

El implante coclear bilateral. Situación actual en España

16 de noviembre de 2017

Revisión: 24 de noviembre de 2017

Resumen

En la primera parte de este documento se describen las ventajas del implante coclear bilateral (ICB) —que consiste en llevar un implante en cada oído— frente al unilateral (un solo implante); se presentan los estudios de coste-efectividad realizados hasta la fecha y se analiza la cobertura del ICB en los sistemas sanitarios de varios países.

La segunda parte se centra en la situación española, empezando por una revisión de los estudios de evaluación económica del ICB realizados en nuestro país, incluyendo un análisis de coste-efectividad publicado muy recientemente por investigadores de la Universidad Nacional de Educación a Distancia (UNED). A continuación se explica la cobertura del ICB en nuestro sistema sanitario, poniendo de manifiesto la gran variabilidad entre las comunidades autónomas. Por último, se discute la Orden SSI/1356/2015, del Ministerio de Sanidad, Servicios Sociales e Igualdad, por la que se incluye en la Cartera de Servicios Comunes del sistema nacional de salud el ICB para niños y adultos.

En www.observatorio-ic.org/temas/implantacion_coclear/IC_bilateral puede encontrar más información, incluyendo posiblemente una versión revisada de este documento.

Índice

1. Implante coclear bilateral frente a unilateral	1
1.1. Ventajas del ICB	1
1.1.1. Mejor comprensión del lenguaje	1
1.1.2. Mejor expresión oral	2
1.1.3. Audición en estéreo	2
1.1.4. Repuesto en caso de avería	2
1.1.5. Bibliografía adicional	3
1.2. ¿Merece la pena poner dos implantes?	4
1.2.1. Las recomendaciones de los expertos	4
1.2.2. Estudios de coste-efectividad del ICB	4
1.3. Cobertura del IC bilateral en varios países	7
2. El implante coclear bilateral en España	9
2.1. Estudios de coste-efectividad del ICB en España	10
2.1.1. Estudios de las agencias de evaluación españolas	10
2.1.2. Estudio de la UNED	12
2.2. Cobertura del ICB en España	14
2.2.1. Variabilidad de la cobertura	14
2.2.2. Incumplimiento de la legislación vigente	15
2.3. La Orden SSI/1356/2015	16
2.3.1. El Proyecto de Orden	16
2.3.2. Alegaciones	17
2.3.3. Análisis de la Orden publicada	17
2.4. Un consejo para usuarios y padres	19
2.4.1. Consejo para usuarios ya implantados	19
2.4.2. Consejo para quienes esperan su primer implante	19
3. Conclusión	20
Agradecimientos	22
Bibliografía	23

1. Implante coclear bilateral frente a unilateral

El primer implante auditivo se realizó el 25 de febrero de 1957 en Francia por los doctores André Djourno y Charles Eyrès. El primer implante coclear (IC) propiamente dicho —es decir, el primero que funcionó con un electrodo insertado en la cóclea— lo llevó a cabo el Dr. William House el 9 de enero de 1961 en Estados Unidos [Mudry and Mills, 2013]. Durante los primeros años se ponía un único implante, pues ello era suficiente para restaurar la audición, aunque fuese aún de forma rudimentaria.

El primer IC bilateral (ICB) se realizó en Alemania en 1996 por la insistencia del propio paciente, quien comprobó que oía mucho mejor con el oído en que tenía un implante que con el otro, en que llevaba un audífono. Se trató, por tanto, de un ICB *secuencial* (también llamado *consecutivo*), porque implicó dos operaciones quirúrgicas, en ese caso separadas por un intervalo de varios años. Hoy en día se practica cada vez el ICB *simultáneo*, que consiste en poner los dos implantes en la misma operación.

En la primera parte de este documento repasamos las principales ventajas del ICB frente al unilateral y explicamos cómo y por qué se está aplicando cada vez en más países. En la segunda parte analizamos la situación en España, desde los primeros estudios de coste-efectividad hasta el momento actual, tras la publicación de la Orden ministerial de julio de 2015, que por primera vez incluye el ICB para niños y adultos en la Cartera de Servicios Comunes del sistema nacional de salud.

1.1. Ventajas del ICB

Desde la realización del primer ICB, hace poco más de 20 años, se ha acumulado gran cantidad de evidencia sobre las ventajas de poner dos implantes en vez de uno. Ofrecemos aquí un resumen de las principales ventajas del ICB, con especial énfasis en el caso de los niños.

1.1.1. Mejor comprensión del lenguaje

Los usuarios de IC unilateral tienen dificultad para comprender el lenguaje cuando hay ruido moderado y a veces incluso con ruido leve. En cambio, el ICB permite una mejor comprensión del lenguaje hablado no sólo en ausencia de ruido, sino sobre todo en ambientes ruidosos [Litovsky et al, 2006; Tyler et al, 2006, 2007; Laske et al, 2009; Mosnier et al., 2009; van Hoesel and Litovsky, 2011]; por ejemplo, en una habitación o en un aula en que hay varias personas hablando a la vez.

En los foros de internet muchos usuarios comentan que al usar dos implantes pueden seguir las conversaciones con mucho menos esfuerzo que cuando tienen uno solo. El estudio de Hughes and Galvin [2013] estudio de laboratorio ha demostrado que el esfuerzo necesario para oír con dos implantes es similar a la de las personas normoyentes, mientras que al oír con un solo implante la fatiga aumenta significativamente [Hughes and Galvin, 2013]. Esto confirma la observación, mencionada varias veces en la literatura, de que los usuarios de IC unilateral se encuentren más cansados al final del día, lo cual es especialmente importante para los niños en edad escolar.

1.1.2. Mejor expresión oral

Varios estudios han demostrado que los niños que llevan dos implantes tienen una mayor riqueza de lenguaje hablado que los que sólo tienen uno [Bauer et al, 2006; Litovsky et al, 2006; Sharma et al, 2005; Kuhn-Inacker et al, 2004; Sarant et al. 2014]. De hecho, el promedio de los niños que reciben el segundo antes de cumplir tres años acaban alcanzando el mismo nivel que sus compañeros normoyentes, mientras que quienes lo reciben más tarde en promedio nunca llegan a alcanzar ese nivel.

Según un estudio llevado a cabo por el Prof. Quentin Summerfield, esta mejora en la expresión oral es uno de las ventajas más valoradas por los padres de los niños que necesitan dos implantes.¹ En la misma línea, Sarant y Garrard [2014] demostraron que la menor capacidad de comprensión y de expresión de los niños que llevan un solo implante hace que sus padres sufran un nivel de estrés mayor que los de niños con ICB.

1.1.3. Audición en estéreo

El ICB permite detectar el origen del sonido, lo cual no sólo aumenta la calidad de vida de la persona, sino que repercute también en la **seguridad** al cruzar una carretera, al montar en bicicleta y, en el caso de los adultos, al conducir un vehículo.

Además el ICB facilita la integración en el aula: por ejemplo, cuando un alumno habla, todos sus compañeros vuelven la cabeza hacia él, mientras que un niño con un solo implante necesita mirar a la boca a todos los demás hasta encontrar al que está hablando.²

Estos dos factores (la mejor audición en condiciones de ruido y la mayor facilidad para seguir una conversación de grupo) contribuyen a mejorar los procesos de atención y facilitan la integración del niño con ICB en el aula; en cambio, que los niños que sólo tienen un implante se encuentran más cansados al final del día y su rendimiento académico es significativamente menor [Summerfield et al., 2010]. De hecho, Bess [1986] demostró que los niños con pérdida de oído unilateral —aun teniendo audición normal en el otro oído, algo que no se consigue con un ICU— tenían una probabilidad 10 veces mayor de suspender un curso. Ello no sólo es un perjuicio para el propio niño y su familia, sino que también tiene un coste económico para la toda la sociedad: por los gastos de escolarización y porque una persona con menor nivel de educación aporta menos beneficios a la comunidad.

También hay varios estudios recientes que muestran que los usuarios de ICB disfrutan más la música que quienes tienen sólo uno, en consonancia con los testimonios de muchos usuarios en los foros de internet.

1.1.4. Repuesto en caso de avería

Por último, una gran ventaja de tener dos implantes que la persona pueda seguir oyendo cuando una de las baterías se agota, cuando se estropea uno de los dos procesadores o cuando falla la parte interna del implante. Esto es especialmente importante hoy en día, ya que la mayor parte de los niños implantados acuden a escuelas ordinarias y no aprenden lengua de signos porque no la necesitan para su vida diaria.³ Si el niño lleva un solo implante y éste se estropea, no podrá ir a la escuela. No sólo será un trauma para el niño, sino que afectará negativamente al rendimiento laboral de sus padres.

¹ Datos aún no publicados. Comunicación personal.

² <http://www.2ears2hear.org.uk/education.htm>

³ De hecho, de Raeve [2007] comprobó que en Bélgica el 100% de los niños con IC bilateral estudiaban en escuelas ordinarias, mientras que el 46% de los que llevaban un implante unilateral asistían a colegios para sordos, lo cual, por otra parte, implica un ahorro de los costes educativos para la sociedad.

En algunos casos ha sido necesario retirar el implante interno y no se ha podido reimplantar en el mismo oído; si el otro no se ha desarrollado por no haber tenido nunca estimulación acústica, el segundo implante tendría entonces una eficacia muy reducida y por tanto la persona nunca podrá lograr una audición suficiente para integrarse en la sociedad. En cambio, si esa persona hubiera recibido un ICB al poco tiempo de nacer, esta situación no habría sido tan dramática.

Durante el proceso de evaluación económica del ICB que llevó a cabo el NICE entre 2007 y 2009, varios adolescentes comentaron que una de sus principales preocupaciones era que les fallara su único implante.

Aunque por ahora no disponemos de datos estadísticos sobre la frecuencia de los fallos de los implantes ni sobre la forma en que afecta al usuario y a sus familiares, podemos comentar algunos casos significativos que hemos conocido a través de las asociaciones relacionadas con la deficiencia auditiva. Por ejemplo, el caso de una niña sordociega que durante varios días estuvo casi incomunicada por una avería en el procesador de su único implante, o el caso de otra niña que estuvo un mes sin oír por una avería similar.

En cambio, conocimos a una niña que estaba en espera de una operación quirúrgica para la explantación de la parte interna de su implante por una avería y no se sabía cuándo tiempo transcurriría antes de que pudiera ser reimplantada. En estos casos el tiempo mínimo entre diagnóstico, cirugía y activación suele ser de unos tres meses. Afortunadamente esta niña y sus padres pudieron seguir con su vida normal gracias a que ella había recibido dos implantes.

Del mismo modo, Javier Quintanilla, profesor universitario, comentó en una entrevista que cuando él llevaba un solo implante a veces tenía que cancelar todas las citas de su agenda por una avería. Desde que tiene dos nunca ha tenido que interrumpir su actividad profesional.

