

Cumplimiento de los indicadores de gestión del riesgo en salud del modelo de atención en pacientes con hemofilia A y B en una entidad administradora de planes de beneficios

Compliance with the health risk management indicators of the care model in patients with hemophilia A and B in an entity that administers benefits plans

Diana Karolina Ocoro¹, Francia Helena Murillo²

¹ Secretaria de Salud Distrital de Cali, Alcaldía de Santiago de Cali, Colombia

² Coomeva EPS SA, Cali, Colombia

Correspondencia: Dianita078628@hotmail.com

Recibido: 27 abril 2020

Aceptado: 3 julio 2020

Publicado: 26 diciembre 2020

Palabras clave: Hemofilia, Indicadores, enfermedad huérfana, programa, gestión, evaluación, atención integral.

Keywords: Hemophilia, Indicator, Orphan Disease, programs, indicators, management, evaluation, integral attention, compliance.

Citación: Ocoro DK, Murillo FH. Compliance with the health risk management indicators of the care model in patients with hemophilia A and B in an entity that administers benefits plans. *ijepH*. 2020; 3(2): e-6842. Doi: 10.18041/2665-427X/ijepH.2.6842.

Conflicto de interés: Los autores manifiestan no tener ningún conflicto de interés

Contribución: las investigadoras tuvieron participación similar en lo relacionado a diseño del estudio, revisión de literatura, recolección de la información, análisis de los datos y formulación de conclusiones.

Agradecimientos: A la EAPB por permitirnos acceder a los datos y la realización de la investigación

Resumen

Introducción: En Colombia la hemofilia es considerada la enfermedad huérfana de mayor prevalencia y mayor impacto económico para el sistema de salud colombiano. Por su difícil manejo, diagnóstico, tratamiento, gravedad, discapacidad, mortalidad e impacto social, se requiere fortalecer la gestión del riesgo para disminuir la carga de enfermedad y evidenciarlo con resultados positivos en los indicadores del consenso de hemofilia.

Objetivo: Evaluar el cumplimiento de los indicadores de gestión del riesgo en salud del modelo de atención integral en pacientes con hemofilia A y B año 2018 en una entidad administradora de planes de beneficios (EAPB) de Colombia.

Métodos: Estudio observacional, descriptivo y retrospectivo en una población de pacientes hombres diagnosticados con hemofilia A y B. Se analizaron 122 registros clínicos reportados por una EAPB en el reporte de la cuenta de alto costo (CAC) de Hemofilia. Se calcularon los indicadores definidos por la CAC y se evaluaron 18 indicadores, 13 de resultado y 5 de proceso.

Resultados: El 39% de los indicadores cumple con el estándar propuesto por el consenso de indicadores de CAC. El no cumplimiento de indicadores fue mayor en la población mayor a 20 años.

Conclusión: En el estudio se encontró un bajo porcentaje de cumplimiento en los indicadores de gestión del riesgo y Los factores relacionados al no cumplimiento fueron: la población mayor a 20 años, La severidad moderado-severo de la hemofilia y la presencia de inhibidores

Abstract

Introduction: In Colombia, hemophilia is considered the orphan disease with the highest prevalence and the greatest economic impact for the Colombian health system. Due to its difficult management, diagnosis, treatment, severity, disability, mortality, and social impact, it is necessary to strengthen risk management to reduce the burden of disease and demonstrate it with positive results in the hemophilia consensus indicators.

Objective: Evaluate compliance with the health risk management indicators of the Comprehensive Care Model in patients with hemophilia A and B year 2018 in an EAPB in Colombia.

Methods: An observational, descriptive, longitudinal and retrospective study was conducted in a cohort of male patients diagnosed with hemophilia A and B. 122 clinical records reported by an EAPB in the Hemophilia High-Cost Account (CAC) report were analyzed. The indicators defined by the CAC were calculated and 18 indicators were evaluated, 13 result and 5 process.

Results: 39% of the indicators meet the standard proposed by the consensus of CAC indicators.

Conclusion: Study found a low percentage of compliance in the risk management indicators, and the factors related to non-compliance were: the population over 20 years of age, the moderate-severe hemophilia state and the presence of inhibitors

Contribución clave del estudio

Objetivo	Evaluar el cumplimiento de los indicadores de gestión del riesgo en salud del modelo de atención integral en pacientes con hemofilia A y B año 2018 en una entidad administradora de planes de beneficios (EAPB) de Colombia
Diseño del estudio	Estudio observacional, descriptivo y retrospectivo
Fuente de información	reporte de la cuenta de alto costo (CAC) de Hemofilia
Población / muestra	Población afiliada a la EAPB / Población con Diagnóstico de Hemofilia A y B
Análisis estadísticos	Se analizaron 122 registros clínicos reportados por una EAPB en el reporte de la cuenta de alto costo (CAC) de Hemofilia. Se calcularon los indicadores definidos por la CAC y se evaluaron 18 indicadores, 13 de resultado y 5 de proceso. El 39% de los indicadores cumple con el estándar propuesto por el consenso de indicadores de CAC.
Principales hallazgos	El 39% (7/18) de los indicadores cumplieron según la línea de base establecida por el consenso de la CAC. El no cumplimiento de indicadores fue mayor en la población mayor a 20 años.

INTRODUCCIÓN

La Federación Mundial de la Hemofilia (FMH), estimó que la incidencia mundial de la enfermedad es 1:10,000 habitantes hombres. Para el caso de la hemofilia B es 1:40,000 habitantes hombres. Se estimó que cada año se diagnosticaron en el mundo alrededor de 5,249 casos nuevos de hemofilia y con 400.000 personas con hemofilia en el mundo (1). En Colombia se reportó una incidencia de 1.1 por millón de habitantes y una prevalencia de 4.6 x 100,000 habitantes (2). Un metaanálisis realizado por la FMH reportó frecuencias de hemofilia A de 17:100,000 habitantes hombres y para hemofilia B de 4:100,000 habitantes hombres y se estimó por primera vez la prevalencia al nacer de 25 por cada 100,000 nacimientos hombres para la hemofilia A, en el caso de la Hemofilia B la prevalencia es de cinco por 100,000 nacimientos (3).

