 2017 [cited 2017 May 20]. Available from: <http://www.dane.gov.co/index.php/poblacion-y-demografia/discapacidad>
20. Meinzen-derr J, Wiley S, Grether S, Phillips J, Choo D, Hibner J, et al. Functional Communication of Children Who Are Deaf. *J Dev Behav Pediatr*. 2014;35(3):197–206.
21. Ministerio de Salud y Protección Social - Colciencias. Tamización para hipoacusia en recién nacidos sanos, a término y sin factores de riesgo. Guía de práctica clínica del recién nacido sano. Bogotá. Colombia; 2013.
22. Alcaldía Mayor de Bogotá. Proyecto de acuerdo 257 de 2012 [Internet]. 2012 [cited 2015 Jul 2]. Available from: <http://www.alcaldiabogota.gov.co/sisjur/normas/Norma1.jsp?i=49523>
23. Kraft CT, Malhotra S, Boerst A, Thorne MC. Risk Indicators for Congenital and Delayed-Onset Hearing Loss. *Otol Neurotol*. 2014;35:1839–43.
24. República de Colombia Ministerio de Salud. Norma técnica para la detección temprana de las alteraciones del crecimiento y desarrollo en el menor de 10 años. :1–30. Available from: file:///D:/SkyDrive/Administaci?n M?dica/msal.gov.ar/Res.779_msal_gov_ar.pdf
25. Lisseth A, Godoy R. Evaluación del Cumplimiento de la Normatividad Vigente para la Detección Temprana de la Hipoacusia Neonatal en la Ciudad de Bogotá en el año 2011. Universidad Nacional de Colombia; 2011.

26. Morera, C. Marco J. Lecciones de otorrinolaringología aplicada. 2nd ed. Editorial Glosa; 2006.
27. Vallejo Valdezate LÁ. Hipoacusia neurosensorial. 2nd ed. España: Masson S.A; 2003.
28. Rodríguez, Santiago. José S-A. Anatomía de los Órganos del Lenguaje, Visión y Audición. Madrid, España.: Editorial Médica Panamericana; 2003.
29. Basterra Alegría J. Tratado de Otorrinolaringología y Patología Cervical. Barcelona, España: Elsevier Masson; 20AD.
30. Gómez Gomez O, Ángel Obando FR, Casas Monsegny AM, Mellado Guzmán A, Pérez Arana MT, Restrepo Arias C, et al. Audiología básica. Bogotá: Universidad Nacional de Colombia. Facultad de Medicina.; 2006. 305 p.
31. Tamayo Fernández, Martalucía. Bernal Villegas J. Alteraciones Visuales y Auditivas de Origen Genético. Aspectos oftalmológicos, audiológicos y genéticos. Bogotá, Colombia.: Pontificia Universidad Javeriana; 1998.
32. Stach B. Clinical Audiology an Introduction. San Diego, California: Singular Publishing Group Inc; 1998.
33. World Health Organization (WHO). Newborn and infant hearing screening. WHO Libr Cat Data. 2009;(November):9–10.
34. American Speech-Language-Hearing Association. Causes of Hearing Loss in Children. Audiology Information Series. 2011.
35. Smith, Richard JH. Shearer, Eliot. Hildebrand, Michael. Van Camp G. Deafness and Hereditary Hearing Loss Overview [Internet]. GeneReviews. Seattle: University of Washington; 2014 [cited 2015 Nov 17]. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK1434/>
36. Grindle CR. Pediatric hearing loss. *Pediatr Rev.* 2015;6(5):16–8.
37. Sih T. Otorrinolaringología Pediátrica. Barcelona, España: Springer - Verlag Ibérica; 1999. 447 p.