1.1.5. Bibliografía adicional

Dos de los artículos que mejor explican los beneficios del ICB son el artículo de Peters [2006], *Rationale for Bilateral Cochlear Implantation in Children and Adults*,⁴ y el informe de MED-EL, *FocusOn Bilateral Cochlear Implantation*.⁵

Hay además varias revisiones sistemáticas recientes que recogen numerosos estudios sobre las ventajas del ICB frente al unilateral: [Berrettini et al., 2011; Bond et al., 2009a, 2009b, 2010; Crathorne et al., 2012; Forli et al., 2011; Gaylor, 2013; Johnston et al., 2009; Lammers et al., 2011; Raman et al., 2011; Sparreboom et al., 2010; Turchetti et al., 2011a, 2011b; van Schoonhoven et al., 2013]. También puede consultarse el estudio encargado por la Washington State Health Care Agency a la empresa Hayes Inc., que llevó a la aprobación del ICB en niños y adultos en dicho estado.⁶ Otro estudio similar, elaborado por el Ministerio de Sanidad de Nueva Zelanda, contiene una revisión sistemática que compara el IC bilateral frente al unilateral examinando la literatura publicada hasta 2013; este estudio llevó a la aprobación del ICB pediátrico en dicho país en julio de 2014, como veremos más adelante.⁷

⁴ Disponible también en www.dallasear.com/webdocuments/rationale-bilateral-cochlear-implantation.pdf.

⁵ www.medel.com/data/pdf/20455.pdf.

⁶ http://www.hca.wa.gov/hta/Documents/ci_report_final_041713.pdf.

⁷ <http://2ears2hear.files.wordpress.com/2014/05/oia-response-sym-gardner-h201401659.pdf>.

1.2. ¿Merece la pena poner dos implantes?

A pesar de estas ventajas, claramente demostradas en numerosos estudios, durante muchos años hubo un debate sobre, pues no estaba claro que los beneficios del ICB compensaran el elevado coste de poner un segundo implante a las personas que ya tenía uno. Por un lado, los expertos en audiolología recomendaban de forma unánime el ICB, al menos para los niños. Por otro, los primeros estudios de coste-efectividad, aplicando la metodología de la evaluación de tecnologías sanitarias, llegaron a la conclusión contraria. Resumimos aquí brevemente las dos posturas y explicamos cómo los análisis de coste-efectividad más recientes, desmintiendo las conclusiones de los primeros estudios, han confirmado que el ICB es coste-efectivo.

1.2.1. Las recomendaciones de los expertos

Las ventajas mencionadas anteriormente hicieron que los numerosos expertos en audiolología se manifestaran a favor del IC bilateral, no sólo de forma individual [Peters, 2006; Papsin y Gordon, 2008], sino también a través de las grandes asociaciones profesionales.

En 2004 científicos de varios países reunidos en Valencia (España) en el *Second Meeting Consensus on Auditory Implants* recomendaron el implante bilateral para niños con pérdida auditiva bilateral profunda permanente, y aconsejaron “prestar especial atención a los niños pequeños que están en el período de adquisición del habla y el lenguaje” [Offeciers et al., 2004].

Tres años más tarde, el *British Cochlear Implant Study Group*, que reúne a todos los centros de implantes cocleares de Reino Unido y a otros especialistas relacionados con el tema, publicó un comunicado en que analiza las ventajas del implante bilateral y lo recomienda, en primer lugar, “para todos los niños con sordera profunda, con el fin de estimular ambos conductos auditivos, optimizar el desarrollo del habla, del lenguaje y del desarrollo auditivo, y maximizar el éxito académico potencial”.⁸

En 2008 en Estados Unidos, el *William House Cochlear Implant Study Group* (CISG) examinó la literatura publicada hasta ese momento sobre las ventajas del IC bilateral —22 artículos— y redactó un manifiesto, cuyo borrador fue examinado por unos 250 profesionales del implante coclear. En dicho manifiesto el CISG “apoya fuertemente el IC bilateral en niños y adultos clínicamente apropiados” [Balkany et al., 2008].

Cuatro años más tarde, el *European Bilateral Pediatric Cochlear Implant Forum* publicó el siguiente comunicado: “Actualmente pensamos que el niño candidato a implante coclear fuera de duda debe recibir implantación coclear bilateral simultánea tan pronto como sea posible” [Ramsden et al., 2012].

1.2.2. Estudios de coste-efectividad del ICB

a) *Qué es un estudio de coste-efectividad*

Como hemos dicho, para que una intervención médica sea cubierta por un sistema público de salud no basta que sea efectiva, es decir, que mejore la duración y/o la calidad de vida; hace falta probar que es coste-efectiva, es decir, que las ventajas que aporta a los pacientes compensan su coste económico.

⁸ <http://www.bcig.org.uk/downloads/pdfs/BCIG%20position%20statement%20-%20Bilateral%20Cochlear%20Implantation%20May%2007.pdf>.

En algunos casos la efectividad puede medirse con criterios objetivos. Por ejemplo, el número de infartos evitados con una campaña anti-tabaco o el aumento en la supervivencia debido a un nuevo fármaco oncológico.

Sin embargo, a la hora de decidir qué intervenciones deben estar cubiertas por un sistema sanitario, es necesario evaluar actuaciones muy diferentes: campañas de prevención (por ejemplo, para promover dietas más sanas), nuevos tests de diagnóstico, nuevos tipos de cirugía, nuevos fármacos, etc. Para comparar beneficios tan distintas suele usarse un criterio común que tiene en cuenta no sólo la duración de la vida (supervivencia) sino también la calidad de vida. La unidad de medida es el *año de vida ajustado en calidad* (AVAC; en inglés, “quality adjusted life year”, QALY). La calidad de vida se mide en una escala donde el 0 equivale a estar muerto y el 1 equivale a tener una salud perfecta. Si una persona tiene una salud perfecta durante doce meses, la efectividad es 1 AVAC. Si tiene una calidad de vida de 0’5 durante un año, la efectividad es 0’5 AVAC. Si tiene una calidad de vida de 0’75 durante 10 años, son 7’5 AVACs. Cuando en una evaluación económica la efectividad se mide en AVACs, el estudio se denomina “análisis de coste-utilidad”. Hoy en día casi todos los estudios de coste-efectividad pertenecen a esta subclase, de modo que “análisis de coste-efectividad” y “análisis de coste-utilidad” vienen a ser sinónimos en la práctica.

El problema es que —a diferencia de otras medidas de efectividad, que son objetivas y por tanto pueden medirse en un laboratorio (por ejemplo la capacidad de reconocer el lenguaje hablado en personas con deficiencia auditiva)— la calidad de vida es subjetiva. Por tanto, la única forma de “medirla” es entrevistando a un elevado número de personas y calcular el promedio de sus respuestas. La situación es aún más complicada en la práctica porque las respuestas dependen del método utilizado y, a veces, dentro de cada método, de la forma de plantear las preguntas.

Cuando existen una intervención es más efectiva que otra (tiene más beneficios para la salud) pero más cara, la comparación se basa en el criterio cuantitativo para determinar si es coste-efectiva consiste en calcular la *razón de coste-efectividad incremental* (RCEI), que se define como el cociente entre la diferencia en el coste y la diferencia en la efectividad. La RCEI se compara con un *umbral*, que depende de cada país. Si la RCEI está por encima de ese umbral, entonces se acepta que la intervención más cara es coste-efectiva.

El *National Institute for Health and Care Excellence* (NICE), que tiene entre sus objetivos principales determinar qué intervenciones sanitarias deben estar cubiertas por el sistema público de Inglaterra y Gales, ha fijado el umbral entre 20.000 y 30.000 £/AVAC. En Estados Unidos, suele aceptarse que el umbral está entre 50.000 y 100.000 \$/AVAC. En España, según el consenso de los expertos, está alrededor de 30.000 €/AVAC.

b) Análisis de coste-efectividad del implante coclear

El impacto del poner un implante a una persona con sordera severa o profunda es evidente: pasa de no oír casi nada a poder entender las conversaciones. Por eso fue fácil demostrar que el IC unilateral es coste-efectivo; la revisión sistemática de Cheng et al. [1999] recopiló varios de esos estudios. Algunos de ellos concluyeron que un implante no sólo es coste-efectivo, sino que ahorra costes a la sociedad porque reduce la necesidad de educación especial y porque permite a las personas sordas integrarse en ella plenamente [Severens et al., 1997; Cheng et al., 2000].

En cambio, los primeros estudios que se hicieron sobre el ICB concluyeron que no era coste-efectivo en adultos, como puede verse en la tabla 1. En concreto, los tres estudios de Summerfield et al. [2002, 2003, 2006] mostrados en la tabla 1 daban una razón de coste-efectividad incremental (RCEI) superior a 60.000 £/AVAC. Teniendo en cuenta que el umbral estaba entre 20.000 y 30.000 £/AVAC, como hemos dicho, estaba claro que el ICB no

era coste-efectivo, es decir, que convenía poner un solo implante en vez de dos. Este resultado chocaba con las recomendaciones unánimes de los expertos en audiolología, que ya hemos comentado.

Estudio	País	Fuente de utilidades	Población	RCEI
Summerfield et al., 2002	Reino Unido	datos propios	adultos	61.734 £/AVAC
Summerfield et al., 2003	Reino Unido	Summerfield et al., 2002	adultos	100.000 £/AVAC
Summerfield et al., 2006	Reino Unido	datos propios	adultos	102.500 £/AVAC
Cochlear Europe Ltd. (enviado al NICE)	Reino Unido	proyección de datos	adultos	32,909 £/AVAC
			niños	39,049 £/AVAC
Bond et al., 2007, 2009a	Reino Unido	Summerfield et al., 2006	adultos	49,559 £/AVAC
			niños	40,410 £/AVAC
L-Pedraza Gómez et al., 2007	España	Summerfield et al., 2002	adultos	53,018 €/AVAC
			niños	44,199 €/AVAC
Bichey and Miyamoto, 2008	EE.UU.	datos propios	adultos y niños	2,187 \$/AVAC
Summerfield et al., 2010	Reino Unido	datos propios	niños	21,768 £/AVAC
Chen et al., 2014	Canadá	datos propios	adultos	55,020 \$/AVAC
Smulders et al., 2016	Holanda	datos propios	adultos	depende de la esperanza de vida
Foteff et al., 2016a	Australia	Chen et al., 2014	adultos	26,765 AU\$/AVAC
Foteff et al., 2016b	Australia	Summerfield et al., 2010	niños	39,822 AU\$/AVAC
Pérez-Martín et al., 2017	España	datos propios	niños	10,323 €/AVAC

Tabla 1. Estudios de coste efectividad del IC bilateral respecto del unilateral.