La hemofilia es un evento poco frecuente, su impacto clínico y económico representan una preocupación para los sistemas de salud. Esto debido a la complejidad del diagnóstico, del tratamiento y el seguimiento de estos pacientes, quienes requieren cuidados especiales por el alto riesgo de sangrado y por evolucionar a las formas más severas de la enfermedad (1), entre las que se encuentran daño articular o muscular; secuelas de hemorragias, desarrollo de inhibidores (4). Como una de las causas de la mortalidad están el sangrado del sistema nervioso central, mientras la mayor causa de morbilidad está la sinovitis crónica, dada por sangrados recurrentes a nivel articular generando un estado de inflamación crónica, que con el tiempo lleva a discapacidad (5).

Los pacientes requieren manejo integral a través de centros de tratamiento de hemofilia (CTH) con altos estándares de calidad y con personal de salud calificado en el manejo de la hemofilia (6). de igual manera la integralidad en la atención comprende la reconfirmación diagnóstica, la educación a la familia y/o a los cuidadores, el tratamiento, el seguimiento, la atención de los eventos de sangrado, la evaluación por un equipo interdisciplinario de salud, la intervención de sus complicaciones y la rehabilitación (6). La hemofilia requiere un manejo integral orientado a fomentar la salud física y psicosocial de los enfermos y no solamente la aplicación de un tratamiento, se requiere la prevención de las hemorragias y del consecuente daño articular, el manejo de las posibles complicaciones y la atención psicosocial del paciente y su familia para lograr reducir la morbilidad y la mortalidad a corto y mediano plazo (7).

La hemofilia A es la enfermedad huérfana de mayor impacto económico en el sistema de salud colombiano, según datos del FOSYGA (Fondo de Solidaridad y Garantía), para el primer semestre de 2014, la hemofilia A generó recobros por 37 mil millones de pesos, esto se debe al alto costo de la terapia de remplazo con concentrados de Factor VIII recombinante o derivados plasmáticos y al desarrollo de inhibidores (anticuerpos neutralizantes) secundario a la terapia de remplazo junto a las complicaciones derivadas de la enfermedad y su tratamiento (5); en este contexto los modelos entran a jugar un papel importante en la evaluación de programas siendo esta una herramienta poderosa por cuanto ayuda a identificar y corregir errores

en la implementación de los programas y permite hacer las intervenciones más eficientes y efectivas; esta evaluación se basa en recolectar información útil que permita juzgar el valor o mérito del programa, para así orientar la toma de decisiones (8).

Desde 2015 Colombia cuenta con un protocolo clínico para el tratamiento farmacológico con profilaxis primaria y secundaria en pacientes con diagnóstico de hemofilia A severa sin inhibidores (2), es obligatorio la notificación y reporte de pacientes diagnosticados con hemofilia y otras coagulopatías asociadas a déficit de factores de la coagulación a la cuenta de alto costo (9) y la atención de la prestación del servicio, la integralidad y la calidad por parte de las entidades administradoras de planes de beneficios (EAPB) se monitorizan a través de 18 indicadores (10); en el año 2016 se publicaron políticas de atención con el diseño de rutas integrales en salud que incluyen la hemofilia (11). En el país existen 11 centros de hemofilia hospitalarios: siete en Bogotá, dos en Bucaramanga, uno en Cali, uno en Medellín y cuatro instituciones con programas ambulatorios de hemofilia (12).

El objetivo de esta investigación fue evaluar el cumplimiento de los indicadores de gestión del riesgo en salud del modelo de atención integral en pacientes con hemofilia A y B año 2018 en una EAPB de Colombia. Estos indicadores van encaminados a la gestión del riesgo. Los resultados del estudio podrán servir de insumo para los tomadores de decisiones de la EAPB y así conocer si la implementación del modelo de atención genera impacto en los resultados en salud de sus afiliados; por otra parte, le permitirá identificar las características sociodemográficas, clínicas y los factores relacionados al no cumplimiento de los indicadores para así ajustar e implementar estrategias de mejora en pro de la calidad de atención a los pacientes.

MATERIALES Y MÉTODOS

Tipo de estudio

Se realizó una investigación operativa a través de un estudio observacional, descriptivo longitudinal con recolección de la información de manera retrospectiva.

Fuente de Información

Como fuente de información se tomaron los registros clínicos y los datos de la cuenta de alto costo de hemofilia en una EAPB de Colombia con la población con diagnóstico de hemofilia A y B inscrita en el modelo de atención integral de hemofilia entre el periodo del primero de febrero de 2018 y el 31 de enero de 2019.

Tamaño de Muestra

Se analizaron 122 registros del reporte realizado a la cuenta de alto costo. No se requirió de técnica de muestreo.

Criterios de Selección

Inclusión

Se incluyeron en el análisis registros de pacientes con diagnóstico de hemofilia y que están inscritos en el modelo de atención integral en una EAPB

Exclusión

Se excluyeron las mujeres clasificadas como portadoras, hombres

con otras coagulopatías diferentes a Hemofilia A y B que se incluyen en el modelo de atención y registros de pacientes que dentro de la base de datos de la cuenta de alto costo no tengan coherencia.

Área de estudio

La investigación se realizó en una EAPB, con presencia en 104 municipios de Colombia, con una población total de 1,774,870 afiliados (1,568,135 régimen contributivo y 206,735 régimen subsidiado). A octubre 2019, la EAPB presenta una prevalencia ajustada de hemofilia período 2018 de 6.5 x 100,000 afiliados al sistema (125 personas) por encima de la prevalencia nacional que se encuentra en 5.0 x 100,000 afiliados al sistema (2,245 personas) (13).

El modelo de atención de hemofilia inicia en el año 2008 a través de un contrato de prestación de servicios incluidos en el Plan de Beneficios en Salud, de manera descentralizada y suministro de medicamentos como factores (factor antihemofílico factor VIII, IX y factor recombinante) no incluidos en el plan de beneficios en salud. El nuevo modelo de atención integral inicia en el año 2012 y comprende un prestador centralizado y especializado para la atención ambulatoria, evitando las barreras administrativas y barreras geográficas, dando oportunidad en el acceso al tratamiento, una atención integral por un equipo multidisciplinario, articulada con el manejo intrahospitalario cuando el paciente lo requiera, para lo cual se establecieron

alianzas estratégicas con los prestadores de la red del asegurador que permiten el ingreso del medicamento “Factor Antihemofílico” para la atención del paciente.