38. Domino, Frank. Baldor, Robert. Grimes, Jill. Golding J. The 5-Minute Clinical Consult. Lippincott Williams & Wilkins; 2014.
39. Arruti I, Pélach R, Zubicaray J. Hipoacusias en la edad infantil. Diagnóstico y tratamiento. An Sist Sanit Navar. 2002;25(Supl2):73–84.
40. Madgaonkar C. Diagnosis. A symptom-base Approach in Internal Medicine. Jaypee Brothers Medical Publishers; 2011.
41. American Speech-Language-Hearing Association. Permanent Childhood Hearing Loss: Signs and Symptoms [Internet]. ASHA; [cited 2015 Nov 18]. Available from: http://www.asha.org/PRPSpecificTopic.aspx?folderid=8589934680§ion=Signs_and_Symptoms
42. American Speech-Language-Hearing Association. Effects of Hearing Loss on Development [Internet]. ASHA; [cited 2015 Nov 18]. Available from: <http://www.asha.org/public/hearing/Effects-of-Hearing-Loss-on-Development/>
43. Rivas, JA. Ariza H. Tratado de otología y audiología: diagnóstico y tratamiento médico-quirúrgico. Venezuela: Editorial Amolca; 2007.
44. U.S Preventive Services Task Force. Guía de actividades preventivas en la práctica médica. Madrid: Ediciones Días de Santos; 1992.
45. Ramos GT, Pinto JP, Cuadri a V, Berrocal MS, Ruiz GT, Huelva a B. Detección precoz de hipoacusia en recién nacidos mediante otoemisiones acústicas evocadas transitorias. :166–71.
46. Urdiales Urdiales, J. Iglesias, E. López Fernández, I. Vázquez Casares, G. Piquero Fernández, J. Conde López, M. Fernández Calvo, F. González López, P. García Vela J. Revisión de los métodos de screening en hipoacusias. Boletín de Pediatría. 2003;43:272–80.
47. American Speech-Language-Hearing Association. Otoacoustic Emissions (OAEs) [Internet]. ASHA; [cited 2015 Nov 24]. Available from: <http://www.asha.org/public/hearing/Otoacoustic-Emissions/>

48. Escajadillo JR. Oídos, nariz, garganta y cirugía de cabeza y cuello. Cuarta edición. México: Editorial El Manual Moderno; 2014. 974 p.
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. Kennedy C, Mccann D, Campbell MJ, Kimm L. Universal newborn screening for permanent childhood hearing impairment: an 8-year follow-up of a controlled trial .(*Research Letters*) Universal newborn screening for permanent childhood hearing impairment : an 8-year follow-up of a controlled trial .(. 2005;660(September 2003):1–5.
51. Hall III JW. *New Handbook of Auditory Evoked Responses.* United States of America: Pearson; 2007. 750 p.
52. Newton V. *Paediatric Audiological Medicine.* Wiley - Blackwell; 2009.
53. Choo D, Meinzen-Derr J. Universal newborn hearing screening in 2010. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* 2010;18(5):399–404.
54. McMurray JS. Hearing screening in the newborn. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000;8(6):465–8.
55. Joint Committee on infant hearing. Executive summary of joint committee on infant hearing year 2007 position statement Principles and Guidelines for Early Hearing Detection and Intervention Programs. 2007. 1-8 p.
56. 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.
57. Johnson JL, White KR, Widen JE, Gravel JS, James M, Kennalley T, et al. A multicenter evaluation of how many infants with permanent hearing loss pass a two-stage otoacoustic emissions/automated auditory brainstem response newborn hearing screening protocol. *Pediatrics.* 2005;116(3):663–72.

58. Puig Reixach MT, Municio A, Medà MC. Universal neonatal hearing screening versus selective screening as part of the management of childhood deafness. *Cochrane Database Syst Rev*. 2010;(1):CD003731.
59. Korver AMH, Konings S, Dekker FW, Beers M, Wever CC, Frijns JHM, et al. Newborn hearing screening vs later hearing screening and developmental outcomes in children with permanent childhood hearing impairment. *JAMA*. 2010;304(15):1701–8.
60. American Speech-Language-Hearing Association. How Does Your Child Hear and Talk? Speech, Language, and Hearing Developmental Milestones From Birth to 5 Years [Internet]. ASHA; [cited 2015 Nov 18]. Available from: <http://www.asha.org/public/speech/development/chart/>
61. Kumar, S. Jeffries, Leah. Murray, Sally. Worley, Anthea. Kok, Lifer. Sutton, Matthew. King, Ellie. Guerin, Michelle. Young, Alexandra. Burke, Catherine. Somers, Kate. James, Deborah. Grimmer-Sommers K. A systematic review of the literature on early intervention for children with a permanent hearing loss. Queensland; 2008.
62. Instituto Nacional para Sordos. Diccionario básico de la lengua de señas colombiana [Internet]. Colombia; 2006. p. 578. Available from: <http://www.ucn.edu.co/e-discapacidad/Documents/36317784-Diccionario-lengua-de-senas.pdf>
63. Yoshinaga-Itano C, Sedey AL, Coulter DK, Mehl AL. Language of early- and later-identified children with hearing loss. *Pediatrics* [Internet]. 1998 Nov [cited 2015 Oct 7];102(5):1161–71. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9794949>
64. Crespo VR, Cecilia M, Abalo P, Barros DH, O M De, López GS, et al. Efectos de la detección temprana sobre el desarrollo psico-social y lingüístico de los niños con pérdidas auditivas permanentes . *Rev CENIC Ciencias Biológicas*. 2002;33(3):99–105.
65. Fundación CINDA. Manual para educadores que trabajan por los niños con deficiencia auditiva. Colombia: Publicaciones fundación CINDA; 2006.
66. Red Pediátrica Widex. El niño y su audífono, principales consideraciones [Internet]. Red Pediátrica Widex. p. 14. Available from: http://www.widex.es/docs/modulo2_redpedWidex.pdf