Por ello el NICE encargó un estudio más exhaustivo al grupo PenTAG, formado por investigadores de las universidades de Exeter y Plymouth [Bond et al., 2007, 2009a]. Este estudio, que combinó las mediciones de calidad de vida de Summerfield et al. [2006] con un modelo matemático “de Markov”, concluyó que la RCEI era de 49,559 £/AVAC para adultos y 40,410 para niños. Estos valores seguían estando por encima del umbral de Reino Unido, pero mucho más cerca de él. Además, la incertidumbre asociada a los parámetros del modelo impedía alcanzar una conclusión definitiva. En concreto, si el incremento en calidad de vida proporcionado por el segundo implante fuera de 0’055, como defendían algunos expertos,⁹ en vez del 0’030 obtenido por Summerfield et al. [2006], el ICB sí sería coste-

⁹ www.nice.org.uk/nicemedia/live/11726/41833/41833.pdf.

efectivo. Enseguida veremos que la incertidumbre se resolvió cuando los fabricantes ofrecieron descuentos en el segundo implante, de modo que la RCEI se situó por debajo de las 30.000 £/AVAC en el caso de los niños, lo cual llevó al NICE a aprobar el ICB pediátrico.

Al hablar de la situación en España veremos con más detalle el estudio de la Agencia Laín Entralgo [L-Pedraza Gómez et al., 2007], que utilizando de nuevo el estudio de Summerfield et al. [2006] para estimar el incremento en calidad de vida, concluyó que el ICB no es coste-efectivo en niños ni en adultos.

En contra de estos resultados, todos los estudios realizados en diferentes países a partir de 2008 han demostrado que el ICB es claramente coste-efectivo en niños; incluso el estudio más reciente de Summerfield et al. [2010] llega a la misma conclusión, como puede verse en la tabla 1. En el caso de los adultos, los resultados no son tan rotundos: algunos estudios han concluido que también es claramente coste-efectivo, mientras que en otros la incertidumbre asociada a los parámetros del modelo no permite afirmarlo con certeza.

1.3. Cobertura del IC bilateral en varios países

En 2009, antes de que el NICE británico publicara el estudio de que hemos hablado, sólo Argentina, Bélgica y algunos países nórdicos incluían el ICB en sus sistemas sanitarios. Sin embargo, la evidencia científica acumulada en la última década ha hecho que el implante bilateral se ha ido extendiendo de forma irreversible en numerosos países.

a) El ICB en Reino Unido

Como hemos visto anteriormente, Reino Unido es el país donde se ha estudiado de forma más exhaustiva el coste-efectividad del ICB. Ya hemos mencionado que los primeros estudios de Summerfield et al. [2002, 2003, 2006] concluyeron que no es coste-efectivo (cf. tabla 1), mientras que el estudio encargado por el NICE [Bond et al., 2007, 2009a] no llegó a una conclusión definitiva debido a la incertidumbre asociada a los parámetros de su modelo. Como salida para esa situación, los fabricantes de implantes ofrecieron descuentos de hasta el 40% en el precio del segundo implante, lo cual llevó al NICE a recomendar el ICB para todos los niños en el primer borrador de resolución.

Hubo varias alegaciones en un sentido y en otro. Como consecuencia de ellas, el siguiente borrador limitó la recomendación del ICB a dos casos. Uno de ellos es la sordera causada por la meningitis. El motivo es que esta enfermedad suele provocar una osificación de ambas cócleas en poco tiempo, de modo que si el primer implante fallara y no resultara posible reimplantar el mismo oído, probablemente ya sería demasiado tarde para implantar el otro. El otro caso es el de la sordoceguera. Para las personas que no pueden ver es importante detectar el origen del sonido, lo cual resulta mucho más difícil con un solo implante por no tener audición en estéreo.

Esta restricción en las recomendaciones del segundo implante provocó la indignación de las asociaciones de otorrinolaringólogos, las de audiólogos y las de pacientes y las quejas de los fabricantes. Hubo una nueva revisión y finalmente, en enero de 2009, el NICE publicó la guía que recomendaba el ICB simultáneo (es decir, poniendo los dos implantes en la misma operación quirúrgica) para todos los niños a los que se les diagnosticara una sordera bilateral severa o profunda a partir de ese momento. Por motivos de equidad se admitió también la posibilidad de poner un segundo implante a los niños que lo habrían recibido si sea guía se hubiera aprobado unos años antes; pero teniendo en cuenta que la efectividad del

ICB secuencial decrece a medida que aumenta el intervalo entre ambas implantaciones, la decisión se dejaba en manos de los expertos de cada centro.¹⁰

Se pueden encontrar más detalles sobre la controvertida elaboración de esta guía en [Raine et al., 2010] y en la página web que describe la historia del proyecto.¹¹

Tras la aprobación del ICB por el NICE, el organismo de mayor prestigio internacional en evaluación de tecnologías sanitarias por el rigor y la transparencia con que realiza sus análisis, otros países han decidido incluir el doble implante en sus sistemas públicos de salud. A esta decisión han contribuido también los estudios más recientes, que han confirmado que el ICB es claramente coste-efectivo en niños y probablemente también en adultos, como ya hemos explicado.

b) El ICB en otros países de Europa

Hoy en día el ICB está cubierto por la sanidad pública de casi todos los países de Europa occidental, con la posible excepción de Portugal y Grecia. Algunos de ellos lo han aprobado recientemente. Por ejemplo, en un mensaje personal del 17/07/2013, Marloes Sparreboom, de la Radboud University Nijmegen, en Holanda, nos comentó:

Afortunadamente ahora más evidencia en la literatura que demuestra que la implantación coclear bilateral es beneficiosa, aunque el nivel de evidencia aún es bajo. [Se refiere, a nuestro juicio, a que aún existen muy pocos ensayos clínicos aleatorizados.] Después de que realizáramos nuestra revisión sistemática, el Dutch Health Care Insurance Board (CVZ) no estaba [aún] convencido por la evidencia y por los expertos en el área. Tras la publicación de mi grupo [Sparreboom et al. 2011] y la publicación belga de Boons et al. [2012], el CVZ quedó convencido. En este momento, la implantación coclear bilateral aún no es una intervención estándar, pero es reembolsada para niños menores de 5 años.

Unos meses más tarde, en diciembre de 2013, el gobierno de Irlanda aprobó la cobertura del ICB en sistema nacional de salud, asignando una dotación de 3,2 millones de euros para cubrir 50 implantes simultáneos y 50 consecutivos en 2014 para los niños que más lo necesitaban. Las operaciones quirúrgicas se iniciaron en julio de ese año. Este logro se debió en gran medida a las campañas de presión realizadas por las asociaciones *Our New Ear* y *Irish Deaf Kids*.¹²

En cuanto a España, más adelante comentaremos la situación actual, analizando en detalle la orden ministerial de julio de 2015, que incluyó la cobertura del ICB para niños y adultos en el sistema público de salud.

c) El ICB en Estados Unidos

También en Estados Unidos el ICB es cada vez más común. Ya hemos mencionado el estudio encargado por la Washington State Health Care Agency a la empresa Hayes Inc., que llevó a la aprobación del ICB en niños y adultos en dicho estado.¹³ Dakota del Sur financia un programa que proporciona el segundo implante a los niños que ya tienen uno. El sistema Medicare, que proporciona asistencia sanitaria a los jubilados, lo cubre desde hace pocos años. El sistema Medicaid, que atiende a las personas que carecen de seguro médico y de recursos económicos, cubre el implante bilateral para niños y jóvenes menores de 21 años

¹⁰ www.nice.org.uk/nicemedia/pdf/TA166Guidancev2.pdf

¹¹ www.nice.org.uk/guidance/index.jsp?action=byId&o=11726&history=t

¹² En mayo de 2014 la presidenta de *Our New Ears*, Lorraine Murphy, escribió a Javier Díez, profesor de la UNED para darle las gracias por la información que les había enviado, la cual les había ayudado a reforzar los argumentos a favor del ICB que enviaron a las autoridades irlandesas.

¹³ http://www.hca.wa.gov/hta/Documents/ci_report_final_041713.pdf.

en varios estados. Dakota del Sur financia un programa que proporciona el segundo implante a los niños que ya tienen uno.

En cuanto a las compañías privadas, el estado de Oregón decretó que todas las pólizas de seguro que cubren el implante coclear deben ofrecer también el implante bilateral. Varias compañías, como Aetna, Anthem, Fallon, GroupHealth y Regence Group lo cubren en todos los estados, incluso para adultos. Según el Dr. John Vaughn,¹⁴

Anthem (el consorcio que agrupa a Blue Cross y Blue Shield) ha aprobado los implantes cocleares bilaterales. Probablemente una de las razones de esta decisión es que una mayoría abrumadora de las apelaciones judiciales relativas a los implantes cocleares bilaterales se han fallado a favor del paciente. Es muy posible que a ellos les resulte mucho más barato proporcionar los implantes bilaterales en primera instancia que proporcionarlos tras perder un largo pleito.”

d) El ICB en otros continentes

En el resto del mundo también el ICB pediátrico es cada vez más frecuente. En Argentina está cubierto desde 2008. En Corea del Sur desde 2009 para niños de hasta 14 años. Australia, Canadá, Malasia y Singapur lo aprobaron en los años siguientes. En 2014 fue aprobado en Brasil y Nueva Zelanda. En un comunicado de prensa el Ministro de Sanidad neozelandés afirmaba:¹⁵

Según la política actual, los niños con pérdida auditiva de severa a profunda en ambos oídos reciben un único implante coclear financiado [por la sanidad pública]. El nuevo programa de financiación significará que a partir del 1 de julio de 2014 esos niños recibirán dos implantes.

El implante unilateral ha sido el tratamiento estándar para los niños con pérdida auditiva profunda. La práctica óptima internacional ha cambiado y el Ministerio de Sanidad ha actualizado su política consecuentemente.

Se han reservado \$2,1 millones de dólares [neozelandeses] para financiar un segundo implante para niños menores de 6 años que ya han recibido un implante a través del programa coclear.

Algunas familias han financiado ellas mismas el segundo implante para sus hijos. Dotaremos a esos niños de servicios gratuitos de seguimiento, tales como reparaciones, sustitución de los procesadores y baterías de repuesto.

2. El implante coclear bilateral en España

En la segunda parte de este documento vamos a analizar actual de la implantación bilateral en España. Lo primero que llama la atención es la gran variabilidad de cobertura en las distintas autonomías, como veremos en la sección 2.2. Pero para entender —hasta cierto punto— dicha variabilidad es necesario recordar los primeros estudios que las agencias de evaluación de tecnologías sanitarias realizaron en nuestro país.