Análisis de datos

Para los análisis se utilizaron los programas de Stata® 15.0 y la información fue recolectada en Microsoft Office Excel® reportada en la Cuenta de Alto costo 2019 a la cual se le incluyeron variables adicionales para dicho estudio.

Se realizó un análisis univariado para describir cada una de las variables del estudio, en las variables categóricas se utilizaron porcentajes tanto de las variables demográficas como en las clínicas, en las variables continuas se utilizaron promedio y desviación estándar.

Se incluyeron los 18 indicadores establecidos a partir del consenso de la cuenta de alto costo (trece de resultado y cinco de proceso) (10), los cuales están relacionados con sangrados, hospitalizaciones, procedimientos e intervenciones y atenciones por el equipo multidisciplinario de acuerdo a la guía de atención; el cumplimiento de los indicadores de proceso y de resultados se determinaron teniendo en cuenta la línea base de acuerdo al documento del consenso de indicadores 2015, se revisó la definición operacional descrita en el consenso de indicadores para la CAC de hemofilia y otras coagulopatías.

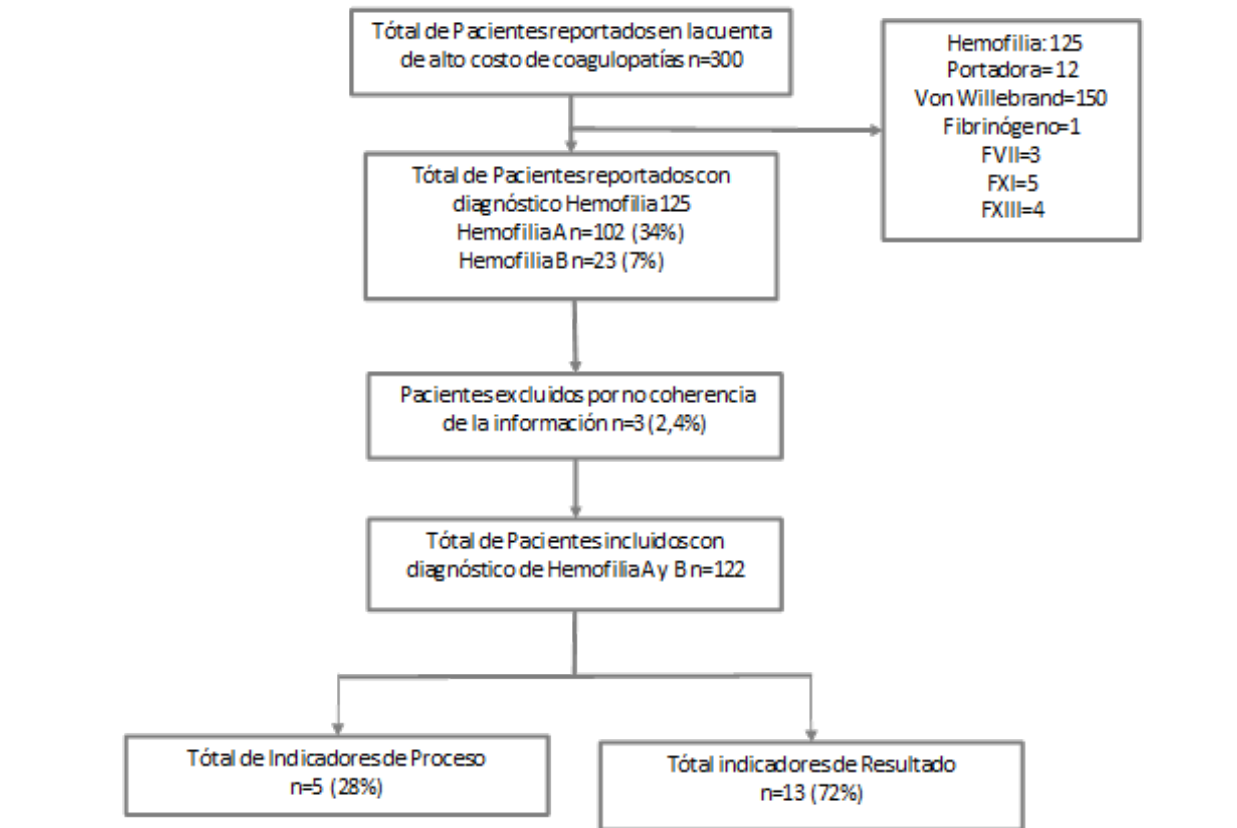


Figura 1. Diagrama identificación de las pacientes con hemofilia A y B reportados en la cuenta de alto costo de coagulopatías.

Tabla 1. Características demográficas de pacientes con diagnóstico de Hemofilia en una EAPB periodo 2018

Características	n	%
Edad		
Promedio (IC 95%)	26.4 ±18.8	23.3-30
Mediana (rango)	22	2-92
Régimen de seguridad social		
Contributivo	115	94.3
Subsidiado	7	5.7
Edad al momento del diagnóstico (años)		
<2	31	25.4
2-20	26	21.3
>20	12	9.8
Sin dato	53	43.4
Antecedentes familiares		
No tiene antecedentes	93	76.2
Madre o Padre	28	23
Desconocidos	1	0.8
Departamento de Procedencia		
Antioquia	25	20.5
Valle	44	36.1
Santander	7	5.7
Atlántico	6	4.9
Bogotá	6	4.9
Quindío	6	4.9
Bolívar	5	4.1
Córdoba	4	3.3
Choco	3	2.5
Risaralda	3	2.5
Cesar	2	1.6
Guajira	2	1.6
Magdalena	2	1.6
Norte De Santander	2	1.6
Caquetá	1	0.8
Casanare	1	0.8
Cundinamarca	1	0.8
Nariño	1	0.8
Sucre	1	0.8

El análisis del no cumplimiento de los indicadores se calculó como una proporción con sus respectivos IC del 95%, tomando como numerador aquellos pacientes con hemofilia que no cumplieron con los indicadores que les aplicaba de acuerdo a sus características clínicas y como denominador se tomó el número de indicadores por paciente que aplicaban para la medición; se definieron los siguientes rangos (0%-20%, 21%-40%, 41%-60% y >60%) encontrando que 50.8% de los pacientes no cumplieron con el rango entre 40% y >60% (cada rango obtuvo el 25.4% de los pacientes) de los indicadores que aplicaban para medición.