67. Congreso de Colombia. Ley 982 de 2005 [Internet]. 2005 [cited 2015 Nov 25]. Available from: <http://www.alcaldiabogota.gov.co/sisjur/normas/Norma1.jsp?i=17283>
68. Guía de práctica clínica Detección de anomalías congénitas del recién nacido. 2013;(03).
69. Ministerio de Salud y Protección Social - Colciencias. Guía de práctica clínica del recién nacido sano. Bogotá, Colombia; 2013.
70. Ministerio de Salud y Protección Social - Colciencias. Guía de práctica clínica del recién nacido prematuro. Vol. 2. Bogotá, Colombia; 2013.
71. Sistema General de Seguridad Social en Salud. Recomendaciones trazadoras. In: Ministerio de Salud y Protección Social- Colciencias, editor. Guía de práctica clínica del recién nacido prematuro. Bogotá. Colombia; 2013.
72. Instituto de Evaluación Tecnológica en Salud. Manual de Procesos Participativos. Bogotá D.C.: IETS; 2014.
73. Gold M, Siegel J, Russell L, et al. Cost- effectiveness in Health and Medicine. New York: Oxford University Press; 1996.
74. Drummond M, Sculpher M, Torrance G, et al. Methods for the Economic Evaluation of Health Care Programmes. 3a edición. New York: Oxford University Press; 2005.
75. Drummond M, McGuire A. Economic Evaluation in Health Care. Merging Theory with Practice. New York: Oxford University Press; 2001.
76. Varian H. Microeconomía Intermedia. Un Enfoque Actual. 8a edición. Barcelona: Antoni Bosch Editor; 2011.
77. Instituto de Evaluación Tecnológica en Salud. Manual metodológico para la elaboración de evaluaciones de efectividad, seguridad y validez diagnóstica de tecnologías en salud. IETS; Bogotá, Colombia; 2014.

78. Drummond M, O'Brien B, Stoddart G, Torrance GW. Métodos para la Evaluación Económica de los Programas de Asistencia Sanitaria. España: Ediciones Díaz de Santos; 2007.
79. Kristensen FB, Sigmund H, editors. Health Technology Assessment Handbook [Internet]. Copenhagen: National Board of Health; 2007 [cited 2016 Nov 29]. p. 1–121. Available from: http://www.sst.dk/publ/Publ2008/MTV/Metode/HTA_Handbook_net_final.pdf
80. Dilla T, Sacristán JA. Evaluación económica de Intervenciones Sanitarias. Barcelona, España: Ediciones Doyma, S.L; 2006. 699-701 p.
81. Chicaíza L, Gamboa O, García M. Instructivo para la incorporación de la evaluación económica en guías de práctica clínica [Internet]. Documentos FCE. Bogotá D.C; 2008. Available from: http://www.bdigital.unal.edu.co/772/1/Doc_Garcia_EE_7_.pdf
82. Alvis N, Valenzuela MT. Los QALYS y DALYS como indicadores sintéticos de salud. Rev Med Chil. 2010;138(Supl 2):83–7.
83. Seuc A, Domínguez E, Díaz OD. Introducción a los DALYs. Rev Cubana Hig Epidemiol [Internet]. 2000;38(2):92–101. Available from: http://scielo.sld.cu/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1561-30032000000200002
84. Brazier J, Ratcliffe J, Salomon J et al. Measuring and valuing health benefits for economic evaluation. New York: Oxford University Press; 2007.
85. Drummond M, Barbieri M, Cook J, et al. Transferability of Economic Evaluations Across Jurisdictions: ISPOR Good Research Practices Task Force Report. Value in Health. 2009; 12(4): 409- 418.
86. International Society for Pharmacoeconomics and Outcomes Research (ISPOR). Draft: Model Parameter Estimation and Uncertainty: A Report of the ISPOR---SMDM Modeling Good Research Practices Task Force Working Group --- Part 3. [Fecha de consulta: 05 febrero.