¹⁴ <http://www.hearinglossweb.com/tech/ci/bilat/vaughn.htm>.

¹⁵ <https://www.national.org.nz/news/news/media-releases/detail/2014/04/28/budget-2014-two-funded-cochlear-implants-for-children>.

2.1. Estudios de coste-efectividad del ICB en España

2.1.1. Estudios de las agencias de evaluación españolas

En la mayor parte de los países existe una única agencia o instituto para la evaluación de tecnologías sanitarias. En España tenemos un organismo nacional y varios autonómicos, que hasta hace pocos años no estaban coordinados de forma oficial. El primer análisis sobre la relación de coste-efectividad del ICB apareció en el informe de la Agencia (nacional) de Evaluación de Tecnologías Sanitarias [AETS, 2003]. En 2007 dos de las agencias autonómicas realizaron de forma independiente sendas evaluaciones del ICB, incluyendo cada una de ellas consideraciones de coste-efectividad.

a) *Estudio de la Agencia de Evaluación de Tecnologías Sanitarias*

El estudio de esta agencia sobre el implante coclear [AETS, 2003] sólo se cita una referencia sobre el coste-efectividad del ICB: el análisis del trabajo de Summerfield et al. [2002] —el único disponible en aquel momento, como puede verse en la tabla 1— del cual se dice en la pág. 43:

El coste-utilidad resultó 3-4 veces superior para el implante bilateral frente al unilateral. El segundo implante parece menos coste-efectivo que el primero, pero, en comparación con otras intervenciones cubiertas por el sistema de salud de EE.UU., sí es coste-competitivo.

(Llama la atención la referencia a EE. UU. a pesar de que el estudio analizado se refiere a Inglaterra. Probablemente sea porque el umbral de coste-efectividad es mucho mayor en aquel país que en Reino Unido.)

En las conclusiones del estudio la AETS recomienda el IC, pero sin especificar si se refiere también al bilateral o sólo al unilateral.

b) *Estudio de la Comunidad de Madrid*

Cuatro años más tarde la Agencia Laín Entralgo, de la Comunidad de Madrid, realizó un estudio sobre el ICB pediátrico en España [L-Pedraza Gómez et al., 2007]. Uno de los resultados más sorprendentes del trabajo es la gran variabilidad de cobertura en las diferentes comunidades autónomas, como veremos en la sección 2.2. También realizó un análisis de coste-efectividad en niños [L-Pedraza Gómez et al., 2007], tomando como incremento de la calidad de vida el valor 0,031 obtenido por Summerfield et al. [2002] para adultos. Para la estimación del coste se utilizaron datos españoles, aportados por la Asociación de Implantados Cocleares de España (AICE). La Agencia Laín Entralgo concluyó que la RCEI era de 44.199 €/AVAC para el ICB pediátrico simultáneo y 56.640 para el consecutivo, y por tanto desaconsejó su uso —ni siquiera se menciona su conveniencia en los casos de meningitis o sordoceguera— aunque reconoció la gran incertidumbre existente y recomendó la realización de nuevos estudios.

En 2011 la misma agencia realizó un nuevo estudio, al que tuvimos acceso por estar colaborando con ella en otros proyectos de investigación. En él se mencionaban la recomendación del NICE de cubrir el ICB pediátrico y el estudio en que Summerfield et al. [2010] concluyen que el ICB es coste-efectivo.¹⁶ Sin embargo, la incertidumbre inherente a los modelos de ambos estudios impidió que los evaluadores de la agencia llegaran a recomendar el segundo implante; suponemos que la crisis económica que afectaba a nuestro país también

¹⁶ En cambio, no se citó el estudio de Bichey y Miyamoto [2008], que había concluido que el ICB es claramente coste-efectivo en niños y adultos.

influyó en ello. Al final, las autoridades sanitarias de la Comunidad de Madrid decidieron no publicar el estudio.

La Agencia Laín Entralgo fue clausurada a finales de 2012 por los recortes económicos, de modo que ya no tuvo ocasión de elaborar un informe más reciente sobre el tema.

c) Estudio de la agencia catalana

En ese mismo año 2007, la Agència d'Informació, Avaluació i Qualitat en Salut de Catalunya realizó otro estudio, que fue revisado cuatro años más tarde [Estrada et al., 2011].¹⁷

El informe recomendó el ICB **simultáneo** para los casos en que la hipoacusia se debe a una infección (meningitis, citomegalovirus...) y aquéllos en que va asociada a pérdida de visión (por ejemplo, en el síndrome de Usher).

A continuación, tras mencionar la incertidumbre existente en ese momento, el informe recomendó el ICB **secuencial** para cinco situaciones, que citamos literalmente:

- Malformaciones del oído interno con poco resultado funcional unilateral.
- Trastorno del déficit de atención e hiperactividad (TDAH) u otros trastornos de conducta asociados a hipoacusia.
- Cuando la evolución con el primer implante es satisfactoria pero tórpida con buena implicación familiar.
- Cuando se presenta una nueva patología que puede interferir los resultados del primer implante.
- Síndrome de Pendred u otros hereditarios que se asocian a pérdida progresiva bilateral.

En los demás casos, se recomienda poner un solo implante “dada la situación de recursos limitados **para esta intervención** en el sistema sanitario público” (énfasis añadido).¹⁸

De nuevo llama la atención que no se recomiende explícitamente el ICB para los casos de meningitis o sordoceguera. También resulta sorprendente que, a pesar de que la versión publicada en internet tiene una fecha reciente [Estrada, 2011], no menciona ninguno que ya en ese momento indicaban que el ICB es coste-efectivo o estaba cerca de serlo [Bichey y Miyamoto, 2008; Bond et al., 2007, 2009a; NICE, 2009; Summerfield et al., 2010. Ello parece indicar que la versión de 2011 no introdujo cambios significativos frente a la original, de 2007.

d) Impacto de estos estudios

Una de las diferencias del NICE frente a las agencias de nuestro país es que las recomendaciones del primero son vinculantes para el sistema de salud de Inglaterra y Gales, mientras que en España las recomendaciones de las agencias regionales ni siquiera se aplican necesariamente en su propia comunidad autónoma; obviamente, tampoco las recomendaciones de la agencia nacional son vinculantes para las autonomías. Peor aún, a veces ni siquiera los propios profesionales de la sanidad de la especialidad correspondiente llegan a conocer las recomendaciones de sus propias agencias. De hecho, entre los otorrinolaringólogos y los gerentes de hospitales con los que hemos hablado ninguno conocía los informes sobre el ICB elaborados por las agencias de sus propias comunidades autónomas; obviamen-

¹⁷ Al parecer la revisión de 2011 no introdujo ningún cambio significativo en el informe, a pesar de que el estudio PenTAG encargado por el NICE se había publicado dos años antes [Bond et al., 2009].

¹⁸ Es sorprendente que este informe recomiende el implante secuencial (es decir, consecutivo) a pesar de ser más caro que el simultáneo. También llama la atención que en vez de determinar la financiación del IC en función de su coste y su efectividad, este informe da por supuesto que “los recursos para esta intervención” se han asignado previamente y sólo se plantea cómo repartirlos entre quienes los necesitan.

te, se trata de una muestra muy pequeña y no representativa del conjunto, pero sí nos parece un dato digno de tener en cuenta.

De hecho, a pesar de las recomendaciones de las agencias madrileña y catalana en contra del ICB, muchos niños han recibido dos implantes en estas autonomías. En este caso, podemos decir que “afortunadamente” sus médicos y los gerentes de sus hospitales no conocían tales recomendaciones. Sin embargo, otros muchos niños de las mismas comunidades han recibido o están recibiendo uno solo. Ante esta situación, cabe preguntarse si no habría sido más productivo invertir el dinero de esos estudios en proporcionar la mejor atención sanitaria a los pacientes que lo necesitan.

2.1.2. Estudio de la UNED

a) El proyecto FIS PI13/02446

En 2012 un grupo de investigadores de la UNED presentó al Fondo de Investigaciones Sanitarias (FIS) un proyecto para estudiar el coste-efectividad del ICB en España, con el Prof. Francisco Javier Díez como “investigador principal”. Este proyecto incluía la medida de la calidad de vida asociada al ICB, para lo cual se iban a reclutar voluntarios invitando a los 260.000 alumnos de la UNED; también estaba previsto invitar a participar a cientos de usuarios de ICB, con la colaboración de FIAPAS y AICE. Con éste y otros datos estaba previsto construir un modelo de Markov utilizando técnicas novedosas desarrolladas en el Dpto. de Inteligencia Artificial de la UNED. A pesar de que el equipo de investigación contaba con la participación del Prof. Quentin Summerfield, el principal experto en la materia, y del Dr. Paul Govaerts, uno de los investigadores más prestigiosos de Europa sobre el implante coclear, el proyecto fue rechazado por detalles menores.

El mismo proyecto, ligeramente revisado, fue presentado al FIS en 2013, con un presupuesto de 83.230 € (incluidos los costes indirectos), muy reducido si se compara con el de proyectos de similar magnitud del Reino Unido y de otros países. Esta vez el proyecto fue aprobado, pero con una dotación de 19.265,00 € para costes directos, es decir, el 28% de la cantidad solicitada. Con esta cantidad el proyecto era claramente inviable.

Afortunadamente, en septiembre de 2014 este grupo recibió de MED-EL, uno de los fabricantes de ICs, una dotación que permitió contratar a dos investigadores a tiempo completo durante un año: D. Miguel Ángel Artaso Landa y D. Jorge Pérez Martín.

b) Desarrollo del proyecto

Los investigadores de la UNED teníamos motivos para pensar que los estudios de Summerfield et al. habían subestimado el incremento en calidad de vida. Por ello decidieron llevar a cabo su propio estudio, utilizando diferentes métodos y varias formas de plantear las preguntas dentro de cada método.

Para ello elaboramos una encuesta, cuya versión de demostración fue publicada en inglés en internet (aún está disponible en www.cisiad.uned.es/cochlear-implant/demo-survey) para recibir la realimentación de expertos en medición de calidad de vida, como Roberta Buhagiar y Koonal Shah. Después invitamos por correo electrónico a 3.465 estudiantes de la Escuela de Informática de la UNED a rellenar la encuesta (en español). Respondieron 583, un número de participantes mucho mayor que en la mayor parte de estudios análogos.

Luego realizamos una segunda encuesta entre usuarios de ICs, con el fin de comparar sus estimaciones de la calidad de vida con las de la población general, representada por los estudiantes de informática. Otro de los objetivos de esta encuesta era estimar los costes de mantenimiento del IC en nuestro país. Gracias a la colaboración de varias asociaciones rela-

cionadas con la pérdida auditiva, que difundieron la noticia, respondieron la encuesta 273 personas, unas como usuarias y otras como padres o madres de niños implantados.