En el análisis bivariado las comparaciones se realizaron de acuerdo con los rangos de No cumplimiento; para las variables categóricas se utilizó la prueba exacta de Fisher, dado que en todas las celdas se observaron valores menores de 5, criterio por el cual no se puede utilizar la prueba de Ji2, en el caso de las variables cuantitativas se compararon mediante la prueba no paramétrica de Kruskal-Wallis, dado que se estaban comparando más de dos grupos. En los análisis comparativos se consideró un valor p <0.05 estadísticamente significativo.

Consideraciones éticas

Esta investigación fue aprobada como una investigación sin riesgo por los comités de ética de la EAPB y comité de ética y bioética de investigación de la Universidad Libre, según el acta 07 de 2019.

RESULTADOS

La EAPB tiene un alto número de pacientes con hemofilia A y B comparativamente a otras EAPB por número de afiliados, lo que constituye una carga de enfermedad importante en la población, la incidencia para la EAPB es 0.5 y para el país 1.2 por 1,000,000 afiliados y una prevalencia para la EAPB de 6.5 x 100,000 afiliados por encima de la prevalencia nacional que se encuentra en 5.0 x 100,000 afiliados.

Se evaluaron las características clínicas y sociodemográficas de 122 pacientes inscritos en el modelo de atención integral de hemofilia durante el periodo de febrero del 2018 a enero del 2019, Se excluyeron 178 registros de coagulopatías diferentes a la hemofilia A o B (Figura 1).

La mediana de edad de los 122 pacientes fue de 22 años, la mayoría de los pacientes pertenecían al régimen contributivo. El diagnóstico de la hemofilia se realizó principalmente antes de los dos años o entre los 2-20 años, es de resaltar que cerca del 43.4% no tenían el dato de diagnóstico. La gran mayoría de las personas incluidas no presentaron antecedentes familiares de hemofílicos. La población provenía principalmente de los departamentos de Antioquia y Valle con cerca del 56.6% (Tabla 1).

Del total de pacientes diagnosticados con hemofilia reportados en la CAC, 82.8% tenían hemofilia tipo A, con una condición severa (54.5%) y los diagnosticados con hemofilia tipo B (17.2%) fueron clasificados como severos el 38.1% (Tabla 2).

información que difiere de la caracterización molecular de Parrado Jara, según el Informe Epidemiológico 2017 que mostraba un total de 362 hombres con HB en Colombia, de los cuales 38.1% tenían fenotipo severo, 36.4% fenotipo moderado y 23.4% fenotipo leve (14).

Con relación al tratamiento inicial se desconoce el tratamiento en gran número de hemofílicos. Pero en los HA la mayoría fueron tratados inicialmente con Concentrado de Factor VIII y los HB con Concentrado de Factor IX. Al mirar el tratamiento actual para los HA se cambió a Concentrado de factor VIII y Otro factor y para HB Concentrado de factor IX y Otro factor principalmente. De igual forma con el esquema de tratamiento donde se desconoce este en la mayoría de los pacientes para

Tabla 2. Características clínicas de pacientes con diagnóstico de hemofilia A y B en una EAPB periodo 2018

Características	Hemofilia A		Hemofilia B		Total	
	n	%	n	%	n	%
	101	82.8	21	17.2	122	100
Severidad						
Leve	23	22.8	2	9.5	25	20.5
Moderado	23	22.8	11	52.4	34	27.9
Severo	55	54.5	8	38.1	63	51.6
Factor recibido tratamiento inicial						
Concentrado de Factor VIII	43	42.6	1	4.8	44	36.1
Concentrado de Factor IX	0	0.0	11	52.4	11	9.0
Plasma fresco congelado	3	3.0	0	0.0	3	2.5
Crioprecipitado	2	2.0	0	0.0	2	1.6
Desconocido	47	46.5	7	33.3	54	44.3
No Recibió Tratamiento	4	4.0	0	0.0	4	3.3
Otro Factor	2	2.0	2	9.5	4	3.3
Esquema de tratamiento inicial						
A demanda	20	19.8	5	23.8	25	20.5
Profilaxis primaria	13	12.9	7	33.3	20	16.4
Profilaxis secundaria	7	6.9	1	4.8	8	6.6
Profilaxis terciaria	4	4.0	0	0.0	4	3.3
Sin tratamiento	1	1.0	0	0.0	1	0.8
Desconocido	56	55.4	8	38.1	64	52.5
Factor recibido tratamiento actual						
Concentrado de factor VIII	75	74.3	0	0.0	75	61.5
Concentrado de factor IX	0	0.0	13	61.9	13	10.7
Plasma fresco congelante	2	2.0	2	9.5	4	3.3
Crioprecipitado	1	1.0	0	0.0	1	0.8
Otro factor	19	18.8	6	28.6	25	20.5
Factor VIII + rFVIIa	3	3.0	0	0.0	3	2.5
Factor VIII + CCPa	1	1.0	0	0.0	1	0.8
Esquema de tratamiento actual						
A demanda	18	17.8	2	10.0	20	16.4
Profilaxis primaria	30	29.7	8	38.0	38	31.1
Profilaxis secundaria o terciaria	31	30.7	5	24.0	36	29.5
ITI + profilaxis	3	3.0	0	0.0	3	2.5
A demanda, pero no requirió de tratamiento durante periodo	19	18.8	6	29.0	25	20.5

ambos diagnósticos; para todos los pacientes independientemente del diagnóstico el esquema de tratamiento inicial fue a demanda o profilaxis primaria y este cambio a profilaxis primaria o profilaxis secundaria o terciaria en HA y Profilaxis primaria o a demanda en los HB (Tabla 2).