87. Scottish Intercollegiate Guidelines Network. Search filters [Internet]. Healthcare Improvement Scotland. 2015 [cited 2016 May 20]. Available from: <http://www.sign.ac.uk/methodology/filters.html>
88. Shea BJ, Hamel C, Wells G a., Bouter LM, Kristjansson E, Grimshaw J, et al. AMSTAR is a reliable and valid measurement tool to assess the methodological quality of systematic reviews. *J Clin Epidemiol* [Internet]. 2009;62(10):1013–20. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.jclinepi.2008.10.009>
89. The Cochrane Collaboration. Cochrane Methods Screening and Diagnostic Tests [Internet]. 2016. Available from: <http://methods.cochrane.org/sdt/handbook-dta-reviews>
90. Ofman JJ, Sullivan SD, Neumann PJ, Chiou C-F, Henning JM, Wade SW, et al. Examining the value and quality of health economic analyses. Implications of utilizing the QHES. *J Manag Care Pharm*. 2003;9(1):53–61.
91. Gamboa Garay OA. Estudio de costo-efectividad e impacto al presupuesto de las terapias farmacológicas para la cesación del tabaquismo en Colombia Estudio de costo-efectividad e impacto al presupuesto de las terapias farmacológicas para la cesación del tabaquismo en Colomb. Universidad Nacional de Colombia; 2015.
92. Briggs AH, Mooney CZ, Wonderling DE. Constructing confidence intervals for cost-effectiveness ratios: an evaluation of parametric and non-parametric techniques using Monte Carlo simulation. *Stat Med* [Internet]. 1999 Dec 15 [cited 2016 Mar 25];18(23):3245–62. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/10602149>
93. Department of Health Statistics and Information Systems WHO. WHO methods and data sources for global burden of disease estimates 2000-2011 [Internet]. Global Health Estimates Technical Paper WHO/HIS/HSI/GHE/2013.4. Geneva; 2013. Available from: http://www.who.int/healthinfo/statistics/GlobalDALYmethods_2000_2011.pdf?ua=1
94. Donev D, Zaletel-Kragelj L, Bjegovic V, Burazeri G. Measuring the Burden of Disease: Disability Adjusted Life Year (DALY). *Heal Investig Anal*. 2013;393–416.
95. Heidari S, Manesh AO, Rajabi F. The sensitivity and specificity of automated auditory brainstem response and otoacoustic emission in neonatal hearing screening : a systematic review. *Audit Vestib Res*. 2015;24(3):141–51.