Con estos datos construimos realizamos el análisis de coste-efectividad, utilizando un nuevo tipo de modelo matemático, los diagramas de influencia markovianos, propuesto recientemente por nuestro grupo [Díez et al., 2017] e implementado en una herramienta de software libre, OpenMarkov, también de nuestro grupo, que ya ha sido utilizada en universidades, centros de investigación y empresas de más de 25 países.¹⁹

c) Resultados obtenidos

La primera encuesta confirmó nuestra sospecha de que la forma en que se habían realizado los estudios anteriores de Summerfield et al. [2002, 2003, 2006, 2010] habían subestimado el incremento de calidad de vida que aporta el ICB. Nuestro estudio demostró que la forma de plantear las preguntas en esos estudios no había tenido en cuenta sesgos psicológicos bien conocidos, como la “aversión al riesgo” y “la trampa del status quo”.

Como hemos dicho en la sección 1.2.2.b, el estudio encargado por el NICE al grupo PenTAG [Bond et al., 2007, 2009a] concluyó que si el incremento en calidad de vida aportado por el segundo implante fuera de 0’055 en vez del 0’030 obtenido por Summerfield et al. [2006], el ICB sí sería coste-efectivo. Según los datos de nuestra encuesta, este valor se encuentra entre 0’101 y 0’242, dependiendo del método aplicado, lo cual concuerda mejor con los estudios más recientes. De hecho, otro trabajo dirigido por el propio Summerfield [et al., 2010] obtuvo valores de 0’11 y 0’13, dependiendo del método escogido, y dos estudios de Rosie Lovett, estudiante de doctorado del mismo profesor, dieron valores de 0’33 y 0’22, respectivamente.

Al introducir en nuestro modelo de Markov el valor 0’101 (el más bajo de los resultados de nuestra encuesta), la RCEI del ICB para niños de un año de edad aquejados de sordera severa o profunda queda en 10.323 €/AVAC para la implantación simultánea y 11.733 €/AVAC para la secuencial. Teniendo en cuenta que el umbral aceptado por consenso entre los economistas de la salud españoles se sitúa en 30.000 €/AVAC, el ICB resulta ser claramente coste-efectivo en nuestro país. Los análisis de sensibilidad han demostrado que, a pesar de la incertidumbre asociada a los parámetros del modelo, la probabilidad de que el ICB sea coste-efectivo sigue siendo prácticamente el 100%.

Más aún, en caso de que el sistema nacional de sanidad asumiera los costes de mantenimiento del IC (reparaciones, cables, baterías, etc., que en otros países están cubiertos por la sanidad pública, pero en España tenemos que pagar los usuarios o sus familias), la RCEI sería de 15.035 €/AVAC para el ICB simultáneo y 16.446 €/AVAC para el secuencial.

d) Publicación de los resultados

Nuestro estudio ha sido publicado muy recientemente con el título “Cost-effectiveness of pediatric bilateral cochlear implantation in Spain” [Pérez-Martín et al., 2017] en la revista *The Laryngoscope*, una de las más prestigiosas de su especialidad, editada por la American Laryngological, Rhinological and Otological Society.

El modelo de Markov empleado para el análisis se encuentra disponible en internet, para que otros investigadores puedan examinarlo y reproducir sus resultados. A pesar de que esto debería ser lo habitual, ya que la transparencia y la posibilidad de trabajar a partir de los resultados de otros investigadores son dos de los pilares básicos de la actividad científica, son muy pocos los estudios de coste-efectividad cuyos modelos se publican abiertamente. En cambio, el Centro de Investigación sobre Sistemas Inteligentes de Ayuda a la Decisión

¹⁹ www.openmarkov.org.

(CISIAD)²⁰ de la UNED sigue la política de publicar todos sus modelos.²¹ En este caso, en que la investigación ha sido parcialmente financiada por un fabricante de ICs, la transparencia es esencial para que nadie pueda poner en duda la objetividad con que se ha realizado el estudio.

2.2. Cobertura del ICB en España

2.2.1. Variabilidad de la cobertura

Lo que más llama la atención en la práctica clínica de nuestro país es la gran variabilidad territorial en la aplicación del ICB. El estudio de la Agencia Laín Entralgo ya mencionado [L-Pedraza Gómez et al., 2007, tabla 6] observó que la tasa de ICB por cada 100,000 habitantes el año anterior había variado desde el 0'05 de Castilla-La Mancha y el 0'08 de Andalucía hasta el 2'30 de Canarias y el 3'32 de Navarra; es decir, en 2006 **la tasa fue 66 veces mayor** en una comunidad autónoma que en otra.

Desde esa fecha el ICB se ha extendido notablemente en todas (o casi todas) las regiones de España, pero sigue habiendo grandes desigualdades entre unas regiones y otras. A falta de datos oficiales, sólo tenemos la información procedente de conversaciones con expertos y usuarios. Según nuestros datos Navarra es la única comunidad en la que todos los niños que necesitan el ICB lo reciben. En Canarias y Castilla-León lo habitual es poner dos. Hasta hace poco tiempo, la política en las comunidades de Madrid, Cataluña y Valencia lo habitual era poner un implante a cada niño, y sólo cuando había implantes de sobra (en la sanidad pública española los ICs suelen comprarse por lotes, en concursos públicos) ponían el segundo, aunque algunos médicos de estas comunidades nos comentaron que estaban teniendo presiones de los gerentes de sus hospitales para no poner dos, salvo en casos excepcionales. Parece ser que últimamente en la Comunidad de Madrid la mayor parte de los niños que lo necesitan reciben dos implantes. En cambio, en otras regiones —que no vamos a nombrar, porque nuestra información puede estar sesgada y obsoleta— el criterio es poner un solo implante, salvo casos excepcionales. Hay incluso una comunidad autónoma —y esto lo sabemos con certeza— en que al menos un hospital concertado pone el primer implante con cargo a la sanidad pública y ofrece a los padres la posibilidad de que paguen ellos mismos el segundo, con un coste de unos 30.000 €, a pesar de que hace ya más de dos años una orden ministerial incluyó la cobertura del ICB en el Sistema Nacional de Salud, como veremos enseguida..

Pero no sólo hay variaciones entre comunidades autónomas. Incluso en las ciudades donde hay varios centros implantadores, la probabilidad de que un niño reciba un ICB depende significativamente del hospital al que haya sido referido el niño. Es lo que en la literatura especializada se conoce como “la lotería del código postal”.

Otro factor aleatorio es el momento en que el niño llega al hospital. Como ejemplo ilustrativo podemos mencionar el caso de una niña y un niño que nacieron casi a la vez en la misma ciudad española. La niña fue referida enseguida a un hospital, donde recibió dos implantes. El niño pasó por un hospital que no tenía experiencia en sordera neonatal, lo cual retrasó su llegada al hospital implantador. Justo en aquel momento empezaban a notarse los recortes de la crisis, por lo que el médico, que inicialmente había decidido ponerle dos implantes, posteriormente se negó a ponerle el segundo.

²⁰ www.cisiad.uned.es.

²¹ Los modelos están en la página www.probmodelxml.org/networks.

En cambio, este niño tuvo a su favor otro de los factores que influyen en la probabilidad de conseguir el implante bilateral: la insistencia de los padres. Los suyos presionaron al hospital y además tuvieron la fortuna de encontrar el apoyo de un alto cargo de la Consejería de Sanidad de su comunidad autónoma. La batalla fue larga, pero al final el niño consiguió lo mismo que la niña —nacida a la vez que él— había obtenido sin ningún esfuerzo hacía ya varios meses. (Ese niño es mi hijo, Juan Andrés.)

Otro ejemplo anecdótico pero ilustrativo de la falta de equidad, transparencia y eficiencia en el SNS, es el de una señora de 60 años que recibió dos implantes porque insistió en pedirlo y el médico tenía uno de sobra en ese momento. Probablemente el doble implante fue beneficioso para ella, pero sin duda habría sido más útil para un niño recién nacido que necesitara aprender el lenguaje e integrarse en la escuela y que probablemente lo habría aprovechado durante más tiempo.

2.2.2. Incumplimiento de la legislación vigente

Esta situación, claramente injusta, incumple gravemente la propia legislación española. Nos limitaremos a recordar lo que dice el Real Decreto-ley 16/2012 *de medidas urgentes para garantizar la sostenibilidad del Sistema Nacional de Salud y mejorar la calidad y seguridad de sus prestaciones*.²² En él destaca —al menos como declaración de intenciones— el énfasis en tres aspectos que ya estaban presentes en mayor o menor medida en las normas anteriores: la equidad (con especial insistencia en la cohesión territorial), la transparencia y la eficiencia.

a) *Sobre cohesión y equidad*

Este real decreto-ley habla en numerosas ocasiones sobre cohesión, homogeneidad y equidad. Algunos de los párrafos que cita son los siguientes (énfasis añadido):

El Sistema Nacional de Salud viene sufriendo situaciones de descoordinación entre los servicios de salud autonómicos lo que se traduce en la aparición de **considerables diferencias en las prestaciones y en los servicios a los que acceden los pacientes en las distintas comunidades autónomas**. La **cohesión territorial** y la **equidad** se han visto puestas en cuestión con determinadas medidas adoptadas durante estos últimos años.

Las comunidades autónomas, en el marco de sus respectivas competencias, han extendido el derecho de cobertura sanitaria de forma muy diversa [...] abocando [al Sistema Nacional de Salud] a **procedimientos de infracción** por parte de **la Comisión Europea** que **reclama la aplicación efectiva del principio de igualdad de trato**.

Son necesarias reformas que permitan [...] ganar en **cohesión territorial** [...] y, sobre todo, garantizar la **igualdad de trato en todo el territorio nacional** con una cartera básica de servicios comunes.

b) *Sobre la transparencia*

La transparencia es otro de los términos que se repite con frecuencia en el real decreto-ley. Dos de las cinco referencias a este concepto son las siguientes:

En España [...] coexiste un entramado jurídico-administrativo que reduce la **transparencia** y dificulta la ejecución, disminuyendo, en consecuencia, la eficiencia.

Esta situación tiene que ser reconducida hacia la homogeneidad entre los servicios de salud, así como hacia la **claridad, transparencia e información a la ciudadanía** para que pueda conocer con exactitud el alcance de la cobertura de sus derechos.

²² www.boe.es/buscar/act.php?id=BOE-A-2012-5403.

c) *Sobre la eficiencia*

Otra de las preocupaciones principales de dicho real decreto-ley es la relación entre el coste económico y los beneficios: el texto de ley habla 17 veces de la eficiencia, empezando por el preámbulo, donde se recuerda “la obligación que tienen los poderes públicos de gestionar de la manera más eficiente las capacidades del sistema” y se reconoce la “falta de rigor y énfasis en la eficiencia (sic) del sistema”.