Los 18 indicadores propuestos por la CAC se evaluaron de manera general teniendo en cuenta la línea base y criterios de medición del consenso de indicadores de la CAC. El 39% (7/18) de los indicadores cumplieron según la meta establecida por el consenso de la CAC (Tabla 3). Se identificaron diferencias en 7 resultados de indicadores calculados versus los resultados publicados por la cuenta de alto costo para la EAPB. Los indicadores que marcan el no cumplimiento fueron 6 para resultado y todos los de proceso.

La CAC estipulo cinco indicadores de proceso relacionados con la atención por el equipo multidisciplinario (hematología, ortopedista, odontología, psicología, trabajo social), por el hematólogo y por odontología. A pesar que no se cumple con ninguno de los indicadores de proceso, se encontró que todos los usuarios tuvieron algún tipo de atención por alguno de los profesionales durante el periodo incluido en nuestro estudio, por ejemplo, el 52% (64 pacientes) tuvieron valoración por todo el equipo multidisciplinario y el promedio de atención por hematólogo en pacientes con hemofilia leve a moderada fue de 1.9 atenciones durante el año, cifra que se encuentra por debajo del referente nacional de 3.5, mientras que para los pacientes con hemofilia severa se reportaron 4.8 atenciones de hematología durante el año, lo esperado por la CAC es una frecuencia mayor a 6 veces al año para los pacientes severos. La atención por profesional de odontología, junto con los de nutrición fueron los servicios que presentaron menos reportes de atención, los pacientes con hemofilia leve-moderada realizaron 0.6 atenciones de odontología y para hemofilia severa 0.9 atenciones, según el referente nacional CAC hemofilia 2019, en hemofilia leve a moderada es de 2 atenciones y en severa 3 o más atenciones. Los resultados de los dos indicadores no cumplen con las atenciones requeridas de acuerdo a la severidad de la hemofilia según el referente nacional CAC hemofilia 2019 (13).

Al analizar los factores relacionados al no cumplimiento de los indicadores, se evidenció que los pacientes mayores a 20 años tenían más probabilidad de no cumplir con los indicadores debido a sus características clínicas, fallas en el autocuidado y a la baja adherencia a los programas de salud. Se pudo determinar que en los rangos de no cumplimiento del 60% o mas fue donde se situó la mayor cantidad de personas. Con respecto a la severidad en el rango de no cumplimiento del 40% se observó la mayor cantidad de pacientes para moderado y severo y en mayor al 60% de no cumplimiento para leve. Para la presencia de inhibidores el no cumplimiento se dio con pacientes que no tenían inhibidores en todos los rangos (Tabla 4).

DISCUSIÓN

En el estudio se encontró que 37% de los indicadores de gestión del riesgo presentaron un resultado adecuado de acuerdo al estándar o línea de base. Al comparar este resultado a nivel país se observa un cumplimiento del 66% de los indicadores de acuerdo a lo publicado en el documento de la situación de la hemofilia en

Colombia año 2019 (13). El resultado de la EAPB presenta una brecha del 29% con relación al resultado del país.

Se evidenció un incumplimiento en 6 del total de los indicadores de resultado para la EAPB. Estos indicadores fueron: 1) Tasa de sangrado general en pacientes hemofílicos sin desarrollo inhibidores en profilaxis, 2) Tasa de sangrado general en pacientes hemofílicos con inhibidores (alta respuesta) en profilaxis durante el periodo, 3) Tasa de sangrado (articular más en otras localizaciones) tipo espontaneo en pacientes hemofílicos con desarrollo inhibidores en profilaxis, 4) Tasa de sangrado articular de tipo espontaneo en pacientes hemofílico con inhibidores (alta respuesta) en profilaxis; 5) Tasa de sangrado articular en pacientes sin inhibidores en profilaxis, 6) Proporción de pacientes hemofílicos en profilaxis con artropatía.

Los indicadores de resultado son una medida efectiva del tratamiento profiláctico de hemofilia que permiten evaluar la efectividad del esquema y a su vez la efectividad del programa. Los indicadores de resultado están encaminados a la evaluación de los sangrados de los pacientes de hemofilia con profilaxis (10), la terapia profiláctica con FVIII se considera el tratamiento óptimo para pacientes sin inhibidores y tiene como objetivo reducir el número de hemorragias; en la CAC se encontró que el sangrado general en pacientes hemofílicos sin el desarrollo de los inhibidores en profilaxis fue de 1.7 sangrados por paciente (13). En nuestro estudio se encontró un promedio de sangrado general de 2.6 en 56 pacientes hemofílicos sin inhibidores en profilaxis, no cumpliendo con la línea base (1.5). En un estudio retrospectivo realizado en la región de Murcia de España se incluyeron en un programa de profilaxis entre los años 2000-2009, se observó que los pacientes que iniciaron en el programa de profilaxis secundaria presentaron una tendencia global al descenso de los episodios de sangrado, los pacientes con hemofilia A grave en profilaxis primaria tuvieron menos eventos hemorrágicos que los que estaban en profilaxis secundaria (15).

De acuerdo con las recomendaciones de la FHM, la mejor forma de atender las diversas necesidades de las personas con hemofilia y de su familia, es brindarle el cuidado integral y coordinado a cargo de un equipo multidisciplinario de profesionales de la salud, que se ajuste a los protocolos aceptados en uso y de existir a las guías nacionales de tratamiento (16). En nuestro estudio se determinó que a pesar de recibir atención por el grupo interdisciplinar esto no fue suficiente para cumplir con los requerimientos de la CAC.

En cuanto a la caracterización clínica de los usuarios 54.5% de los pacientes con hemofilia A y 51.6% de los pacientes con hemofilia B eran severos, el esquema de tratamiento actual que mayor prevalece es la profilaxis tanto para los hemofílicos A y B, cumpliendo con la recomendación del protocolo de tratamiento para hemofilia en Colombia relacionada con el uso de la profilaxis en pacientes con hemofilia A severa para reducir la frecuencia de los sangrados de tipo espontaneo (2).