96. Washington State Department of Health. Protocol for Newborn Hearing Screening. 2012.
97. Ministerio de Salud y Protección Social. Lineamientos para la Gestión y Administración del Programa Ampliado de Inmunizaciones PAI. Colombia; 2016.
98. Ministerio de Salud y Protección Social. Registro Especial de Prestadores de Servicios de Salud - REPS. Dirección de Prestación de Servicios y Atención Primaria. 2017.
99. Castillo Laborde C, Loayza S, Aravena M, Freile B, Castillo Riquelme M. Costo-efectividad del screening y tratamiento de hipoacusia bilateral en recién nacidos [Internet]. Chile; 2013. Available from: <http://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S1098301513040114>
100. Tobe RG, Mori R, Huang L, Xu L, Han D, Shibuya K. Cost-Effectiveness Analysis of a National Neonatal Hearing Screening Program in China: Conditions for the Scale-Up. *PLoS One*. 2013;8(1):1–9.
101. Grill E, Uus K, Hessel F, Davies L, Taylor RS, Wasem J, et al. Neonatal hearing screening: modelling cost and effectiveness of hospital- and community-based screening. *BMC Health Serv Res* [Internet]. 2006;6(1):14. Available from: <http://www.biomedcentral.com/1472-6963/6/14>
102. Hessel F, Grill E, Schnell-Inderst P, Siebert U, Kunze S, Nickisch A, et al. Economic evaluation of newborn hearing screening: modelling costs and outcomes. *Ger Med Sci GMS e-journal* [Internet]. 2003;1:1–10. Available from: <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender.fcgi?artid=2703224&tool=pmcentrez&rendertype=abstract>
103. Kezirian EJ, White KR, Yueh B, Sullivan SD. Cost and cost-effectiveness of universal screening for hearing loss in newborns. *Otolaryngol - Head Neck Surg*. 2001;124(4):359–67.
104. Instituto Nacional de Salud. Avances en el tamizaje neonatal en Colombia [Internet]. 2014. Available from: <http://www.ins.gov.co:81/tramites-y-servicios/programas->

de-calidad/TSH Neonatal/AVANCES EN EL TAMIZAJE NEONATAL EN COLOMBIA.pdf?Mobile=1&Source=/tramites-y-servicios/programas-de-calidad/_layouts/mobile/dispform.aspx?List=48499a32-b79d-457

105. Antoni M, Rouillon I, Denoyelle F, Garab??dian EN, Loundon N. Newborn hearing screening: Prevalence and medical and paramedical treatment of bilateral hearing loss in a neonatal series in the Île-de-France region of France. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis* [Internet]. 2016;133(2):95–9. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.anorl.2015.10.001>

106. Antoni M, Rouillon I, Denoyelle F, Garab??dian EN, Loundon N. Newborn hearing screening: Prevalence and medical and paramedical treatment of bilateral hearing loss in a neonatal series in the Île-de-France region of France. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis*. 2016;133(2):95–9.

107. Sorkin DL. Cochlear implantation in the world's largest medical device market: Utilization and awareness of cochlear implants in the United States. [cited 2017 Nov 30]; Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3663290/pdf/cim-14-S4.pdf>

108. National Association of the Deaf (NAD). NAD position statement on cochlear implants [Internet]. 2000. Available from: <https://www.nad.org/about-us/position-statements/position-statement-on-cochlear-implants/>

109. Christiansen JB, Leigh IW. Children with cochlear implants: changing parent and deaf community perspectives. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* [Internet]. 2004 [cited 2017 Nov 30];130:673–7. Available from: <http://eds.a.ebscohost.com.ezproxy.unal.edu.co/eds/pdfviewer/pdfviewer?vid=1&sid=a67474d2-41be-4550-b1c4-91f3fcfbab4c%40sessionmgr4007>

110. Hintermair M, Albertini JA. Ethics, Deafness, and New Medical Technologies. *J Deaf Stud Deaf Educ* [Internet]. 2005 Apr 1 [cited 2017 Dec 1];10(2):184–92. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/15778214>

111. Knoors H, Marschark M. Language Planning for the 21st Century: Revisiting Bilingual Language Policy for Deaf Children. *J Deaf Stud Deaf Educ* [Internet]. 2012 Jul 1

[cited 2017 Dec 1];17(3):291–305. Available from:
<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/22577073>

112. Lane H. Ethnicity, Ethics, and the Deaf-World. *J Deaf Stud Deaf Educ* [Internet]. 2005 May 11 [cited 2017 Dec 1];10(3):291–310. Available from:
<https://academic.oup.com/jdsde/article-lookup/doi/10.1093/deafed/eni030>

113. Percy-Smith L, Cayé-Thomasen P, Breinegaard N, Jensen JH. Parental mode of communication is essential for speech and language outcomes in cochlear implanted children. *Acta Otolaryngol* [Internet]. 2010 Jun 4 [cited 2017 Dec 1];130(6):708–15. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/19958248>