Para poner remedio a esta situación “resulta necesario, más que nunca, que las decisiones de financiación estén presididas por los criterios de **evidencia científica** de **coste-efectividad** y por **la evaluación económica**, con consideración del impacto presupuestario”. El término “coste-efectividad” aparece 5 veces más en el texto de la ley.

También se dice que al elaborar el contenido de **la cartera común** de servicios del SNS “se tendrá en cuenta la eficacia, **eficiencia**, **efectividad**, seguridad y utilidad terapéuticas, así como las ventajas y alternativas asistenciales, el cuidado de grupos menos protegidos o de riesgo y las necesidades sociales, así como su **impacto económico** y organizativo.”

2.3. La Orden SSI/1356/2015

2.3.1. El Proyecto de Orden

El 18 de diciembre de 2013 el Consejo Interterritorial del Sistema Nacional de Salud, presidido por la ministra Ana Mato, aprobó el “Proyecto de orden [...] por el que se establece la Cartera de Servicios Comunes del Sistema Nacional de Salud”. Las asociaciones que defienden los intereses de los implantados cocleares acogieron la noticia con optimismo, pues se presentaba la posibilidad de incluir en la cartera el ICB.

En julio de 2014 el Ministerio de Sanidad, Servicios Sociales e Igualdad publicó el Proyecto de orden. (Al parecer, el documento ya no está disponible en la web del Ministerio.) En el preámbulo se declaraba el objetivo de **actualizar las indicaciones de los implantes quirúrgicos** “a la luz de la evidencia científica disponible y contribuyendo a mantener la cohesión en el Sistema Nacional de Salud, garantizando unas prestaciones más eficaces y seguras y una mayor equidad en el acceso para todos los ciudadanos, evitando diferencias entre las prestaciones que reciban los usuarios en cada una de las comunidades autónomas, por lo que se logrará una mayor homogeneidad y una racionalización del gasto sanitario”.

Teniendo en cuenta la situación que acabamos de describir, con graves diferencias en la aplicación del ICB en las distintas comunidades autónomas, resultaba evidente que la orden ministerial debía dar criterios claros para evitar la variabilidad geográfica. Sin embargo, el anexo I no hacía ninguna referencia al ICB. Se limitaba a decir lo siguiente:

OR 1 IMPLANTES AUDITIVOS ACTIVOS de acuerdo con los protocolos de cada administración sanitaria competente (incluida la renovación de los componentes externos: procesador externo, micrófono y antena, en caso de mal funcionamiento, cuando no sea debido a mal trato por parte del usuario, en las condiciones y con la periodicidad que al efecto se determinen por la administración sanitaria competente en la gestión de la prestación).

OR 1 0 Implante de conducción ósea

OR 1 0 0 Percutáneo

OR 1 0 1 Transcutáneo, valorando en el caso de niños el adecuado espesor óseo

OR 1 1 Implante activo de oído medio

- OR 1 2 Implante coclear
- OR 1 3 Implante de tronco cerebral

2.3.2. Alegaciones

Las federaciones FIAPAS y AICE, que llevaban años solicitando que se recogiera por ley la cobertura del ICB en la sanidad pública, al menos para los menores de edad, realizaron una intensa campaña de contactos con los responsables del Ministerio de Sanidad para lograr su objetivo.

Por su parte, los investigadores de la UNED estaban llevando a cabo el proyecto de análisis de coste-efectividad del ICB ya mencionado. Aún no tenían los resultados que hemos detallado aquí, pero ya habían hecho una revisión exhaustiva de la literatura sobre el tema. Con esta información redactaron unas alegaciones,²³ que fueron presentadas al Ministerio por las asociaciones Clave y t-oigo.²⁴

En ellas se proponía que el apartado OR.1.2 del anexo I se redactara así:

Implante coclear. Debe realizarse implantación bilateral en los pacientes que sufren pérdida auditiva bilateral severa o profunda y (1) son menores de 18 años, (2) han sufrido meningitis o (3) sufren ceguera. La implantación bilateral deber realizarse simultáneamente, salvo que haya razones clínicas en contra. Las personas que tienen un implante en el momento de la publicación de esta ley y cumplen las condiciones anteriores podrán recibir otro implante si se espera obtener un beneficio clínico similar al de la implantación simultánea. En los demás casos debe realizarse implantación unilateral, salvo excepciones debidamente justificadas.

En el apartado 3.4.2 de dichas alegaciones puede verse la justificación detallada de esta propuesta. También puede verse el análisis de impacto presupuestario, que es, según el Real Decreto-ley 16/2012 ya citado, uno de los criterios que presidir las decisiones de financiación en el sistema nacional de sanidad.

Estas alegaciones no tuvieron respuesta, y según las noticias que nos llegaron, varios borradores posteriores seguían sin mencionar la cobertura del ICB.

2.3.3. Análisis de la Orden publicada

A pesar de eso, la unión de todas estas federaciones y asociaciones tuvo efecto, y al final el lograron su objetivo. La Orden SSI/1356/2015, de 2 de julio, publicada en el BOE del 8 de julio, al detallar las intervenciones incluidas en la Cartera Común, dice así:

OR 1 2 Implante coclear, incluyendo la implantación bilateral tras valoración individualizada en niños y en adultos. Se considerarán especialmente las siguientes situaciones:

- pacientes con hipoacusia postinfecciosa (como posmeningitis o poscitomegalovirus) o asociada a otras discapacidades (ceguera, déficits multisensoriales o Síndrome de Usher)
- pacientes con resultados pobres tras el primer implante que puedan obtener ganancias con el segundo por presentar otras alteraciones (malformaciones del oído interno con poco resultado funcional unilateral, trastornos de conducta asociados a hipoacusia), o una patología que pueda interferir con los resultados del primer im-

²³ www.ia.uned.es/~fjdiez/implante-coclear/alegaciones-implante-coclear.pdf.

²⁴ www.oiresclave.org, www.t-oigo.com.

plante coclear (Síndrome de Pendred u otros síndromes hereditarios que se asocian a pérdida progresiva bilateral).

a) Aspectos positivos

Lo más positivo de la orden es que incluye la cobertura del ICB, que era el objetivo principal que habían planteado las asociaciones y federaciones. En realidad, la orden fue mucho más allá, al abarcar no sólo a los niños, sino también a los adultos. España se convierte así, según nuestros conocimientos, en el primer país del mundo que incluye por ley el ICB universal. Para nosotros fue una gran sorpresa, pues en las alegaciones redactadas en la UNED sólo se había aportado evidencia clara de que el ICB para los niños. En el caso de los adultos, no hay consenso entre los expertos y los estudios más recientes concluyen, como era de esperar, que la razón de coste-efectividad depende de la esperanza de vida del paciente; véase especialmente [Smulders et al., 2016].

b) Aspectos dudosos

A nuestro juicio, el texto debería haber quedado así: “**Implante coclear, incluyendo la implantación bilateral, tras valoración individualizada en niños y en adultos**”. La segunda coma debería estar, porque la valoración individualizada es tan necesaria para la implantación bilateral como para la unilateral. La ausencia de esa coma afecta al sentido de la frase, pues podría hacer pensar que dicha valoración sólo es necesaria para el ICB. Es como si la implantación unilateral fuese obvia en todos los casos, mientras que la bilateral quedaría a la discreción de cada médico o cada quipo implantador. En realidad, tanto una como otra resultan indicadas en unos casos y no en otros, y a la vez hay muchas situaciones intermedias en que la decisión no es obvia.

En ese sentido parece positivo a primera vista que la Orden enumere algunos casos en que deben ponerse necesariamente dos implantes. En realidad, el texto no dice que deba ser así *necesariamente*, pero dado el consenso que existe entre los expertos, ampliamente recogido en la literatura médica, parece ser que esos casos ya se estaban cubriendo en todas las comunidades autónomas, por lo que la Orden podría haberlos omitido.

Al contrario, la enumeración de varios casos que “**se considerarán especialmente**” podría ser contraproducente, pues en el contexto de las restricciones económicas actuales, podría usarse para denegar el ICB en los demás casos.

Otro aspecto negativo es que, a diferencia de lo que ocurrió en Reino Unido, la ley española no asegura que los niños que ya tienen un implante vayan a recibir el segundo por motivos de equidad (cf. sec. 1.1.3.a). También debería reconocer explícitamente que hay muchas familias que han pagado de sus ahorros —o pidiendo un préstamo, porque no tenían ahorros— el segundo implante de sus hijos. Actualmente, estos implantes “extra” no están cubiertos por la sanidad pública, de modo que las familias tienen que cubrir actualmente todos los gastos de la programación, la renovación de los componentes externos e incluso la cirugía de explantación y reimplantación en caso de que fallara la parte interna tras los 10 años de garantía. Resulta claramente injusto que estas familias no tengan cubiertos los gastos del segundo implante, a pesar de haber desembolsado una importante suma de dinero con gran esfuerzo personal, mientras que otras familias de su mismo país e incluso de su misma ciudad han recibido gratis dos implantes y además ambos están cubiertos por la sanidad pública. Parece obvio que la ley española debería incluir una cláusula análoga a la de Nueva Zelanda, que, como vimos en la sección 1.3.d, dice:

Algunas familias han financiado ellas mismas el segundo implante para sus hijos. Dotaremos a esos niños de servicios gratuitos de seguimiento, tales como reparaciones, sustitución de los procesadores y baterías de repuesto.

c) Conclusión del análisis

En resumen, consideramos que esta ley supone un gran avance para las personas que padecen deficiencia auditiva bilateral severa o profunda. Nos gustaría que en su redacción hubiera quedado más claro que todos los niños, adolescentes y adultos jóvenes (e incluso de mediana edad) que pueden obtener beneficio del ICB lo van a recibir, aunque no pertenezcan a ninguno de los grupos “especiales” enumerados en el texto de la ley. Sin embargo, en nuestra opinión la dificultad para hacer que la ley se lleva a la práctica no va a estar en la mención de esos casos particulares, sino en la simple ignorancia de la ley, pues como todas las personas relacionadas con el mundo de la discapacidad conocen de sobra, aunque las leyes estén bien claras, cuesta mucho conseguir que se cumplan.

2.4. Un consejo para usuarios y padres

Teniendo en cuenta lo anterior, nos atrevemos a dar una recomendación a los usuarios que ya tienen un implante y a los que están pendientes de recibir el primero.

2.4.1. Consejo para usuarios ya implantados

Muchos de los usuarios que ya tienen un implante aún están a tiempo de beneficiarse del ICB. La calidad de la audición va a depender de la edad del usuario, de cuándo, cómo y por qué se produjo la sordera, y de cuánto tiempo lleva sin oír. Nuestra sugerencia es que consulte con un médico o un audiólogo especializado en ICs para analizar con la situación con objetividad, sin pecar de pesimismo ni de optimismo injustificado.