La tasa de sangrado articular en pacientes hemofílicos con inhibidores (alta respuesta) en profilaxis se evidencio un promedio de 3.3 sangrados cumpliendo con la línea base, el resultado para la CAC es de 2.4 de igual manera cumpliendo con el referente de línea base. En un estudio colombiano donde se

Tabla 3. Cumplimiento de los Indicadores clínicos de resultados de gestión del modelo de atención integral de hemofilia A y B en una EAPB año 2018

Tipo de indicador	Nombre	Línea base	Numerador	Denominador	Indicador	Comparación
Resultado	Tasa de sangrado general en pacientes hemofílicos sin desarrollo inhibidores en profilaxis	1.5	147	56	2.6	No cumple
Resultado	Tasa de sangrado general tipo espontaneo en pacientes hemofílicos sin desarrollo inhibidores en profilaxis	<0.7	36	56	0.6	Cumple
Resultado	Tasa de sangrado general en pacientes hemofílicos con inhibidores (alta respuesta) en profilaxis durante el periodo	4.5	27	4	6.8	No cumple
Resultado	Tasa de sangrado (articular más en otras localizaciones) tipo espontaneo en pacientes hemofílicos con desarrollo inhibidores en profilaxis	1.8	4	1	4.0	No cumple
Resultado	Tasa de sangrado articular en pacientes hemofílico en profilaxis con inhibidores (alta respuesta)	3.3	13	4	3.3	Cumple
Resultado	Tasa de sangrado articular de tipo espontaneo en pacientes hemofílico con inhibidores (alta respuesta) en profilaxis	1.5	4	1	4.0	No cumple
Resultado	Tasa de sangrado articular en pacientes sin inhibidores en profilaxis	<1.0	107	67	1.6	No cumple
Resultado	Tasa de sangrado tipo espontaneo en pacientes hemofílicos sin desarrollo inhibidores en profilaxis	1.0	26	56	0.5	Cumple
Resultado	Proporción de pacientes hemofílicos en profilaxis con artropatía	46.2	42	74	57%	No cumple
Resultado	Tasa de Hospitalización por sangrado en pacientes con hemofilia	<18.6	6	122	4.9%	Cumple
Resultado	Incidencia de pacientes con desarrollo de inhibidores (<0.6) en pacientes con hemofilia A	<25.8	0	78	0.0	Cumple
Resultado	Incidencia del desarrollo de inhibidores en pacientes con hemofilia B	<16.2	0	19	0.0	Cumple
Resultado	Proporción de pacientes con hemofilia severa sin inhibidores en manejo con profilaxis	>95 bueno 90-95 regular <90 malo	44	45	98	Cumple
Proceso	Proporción de pacientes evaluados por equipo interdisciplinario	>95 bueno 90-95 regular <90 malo	64	122	52	No cumple
Proceso	Atenciones por Hematólogo hemofilia leve- moderada	>2 (bueno), 1 (regular) 0 (malo)	115	59	1.9	No cumple
Proceso	Atenciones por Hematólogo hemofilia severa	>12 (bueno) <6 malo	301	63	4.8	No cumple
Proceso	Promedio de atención por odontología en pacientes con hemofilia leve -moderada	>2 (bueno), 1 (regular) 0 (malo)	34	59	0.6	No cumple
Proceso	Promedio de atención por odontología en pacientes hemofílicos con hemofilia severa	≥3 (bueno), 2 (regular) ≤1 (malo)	54	63	0.9	No cumple

realizó una investigación multicéntrica para evaluar la profilaxis con concentrado de complejo de protrombina activado (CCPa) en pacientes con hemofilia A con inhibidores de alta respuesta en donde seis pacientes tenían hemofilia A severa y dos moderada; 7/8 pacientes tenían artropatía hemofílica Y las tasas anuales de sangrado global y de hemartrosis previas a profilaxis fueron (8/año y 3.1/año), posterior a la profilaxis durante un periodo de 11-12 meses fueron (1.08/año y 1/año) encontrando una reducción de 86% y 68% respectivamente (17).

El desarrollo de artropatía hemofílica es una de las complicaciones más frecuentes en esta población y refleja el resultado de las intervenciones de un programa multidisciplinario, el acceso al tratamiento, de la adherencia de pacientes a las recomendaciones del programa y la efectividad de estrategias de intervención por parte de profesionales de la salud (10); al revisar un estudio realizado en la ciudad de Medellín en el año 2014 en donde el objetivo fue evaluar la calidad de vida relacionada con la salud de las personas con hemofilia en 59 pacientes se encontró que 96.6% recibían tratamiento con profilaxis, la mayor comorbilidad fue la artropatía hemofílica en 71% de las personas, seguida de la dislipidemia con 27% (18). El resultado de la EAPB obtuvo un resultado desfavorable con un 57% de pacientes con artropatía hemofílica en pacientes con profilaxis frente a la línea de base (46.2%), encontrándose por encima 9.8 puntos, el resultado para el reporte de la CAC fue de 60.2% (13).

El desarrollo de anticuerpos inhibidores representa la complicación más grave del tratamiento de la hemofilia. La incidencia de inhibidores en la hemofilia A se estima en alrededor de 0.2% y para hemofilia B grave varía de entre 9 y 23% (19); En nuestro estudio se reportaron 15.2% de pacientes incidentes con hemofilia A moderada a severa con desarrollo de inhibidores y ninguno con desarrollo de inhibidores en pacientes con hemofilia B severa a moderada, se observó el cumplimiento de este indicador; para la CAC hemofilia 2019 la incidencia en el desarrollo de inhibidores en hemofilia A moderada a severa se calculó en 15.3% y en hemofilia B moderada a severa en 5.2% (13).

La proporción de hospitalización por sangrado en pacientes con hemofilia fue del 4.9% siendo un porcentaje mucho menor comparado con el referente nacional de 11.4%, evidenciando que las atenciones hospitalarias se hicieron por causas mayores y no por eventos de sangrado que fueron manejados en el domicilio por el equipo multidisciplinario. Backer et al. (20), realizaron en estados Unidos, un estudio sobre modelos regionales de cuidados en salud de personas con enfermedades raras crónicas como la hemofilia en el cual participaron personas con esta patología, encontrando que aquellas personas que acudieron a un Centro de Tratamiento de la Hemofilia (CTH) tuvieron un 40% menos de probabilidad de ser hospitalizadas por complicaciones hemorrágicas y de morir por una complicación asociada a la hemofilia en comparación con aquellas que recibieron atención en sitios diferentes a los CTH (20), evidencia que demuestra que tener una atención por el equipo multidisciplinario es una medida que ayuda a la reducción de los sangrados y complicaciones de esta patología.