114. Cantrell J. Deaf Parents of Cochlear-Implanted Children: Beliefs on Bimodal Bilingualism. *Deaf Stud Deaf Educ* [Internet]. 2015 [cited 2017 Nov 30];51–66. Available from:

https://watermark.silverchair.com/enu028.pdf?token=AQECAHi208BE49Ooan9kkhW_Ercy7Dm3ZL_9Cf3qfKAc485ysgAAAaYwggGiBgkqhkiG9w0BBwagggGTMIBjwIBADCCAYgGCSqGS1b3DQEHATAeBglghkgBZQMEAS4wEQQMNOlq2pn4qDuMPOPhAgEQgIIBWY0OSwThiuDZaYTiG6CSmmIEAGaNWNvGE7qyLUvRj4JMV CXU

115. Humphries T, Kushalnagar P, Mathur G, Napoli D, Padden C, Rathmann C, et al. Language acquisition for deaf children: Reducing the harms of zero tolerance to the use of alternative approaches. *Harm Reduct J* [Internet]. 2012 Apr 2 [cited 2017 Dec 1];9(1):16. Available from:
<http://harmreductionjournal.biomedcentral.com/articles/10.1186/1477-7517-9-16>

116. Kermit P. Choosing for the child with cochlear implants: a note of precaution. *Med Heal Care Philos* [Internet]. 2010 May 13 [cited 2017 Dec 1];13(2):157–67. Available from:
<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/20155398>

117. Nussbaum DB, Scott S. Cochlear implants: Evolving perspectives. In: *The Cochlear Implant Education Center: Perspectives of effective educational practices*. Washington, DC: Gallaudet Unive; 2011. p. 175–205.

118. Nussbaum D, Scott S, Simms L. The “why” and “how” of an ASL/English bimodal bilingual approach. *Odyssey*. 2012;13:14–9.

119. Mitchiner, JC. Sass-Lehrer, M. 2011. My child can have more choices: Reflections of Deaf mothers on cochlear implants for their children. In R. Paludneviene & I. W. Leigh (Eds.), *Cochlear implants: Evolving perspectives* (pp. 71–94). Washington, D.
120. Harris, RL. Paludneviene, R. 2011. Impact of cochlear implant on the Deaf community. In R. Paludneviene & I. W. Leigh (Eds.), *Cochlear implants: Evolving perspectives* (pp. 3–15). Washington, DC: Gallaudet University Press.
121. Mitchiner, J. Nussbaum, DB. Scott, S. 2012. The implications of bimodal bilingual approaches for children with cochlear implants (Research Brief No. 6). Washington, DC: Visual Language and Visual Learning Science of Learning Center.
122. Jiménez, MA. Pino, MJ. Herruzo, J 2009. A comparative study of speech development between deaf children with cochlear implants who have been educated with spoken or spoken + sign language. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*,.
123. Preisler, G. Tvingstedt, A. L., Ahlström, M. 2002. A psychosocial follow-up study of deaf preschool children using cochlear implants. *Child: Care, Health and Development*, 28, 403–418. doi:10.1046/j.1365-2214.2002.00291.x.
124. Yoshinaga-Itano, C. (2006). Early identification, communication modality, and the development of speech and spoken language skills: Patterns and considerations. In P. E. Spencer & M. Marschark (Eds.), *Advances in the spoken language development of deaf an.*
125. Hyde, M. Punch, R. 2011. The modes of communication used by children with cochlear implants and role of sign in their lives. *American Annals of the Deaf*, 155, 535–549. doi:10.1353/aad.2011.0006.
126. Hjalte F, Brännström J, Gerdtham U-G. Societal costs of hearing disorders: A systematic and critical review of literature. *Int J Audiol* [Internet]. 2012;51(9):655–62. Available from: <http://www.tandfonline.com/doi/full/10.3109/14992027.2012.690077>
127. Mohr PE, Feldman JJ, et al. 2000. The societal costs of severe to profound hearing loss in the United States. *International Journal of Technology Assessment in Health Care* , 16(4), 1120 – 1135.

128. Kochkin S. The efficacy of hearing aids in achieving compensation equity in the workplace. *Hear J* [Internet]. 2010 [cited 2017 Nov 30];63(10):19–28. Available from: http://www.betterhearing.org/sites/default/files/hearingpedia-resources/MarkeTrak_VIII_The_Efficacy_of_Hearing_Aids_in_Achieving_Compensation_Equity_in_the_Workplace.pdf