Si la respuesta es favorable, debe dirigirse al centro implantador que le corresponda e intentar conseguir una cita con el equipo responsable. En caso de no obtener una respuesta adecuada, puede acudir al Servicio de Atención al Paciente y presentar una reclamación, que podría expresarse más o menos así:

Estimados Sr./Sra. [lo que corresponda]:

Soy usuario de un implante coclear... [resumen de la historia clínica]

Tengo noticia de que la Orden SSI/1356/2015, de 2 de julio, que introdujo modificaciones en la cartera de servicios comunes del Sistema Nacional de Salud, incluye en el Anexo I en el punto OR.1.2 del Anexo I (página 56613 del BOE de 8 de julio de 2015) “la implantación [coclear] bilateral tras valoración individualizada en niños y en adultos.”

Por ello solicito que se me realice dicha valoración, con el fin de evaluar si cumpla los requisitos clínicos para optar a un segundo implante.

En caso de que la solicitud no sea atendida en un tiempo razonable, conviene acudir al Servicio de Atención al Paciente de la comunidad autónoma correspondiente.

En el caso de que una persona no tenga cobertura en la sanidad pública sino en una aseguradora privada (en España los funcionarios pueden escoger esta opción), la situación es similar, pues estas compañías están obligadas por ley a ofrecer las mismas prestaciones que la sanidad pública.

2.4.2. Consejo para quienes esperan su primer implante

Como ya hemos dicho, en algunas comunidades autónomas es frecuente poner sólo un implante por motivos económicos, aunque esté clínicamente recomendado. En el caso de los adultos la implantación no suele ser urgente (salvo en caso de meningitis, por la posible osi-

ficación de la cóclea, ya comentada) y por ello pueden esperar a que la administración pública decida si va a recibir el doble implante o no.

Sin embargo, en el caso de los niños que nacen con sordera bilateral severa o profunda no se puede perder tiempo, porque la plasticidad neuronal necesaria para adquirir el lenguaje hablado disminuye significativamente a partir de los dos años de edad [Gordon and Papsin, 2009; Gordon et al., 2010, 2011]. En ese caso, conviene aceptar el primer implante, que está cubierto en toda España, para que el niño empiece a oír cuanto antes, y a partir de ahí intentar conseguir el segundo.

Una vez que el niño está oyendo ya no hay tanta urgencia, pero tampoco hay que descuidarse, porque como han demostrado Papsin y sus colegas en las referencias citadas, el cerebro, que en el momento de nacer está preparado para atender los dos oídos, si sólo recibe estimulación de un oído se va a reconfigurar para prestarle toda la atención, descuidando el otro; y a partir de cierta edad los cambios son irreversibles.

Por ello, si los padres ven alguna posibilidad de obtener el segundo implante en un tiempo razonable en el mismo hospital, conviene que presenten una solicitud formal, como hemos indicado en el apartado anterior. Si no es así, lo mejor que pueden hacer por si hijo es buscar un hospital privado para que lo reciba cuanto antes; aunque el coste es elevado (cerca de 30.000 €) la inversión merece la pena, porque es para toda la vida. Sin embargo, es muy importante haber presentado previamente ante el hospital y ante la Consejería de Sanidad la solicitud correspondiente, similar a la ya indicada, con el fin de poder reclamar a posteriori todos los gastos del implante y la operación.

También hemos comentado que hay algún un hospital concertado que ofrece la posibilidad de poner los dos implantes simultáneamente, pagando sólo el coste del aparato, que suele rondar los 20.000 €. Como en el caso anterior, conviene aceptar la oferta, para ahorrar tiempo y dinero, pero es importante presentar previamente una solicitud de implantación bilateral, citando la ley y pidiendo por escrito la valoración individualizada que se menciona en ella. De este modo el hospital tendrá que dejar constancia de si la negativa se debe a razones clínicas o sólo a criterios económicos. Además, los padres tendrán la opción de reclamar posteriormente por vía legal a la Consejería de Sanidad el dinero abonado.

Tanto quienes ya tienen un implante como quienes están esperando el primero deben considerar que no sólo están reclamando sus derechos en beneficio propio, sino que todo lo que luchen y lo que consigan va a beneficiar a otras personas que se encuentran en la misma situación y a quienes vienen detrás. No hay que desanimarse aunque haya una derrota tras otra, porque ningún esfuerzo cae en saco roto.

Por último, recomendamos que acudan a las asociaciones que defienden los intereses de las personas con pérdida auditiva. Ellas tienen mucha experiencia en estas lides; sobre todo, conocen muy de cerca la situación su comunidad autónoma y de cada hospital concreto. Si el sistema público de salud le deniega lo que por ley le corresponde, estas asociaciones podrán ayudarle. Si, por el contrario, Vd. tiene éxito en su reclamación, también conviene que se ponga en contacto con ellas, para que transmitan a otros pacientes la experiencia aprendida y para que puedan emplear su caso como referencia para futuras reclamaciones.

3. Conclusión

El ICB presenta numerosas ventajas frente al unilateral; el número de estudios que lo confirman crece continuamente. También hay varios estudios recientes que demuestran que es claramente coste-efectivo en niños y, según algunos de ellos, también en adultos. Por todo

ello, la mayor parte de los países desarrollados cubren el ICB pediátrico y cada vez son más los que ofrecen el segundo implante también a los adultos.

En España vivimos actualmente una falta notoria de equidad y transparencia en el sistema nacional de salud, que es especialmente grave en el caso del ICB. Desde julio de 2015 el doble implante está asegurado por ley, aunque parafraseando el refrán que dice “del dicho al hecho va un trecho”, podemos afirmar que “del BOE a la práctica clínica va un gran trecho”.

¿Qué podemos hacer? A nuestro juicio, lo más importante es estar informados, pues muchas de las personas que podrían beneficiarse del ICB aún no saben que la ley está de su parte. Las asociaciones de personas con deficiencia ya están haciendo una gran labor, asesorando a sus afiliados. Pero todavía hay varios canales que pueden ser útiles. Sería deseable que las asociaciones de otorrinolaringólogos, pediatras, médicos de atención primaria, audiólogos, logopedas, maestros y todos los que por algún motivo tengan contacto con estos usuarios o futuros usuarios de ICs puedan hacerles llegar esta información.

Nuestro objetivo al redactar este documento es precisamente recopilar la información dispersa en la literatura científica, en informes de evaluación de tecnologías sanitarias y en documentos legales, y transmitirla de forma ordenada a los usuarios de ICs y a quienes trabajan con ellos.

La información aquí recogida también puede ser útil a los médicos que desean ofrecer a sus pacientes el ICB pero tienen dificultad para convencer a los gerentes y a los directores médicos del hospital de que aporten los fondos necesarios. De hecho a algunos médicos ya nos han pedido esta información en el pasado. Esperamos que este documento, actualizado tanto como hemos podido, les sea útil para ese objetivo.

En caso de que deseen hacer alguna corrección, crítica o sugerencia sobre este documento, pueden utilizar el [formulario de contacto](#) del [Observatorio del Implante Coclear](#). Muchas gracias por todos sus comentarios.

Si este trabajo sirve para mejorar la calidad de vida de alguna persona con deficiencia auditiva, daremos por bueno todo el esfuerzo invertido.

Agradecimientos

Este documento está basado en las [alegaciones](#) redactadas por [Francisco Javier Díez Vegas](#), profesor de la Universidad Nacional de Educación a Distancia ([UNED](#)) y padre de un niño portador de ICB, que fueron presentadas al Ministerio de Sanidad, Servicios Sociales e Igualdad en septiembre de 2015 por la entidad benéfica británica “[CLAVE](#) Atención a la Deficiencia Auditiva” y la asociación [t-oigo](#).

Muchas de las ideas contenidas en las alegaciones y una buena parte de las referencias bibliográficas proceden de conversaciones mantenidas con diferentes personas: María Aláez (FENIN), Teresa Amat (AICE), Masta Bastarrica (MED-EL, España), Andrea Bravo (MED-EL, Argentina), Mary Bond (University of Exeter, Reino Unido), Caroline Carswell (Irish Deaf Kids, Irlanda), Karl Claxton (University of York, Reino Unido), Joseph Chen (University of Toronto, Canada), Luoise Crathorne (Universidad de Exeter, Reino Unido), Chris Foteff (Cochlear Limited, Australia), Javier García (GAES), Sym Gardiner (2ears2hear, Nueva Zelanda), Paul Govaerts (Otoconsult, Bélgica), Catalina Iglesias (MED-EL, Austria), Carmen Jáudenes (FIAPAS), Rosemary Lovett (NICE, Reino Unido), Victoria Marrero (UNED), Lorraine Murphy (Our New Ears, Irlanda), Richard Miyamoto (Indiana University, EE.UU.), Blake Papsin (Hospital for Sick Children, University of Toronto, Canadá), Johanna Pätzold (MED-EL, EE.UU.), Beatriz Pradel (GAES), Julio Rodrigo (MED-EL, España), Marloes Sparreboom (Radboud University, Holanda), Quentin Summerfield (University of York, Reino Unido) y Joan Zamora (AICE). Algunas de ellas aportaron datos, sugerencias y correcciones, lo cual no implica que aprueben o apoyen íntegramente el contenido de las alegaciones o de este documento.