La caracterización demográfica de la población resalta la variable edad; con un promedio de 26.4 años, 25.4% de la población fue diagnosticado antes de los 2 años estos resultados coinciden con

lo encontrado en la CAC en la situación de la hemofilia 2019 en Colombia (13), lo que muestra que el diagnóstico de esta enfermedad se hace a temprana edad en una alta proporción de pacientes.

Limitaciones y fortalezas

Este estudio tuvo una temporalidad retrospectiva, se limitó la información sobre la exposición y la calidad del dato del reporte de la cuenta de alto costo como fuente de la información, el porcentaje de datos desconocidos fue el principal factor limitante del estudio ya que podrían llevar a resultados con sesgo de información; se evidenció que la información del tratamiento inicial al momento del diagnóstico para estos pacientes en el reporte de la CAC es desconocida probablemente se debe a que estos pacientes son antiguos en la EPS y anteriormente el modelo de atención era un modelo descentralizado lo que dificultó obtener los datos iniciales del tratamiento para el reporte de la cuenta de alto costo, los resultados encontrados son similares a los reportado por la CAC y a los estudios exhibidos como comparadores, por lo que se puede afirmar que la pérdida de datos no afectó la validez de los resultados.

Como fortalezas se consideran la inclusión de la totalidad de los pacientes que cumplieron criterios de inclusión, este estudio además de evaluar los indicadores de gestión, analizó factores relacionados al no cumplimiento de los indicadores para cada paciente de acuerdo a sus características clínicas, evidenciando que factores como la edad, severidad y la presencia de inhibidores son variables importantes las cuales le permitirá a la EAPB focalizar las acciones para el control sobre todo de los episodios de sangrados en este tipo de pacientes. Por otra parte, este estudio le permitirá a la EAPB identificar las actividades no incluidas en el contrato y que afectan directamente la gestión del riesgo de la cohorte, atenciones como odontología y sus procedimientos deberían verse incluidas en el programa integral, así como convenios de procedimientos ortopédicos o rehabilitación por personal entrenado en este tipo de patologías.

CONCLUSIONES

En el estudio se encontró un bajo porcentaje de cumplimiento en los indicadores de gestión del riesgo propuestos por CAC, 6 indicadores de resultados y todos los de proceso.

Los factores relacionados al no cumplimiento fueron: la población mayor a 20 años, principalmente en los porcentajes de no cumplimiento mayor o igual a 60%. Esto significa que en la mayoría de los casos la enfermedad lleva mucho tiempo diagnosticada y ya se debería tener conciencia de los cuidados y el manejo de las posibles complicaciones, entre estas la artropatía que se ve reflejada con limitaciones en la movilidad en población económicamente activa. Desde este sentido el modelo de atención de la EAPB debe fortalecer el seguimiento de todos los pacientes en especial los de clasificación severa garantizando el adecuado tratamiento para evitar los sangrados espontáneos y complicaciones de su patología, por otra parte adecuar las estrategias de comunicación y concientización de la enfermedad en cuanto a los cuidados a tener al identificar el tipo de deficiencia de factores de la coagulación, siendo la hemofilia A y B severas las que requieren mayor intervención y presentan mayor riesgo de sangrado.

Tabla 4. Factores relacionados al no cumplimiento de los indicadores

Característica	Descripción	N	Rangos de no cumplimiento de indicadores proceso y resultado				Valor p
			122	20% (n= 15)	40% (n= 45)	60% (n= 31)	
Edad al momento del reporte	Mediana	122	10	22	29	29	0.0074 *
Severidad	Leve	25	0	5	7	13	0.000 †
	Moderado	34	7	14	12	1	
	Severo	63	8	26	12	17	
Profesional líder	Hematólogo	112	15	44	27	26	0.303 †
	Médico general	3	0	0	1	2	
	Ortopedista	6	0	1	2	3	
	NA	1	0	0	1	0	
Factor recibido	Concentrado de factor VIII	75	10	27	20	18	0.075 †
	Concentrado de factor IX	13	4	5	4	0	
	plasma fresco congelado	4	1	1	0	2	
	Crioprecipitado	1	0	0	0	1	
	Otro factor	25	0	11	5	9	
	Factor VIII + rFVIIa	3	0	1	1	1	
	Factor VIII + CCPa	1	0	0	1	0	
Presencia de Inhibidores	Baja respuesta	5	0	1	2	2	0.000 †
	Alta respuesta	3	0	1	1	1	
	No presenta inhibidores	87	15	41	18	13	
	Desconocido	23	0	1	8	14	
	No se realizó porque no requiere a pesar de ser hemofílico	3	0	1	1	1	

* Prueba Kruskal-Wallis,

† Prueba exacta de Fisher

La severidad moderado-severo de la hemofilia con un rango del 40% de no cumplimiento y la presencia de inhibidores en quienes no se presentan con un rango del 40% de no cumplimiento.

Aunque el modelo de atención integral ha demostrado ser la mejor opción de atención a los pacientes con deficiencias congénitas de factores de la coagulación, en este caso hemofilia A y B, reconociendo que el oportuno diagnóstico, el adecuado tratamiento, el seguimiento, las intervenciones a su grupo familiar, escolar y/o laboral son estrategias claves para evitar complicaciones y secuelas a largo plazo que impactan en la calidad de vida del paciente, su familia y en los sistemas de salud en esta EAPB ese modelo no funciona adecuadamente.

El objetivo futuro es garantizar la implementación de los modelos de atención, los cuales deben evaluarse en aspectos relevantes de salud con un enfoque orientado en la mejoría de la calidad de vida de los pacientes con hemofilia, la disminución de complicaciones severas como sangrado y daño articular, hospitalizaciones prevenibles y disminuir la carga de años de vida perdidos a costa de la patología, estos manejos se deben garantizar con un equipo de atención multidisciplinario experto en el manejo de la patología, la gestión

del riesgo debe impactar de manera positiva en la evaluación de programa y en la optimización de los recursos del sistema.

Agradecimientos

A la EAPB por permitirnos acceder a los datos y la realización de la investigación y a nuestras familias por todo el apoyo brindado.

REFERENCIAS

1. Srivastava A, Brewer AK, Mauser-Bunschoten EP, Key NS, Kitchen S, Llinas A, et al. Guidelines for the management of hemophilia. *Haemophilia*. 2013; 19(1):e1-47.
2. Ministerio de Salud y Protección Social. Protocolo clínico para tratamiento con profilaxis de personas con hemofilia a severa sin inhibidores; 2015. Disponible en: <https://www.minsalud.gov.co/sites/rid/Lists/BibliotecaDigital/RIDE/DE/CA/Protocolo-hemofilia-marzo-2015.pdf>
3. Iorio AS, Stonebraker J, Chambost H, Makris M, Coffin D, Herr C, et al. Establishing the prevalence and prevalence at birth of hemophilia in males. *Ann Intern Med*. 2019; doi: 10.7326/M19-1208

4. Cuenta de Alto Costo. Situación de la hemofilia en Colombia. Cuenta de Alto Costo; 2015. Disponible en: <https://cuentadealtocosto.org/site/publicaciones/situacion-de-la-hemofilia-en-colombia-2015/?1613347091497>
5. Yunis HLK. Análisis molecular escalonado para la identificación de mutaciones en Hemofilia A y la correlación genotipo-fenotipo en una muestra de pacientes de Bogotá, D.C.: Universidad Nacional de Colombia; 2016.
6. Centers for Disease Control and Prevention. Treatment of Hemophilia. CDC; 2020 Disponible en: <https://www.cdc.gov/ncbddd/hemophilia/treatment.html>
7. Caballero OAM, Saavedra GAM, Hurtado CGE, Ortega BJA, Tocaruncho ALH. Estudio técnico del mecanismo de cálculo para definir el monto que las Eps Y Eoc deben aportar sobre los recursos de la Upc de los regímenes contributivo y subsidiado y su distribución, para el manejo de la enfermedad huérfana “déficit congénito del factor VIII. Ministerio de Salud y Protección Social; 2016. Disponible en: <https://www.minsalud.gov.co/sites/rid/Lists/BibliotecaDigital/RIDE/VP/RBC/documento-tecnico-hemofilia-final.pdf>.
8. Montero RE. Marco conceptual para la evaluación de programas de salud. Población y Salud en Mesoamérica. 2004; 1(2): 0.
9. Ministerio de Salud y Protección Social. Resolución 0123 Por la cual se establece el reporte de información de pacientes diagnosticados con hemofilia y otras coagulopatías asociadas a déficit de factores de la coagulación a la Cuenta de Alto Costo. Bogotá: Ministerio de Salud y Protección Social; 2015.
10. Cuenta de Alto Costo. Consenso basado en evidencia indicadores necesarios para evaluar los resultados en gestión del riesgo en pacientes con diagnóstico de hemofilia A o B para aseguradores y prestadores en Colombia. Cuenta de Alto Costo; 2015.
11. Ministerio de Salud y Protección Social. Resolución 2626 Por la cual se modifica la Política de Atención Integral en Salud -PAIS y se adopta el Modelo de Acción Integral Territorial-MAITE. Bogotá: Ministerio de Salud y Protección Social; 2019.
12. Robledo RS. Hemofilia en Colombia 2015. XVIII Congreso Nacional de Hemofilia. Federación Mundial de Hemofilia, Federación Médica Colombiana, Observatorio Interinstitucional de Enfermedades Huérfanas – ENHU. Bogotá; 2015.
13. Cuenta de Alto Costo. Situación de La Hemofilia En Colombia Año 2019. Bogotá: Fondo Colombiano de Enfermedades de Alto Costo, Cuenta de Alto Costo; 2019.
14. Parrado JYA, Yunis HLK, Linares A, Yunis LJJ. Molecular characterization of hemophilia B patients in Colombia. *Mol Genet Genomic Med.* 2020; 8(5): e1210.
15. Garcia CF, Cabañas PV, Moreno MM, Majado J, Salido FE, Morelada JM. Profilaxis en hemofilia: experiencia de un hospital de tercer nivel. *Rev Hematol Mex.* 2011; 12(4):249-256.
16. Escobar G, Linares A, Solano TMH, Robledo RS, Acuña ML, Sanchez QP, et al. Contenidos mínimos para la confirmación de programas para la atención integral de pacientes con diagnóstico de hemofilia y otros defectos de la coagulación. Ministerio de Salud y Protección Social, Asociación Colombiana de Hematología y Oncología ACHO, Asociación Colombiana de Hematología y Oncología Pediátrica ACHOP, Liga Colombiana de Hemofílicos y Otras Deficiencias Sanguíneas Colhemofílicos, Cuenta de Alto Costo Fondo Colombiano de Enfermedades de Alto Costo; 2017.
17. Solano MH, Linares A, Sarmiento I, Casas C, Sossa C, Peña Á. Profilaxis con CCPa en pacientes con hemofilia A con inhibidores de alta respuesta Una estrategia alternativa al estándar de tratamiento. *Acta Med Colomb.* 2015; 40(4): 288-293.
18. Fuenmayor CA, Jaramillo RM, Salinas DF. Calidad de vida en una población con hemofilia: estudio de corte transversal en un centro de tratamiento de hemofilia. *Rev Colomb Reumatol.* 2017; 24(1): 18-24.
19. Iorio A. chapter 7. Epidemiology of Inhibitors in Hemophilia. En: Lee CA, Berntorp EE, Hoots WK. Hemophilia. John Wiley & Sons, Ltd; 2014. Pp 53-58.
20. Backer JR, Crudder SO, Riske B, Bias V, Forsberg A. A model for a regional system of care to promote the health and well-being of people with rare chronic genetic disorders. *Am J Public Health.* 2005; 95(11):1910-6.

©Universidad Libre 2020. Licence Creative Commons CCBYNC-ND-4.0. <https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/legalcode>