Bibliografía

- AETS. *Implantes Cocleares: Actualización y Revisión de Estudios de Coste-Efectividad*. Agencia de Evaluación de Tecnologías Sanitarias, Instituto de Salud Carlos III, Ministerio de Sanidad y Consumo, Madrid, 2003.
- Balkany T, Hoffman R, Gantz B, et al. (2008) Position statement on bilateral cochlear implantation. *Otology & Neurotology* 29:107–108.
- Bernal-Delgado E, Campillo-Artero C, García-Armesto S (2014) Oferta sanitaria y crisis: financiamos los bienes y servicios según su valor o caemos en la insolvencia. Informe SESPAS 2014. *Gaceta Sanitaria* 28 Supl 1:69-74
- Berrettini S, Baggiani A, Bruschini L, et al. (2011) Systematic review of the literature on the clinical effectiveness of the cochlear implant procedure in adult patients. *Acta Otorhinolaryngologica Italica* 31:299-310.
- Bess FH, Murphy JD, Parker RA (1986) The unilateral hearing impaired child: a final comment. *Ear and Hearing* 61:339–354.
- Bichey BG, Miyamoto RT (2008) Outcomes in bilateral cochlear implantation. *Otolaryngology – Head and Neck Surgery* 138:655–661.
- Bond M, Mealing S, Anderson R, et al. (2007) The effectiveness and cost-effectiveness of cochlear implants for severe to profound deafness in children and adults: a systematic review and economic model www.nice.org.uk/guidance/ta166/resources/hearing-impairment-cochlear-implants-assessment-report2, descargado 2017/11/2422.
- Bond M, Mealing S, Anderson R, et al. (2009a) The effectiveness and cost-effectiveness of cochlear implants for severe to profound deafness in children and adults: a systematic review and economic model. *Health Technology Assessment* 13:1–330.
- Bond M, Elston J, Mealing S, et al. (2009b) Effectiveness of multi-channel unilateral cochlear implants for profoundly deaf children: a systematic review. *Clin. Otolaryngol.* 34:199–211.
- Boons T, Brokx JP, Frijns JH, Peeraer L, Philips B, Vermeulen A, Wouters J, van Wieringen A (2012) Effect of pediatric bilateral cochlear implantation on language development. *Arch Pediatr Adolesc Med* 166:28-34.
- Cheng AK , Grant GD, Niparko JK (1999) Meta-analysis of pediatric cochlear implant literature. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 177:124-8.
- Cheng A, Rubin H, Powe N, et al. (2000) A cost-utility analysis of the cochlear implant in children. *Journal of the American Medical Association* 284:850–856.
- Cortès-Franch I, González López-Valcárcel B (2014) Crisis económico-financiera y salud en España. Evidencia y perspectivas. Informe SESPAS 2014. *Gaceta Sanitaria* 28 Supl 1: 1–6.
- Crathorne L, Bond M, Cooper C, et al. (2012) A systematic review of the effectiveness and cost-effectiveness of bilateral multichannel cochlear implants in adults with severe-to-profound hearing loss. *Clin. Otolaryngol.* 37:342–354.
- De Raeve L (2007) Education and rehabilitation of deaf children with bilateral cochlear implants: Some practical issues. *Conference on Bilateral Cochlear implants: Are two always better than one?* Nottingham, UK, 2007.

- Díez FJ, Yebra M, Bermejo I, Palacios-Alonso MA, Calleja MA, Luque M, Pérez-Martín J (2017) Markov Influence Diagrams. *Med Decis Making* 37:183-195.
- Estrada M-D, Benítez D, Clarós P, Clavería MA, Orús C, Pujol MC. *Evaluación de los implantes cocleares bilaterales en niños. Criterios de indicación de los implantes cocleares en niños y adultos*. Ministerio de Ciencia e Innovación, Madrid, 2011.
- Forli F, Arslan E, Bellelli S (2011) Systematic review of the literature on the clinical effectiveness of the cochlear implant procedure in paediatric patients. *Acta Otorhinolaryngologica Italica* 31:281-98.
- Gaylor JM, Raman G, Chung M (2013) Cochlear implantation in adults: a systematic review and meta-analysis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 139:265-72.
- Gordon KA, Jiwani S, Papsin BC (2011) What is the optimal timing for bilateral cochlear implantation in children? *Cochlear Implants Int.* 12 Suppl 2:S8-14.
- Gordon KA, Papsin BC (2009) Benefits of short interimplant delays in children receiving bilateral cochlear implants. *Otol Neurotol.* 30:319-31.
- Gordon KA, Wong DD, Papsin BC (2010) Cortical function in children receiving bilateral cochlear implants simultaneously or after a period of interimplant delay. *Otol Neurotol.* 31:1293-9.
- Hughes KC, Galvin KL (2013) Measuring listening effort expended by adolescents and young adults with unilateral or bilateral cochlear implants or normal hearing. *Cochlear Implants Int.* 14:121-129.
- Johnston JC, Durieux-Smith A, Angus D (2009) Bilateral paediatric cochlear implants: A critical review. *Int J Audiol.* 48:601-17.
- Kos MI, Degive C, Boex C, Guyot JP (2007) Professional occupation after cochlear implantation. *J Laryngol Otol.* 121:215-8.
- Lammers MJ, Grolman W, Smulders YE, Rovers MM (2011) The cost-utility of bilateral cochlear implantation: a systematic review. *Laryngoscope* 121:2604-9
- Laske RD, Veraguth D, Dillier N, et al. (2009) Subjective and objective results after bilateral cochlear implantation in adults. *Otol Neurotol.* 30:313–318.
- Laszig R, Aschendorff A, Stecker M, et al. (2004) Benefits of bilateral electrical stimulation with the Nucleus cochlear implant in adults: 6-month postoperative results. *Otol. Neurotol.* 25:958–968.
- Litovsky R, Parkinson A, Arcaroli J, Sammeth C (2006) Simultaneous bilateral cochlear implantation in adults: a multicenter clinical study. *Ear Hear.* 27:714–731.
- L-Pedraza Gómez MJ, Llorente Parrado C, Callejo Velasco D (2007) *Implante coclear bilateral en niños: efectividad, seguridad y costes. Situación en las comunidades autónomas*. Unidad de Evaluación de Tecnologías Sanitarias (UETS), Agencia Laín Entralgo, Madrid.
- Lovett RES, Kitterick PT, Hewitt CE, Summerfield AQ (2010) Bilateral or unilateral cochlear implantation for deaf children: an observational study. *Archives of Disease in Childhood,* 95:107–112.
- Monteiro E, Shipp D, Chen J, Nedzelski J, Lin V (2012) Cochlear implantation: a personal and societal economic perspective examining the effects of cochlear implantation on personal income. *J Otolaryngol Head Neck Surg.* 41 Suppl 1:S43-8.

- Mosnier I, Sterkers O, Bebear JP, et al. (2009) Speech performance and sound localization in a complex noisy environment in bilaterally implanted adult patients," *Audiol Neuro-Otol* 14, 106–114.
- Mudry A, Mills M (2013) The early history of the cochlear implant: a retrospective". *JAMA Otolaryngology–Head & Neck Surgery* 139:446–453.
- NICE (National Institute for Health and Clinical Excellence) (2009) Cochlear implants for children and adults with severe to profound deafness. NICE technology appraisal guidance 166. www.nice.org.uk/nicemedia/pdf/TA166Guidancev2.pdf, descargado 2017/11/24.
- Offeciers E, Morera C, Müller J, et al. (2005) International consensus on bilateral cochlear implants and bimodal stimulation. *Acta Oto-Laryngologica* 125:918–19.
- Papsin BC, Gordon KA. (2008) Bilateral cochlear implantation should be the standard for children with bilateral sensorineural deafness. *Current Opinion in Otolaryngology and Head & Neck Surgery* 16:69–74.
- Peñaranda A, Mendieta JC, Perdomo JA et al. (2012) Beneficios económicos del implante coclear para la hipoacusia sensorineural profunda. *Rev Panam Salud Publica* 31:325-331.
- Pérez-Martín J, Artaso MA, Díez FJ (2017) Cost-effectiveness of pediatric bilateral cochlear implantation in Spain. *Laryngoscope* 127:2866–2872.
- Peters BR (2006) Rationale for bilateral cochlear implantation in children and adults. www.dallasear.com/webdocuments/rationale-bilateral-cochlear-implantation.pdf, descargado 2017/11/24.
- Pinto Prades JL, Martínez Pérez JE (2005) Estimación del valor monetario de los años de vida ajustados por calidad: Estimaciones preliminares. *Ekonomiaz* 13:192–209.
- Raine CH, Craddock L, Lutman ME (2010) Appraisal of clinical and cost- effectiveness of cochlear implantation by the National Institute for Health and Clinical Excellence. *Cochlear Implants International* 11(Suppl 1):138–142.
- Raman G, Lee J, Chung M, et al. (2011) Effectiveness of cochlear implants in adults with sensorineural hearing loss. Rockville, MD: Agency for Healthcare Research and Quality.
- Ramsden JD, Gordon K, Aschendorff A, et al. (2012) European Bilateral Pediatric Cochlear Implant Forum consensus statement. *Otol Neurotol*. 33:561-5
- Sacristán JA, Oliva J, del Llano J, Prieto L, Pinto JL (2002) ¿Qué es una tecnología sanitaria eficiente en España? *Gaceta Sanitaria* 16:334–43.
- Sarant J, Garrard P. Parenting stress in parents of children with cochlear implants: relationships among parent stress, child language, and unilateral versus bilateral implants. *J Deaf Stud Deaf Educ*. 19:85-106.
- Sarant J, Harris D, Bennet L, Bant S (2014) Bilateral versus unilateral cochlear implants in children: a study of spoken language outcomes. *Ear & Hearing* 35:396–409.
- Severens JL, Brokx JP, van den Broek P (1997) Cost analysis of cochlear implants in deaf children in the Netherlands. *American Journal of Otology* 18:714–718.
- Sparreboom M, van Schoonhoven J, van Zanten BG, et al. (2010) The effectiveness of bilateral cochlear implants for severe-to-profound deafness in children: a systematic review. *Otol. Neurotol*. 31:1062-71.
- Summerfield AQ, Marshall DH, Barton GR, Bloor KE (2002) A cost-utility scenario analysis of bilateral cochlear implantation. *Archives of Otolaryngology – Head and Neck Surgery* 128:1255–1262.

- Summerfield AQ, Stacey PC, Roberts KL, Fortnum HM, Barton GR (2003) Economic analysis and cochlear implantation. *International Congress Series* 1254:313–319.
- Summerfield AQ, Barton GR, Toner J, et al. (2006). Self-reported benefits from successive bilateral cochlear implantation in post-lingually deafened adults: Randomised controlled trial. *International Journal of Audiology* 45(Suppl 1):99–107.
- Summerfield AQ, Lovett RES, Bellenger H, Batten, G (2010) Estimates of the cost-effectiveness of pediatric bilateral cochlear implantation. *Ear and Hearing* 31:611–624.
- Turchetti G, Bellelli S, Palla I, Berrettini S (2011a) Systematic review of the scientific literature on the economic evaluation of cochlear implants in adult patients. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 31:319-27.
- Turchetti G, Bellelli S, Palla I, Forli F. (2001b) Systematic review of the scientific literature on the economic evaluation of cochlear implants in paediatric patients. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 31:311-8.
- Tyler, R. S., Noble, W., Dunn, C., and Witt, S. (2006). “Some benefits and limitations of binaural cochlear implants and our ability to measure them,” *Int. J. Audiol.* 45, 113–119.
- Tyler RS, Dunn CC, Witt SA, Noble WG (2007) Speech perception and localization with adults with bilateral sequential cochlear implants. *Ear Hear.* 28:86S–90S.
- van Hoesel RJ, Litovsky RY (2011) Statistical bias in the assessment of binaural benefit relative to the better ear. *J Acoust Soc Am.* 130:4082-8.
- van Schoonhoven J, Sparreboom M, van Zanten BG, et al. (2013) The effectiveness of bilateral cochlear implants for severe-to-profound deafness in adults: a systematic review. *Otology and Neurotology* 34:190-198.