

# *Comprometiendo a los Interesados en la Investigación: El caso de los Trastornos Respiratorios Obstructivos en los Niños y la Adenoamigdalectomía*

Anne R. Links y Emily F. Boss

## **Introducción**

La investigación de resultados centrada en el paciente (IRCP) incorpora las características del paciente, sus preferencias y valores para producir resultados de la investigación que “la gente nota y le interesa”.<sup>1</sup> La IRCP prioriza el compromiso de los interesados, incluyendo pacientes y familiares, para informarles la pregunta que se investiga así como la elaboración de opciones de cuidado de la salud y toma de decisiones compartida para crear una asociación entre pacientes y familiares y profesionales de la salud. Como tal, la IRCP tiene el potencial de brindar resultados superiores ayudando a “a la gente a comunicarse y a tomar decisiones, permitiendo que su voz sea escuchada al evaluar el valor de las opciones de cuidado de la salud.”<sup>1</sup>

El valor de la investigación en que participan los interesados puede verse a través de la IRCP.<sup>2</sup> Se pregunta alternativamente a estos interesados, que resultados son más importantes para todos los individuos que están afectados e incorpora las perspectivas de estos interesados para alcanzar los resultados deseados en la investigación. En el caso de los trastornos respiratorios obstructivos del sueño en niños, los interesados incluyen no sólo a los niños que roncan si no también los padres, familiares, pediatras, cirujanos, los responsables de políticas de salud, los investigadores y los responsables de los servicios de salud. Dependemos del compromiso de los interesados en nuestra investigación sobre la toma de decisiones para la cirugía de adenoamigdalectomía, que servirá como un ejemplo del valor de la IRCP.<sup>3-6</sup>

Los trastornos respiratorios obstructivos del sueño en Pediatría afectan hasta el 12% de los niños y tienen diversas consecuencias en la salud física, cognitiva y secuelas emocionales<sup>7-10</sup>. La amigdalectomía con adenoidectomía es el tratamiento más común para estos trastornos, y es la segunda intervención quirúrgica ambulatoria pediátrica más comúnmente realizada en los Estados Unidos, con más de 500.000 casos realizados por año<sup>9,11</sup>. La incidencia ha aumentado en las últimas décadas, y hay un riesgo verdadero de morbilidad con cada procedimiento<sup>12</sup>. Además ha habido mucha especulación tanto en los estudios de investigación y en los medios de comunicación sobre indicación inadecuada/abuso o variación sin explicación en la utilización de este procedimiento tan común<sup>13-16</sup>. En entrevistas cualitativas a cirujanos y pediatras que tratan esta patología pediátrica, se encontró que mientras que la amigdalectomía es una opción para tratamiento en muchos casos, hay cirujanos que realizan la cirugía de forma indiscriminada (“Poco me importa si realizo una amigdalectomía extra, pero conozco algunos médicos que a cualquier niño que ronca, le sacan sus amígdalas”<sup>5</sup>).

Teniendo en cuenta los importantes beneficios pero también los riesgos y la amplia variación en la indicación de la amigdalectomía, los estudios de investigación, en los procesos de toma de decisiones de padres y médicos que preceden a este procedimiento son importantes, para asegurar la mayor calidad, que este, con base en la evidencia, y en decisiones informadas para la cirugía<sup>17,18</sup>. La inclusión de los interesados en esta investigación enfatiza la validez, relevancia y amplitud de las preguntas frecuentes y las investigaciones realizadas. En este capítulo, presentamos nuestra experiencia inicial incluyendo a las partes interesadas para informarles de la investigación sobre trastornos obstructivos del sueño en niños y la adenoamigdalectomía.

### **Proyectos de investigación en que participan las partes interesadas**

**Entrevista cualitativa a informante clave.** Realizamos entrevistas a 11 padres de niños que habían sido evaluados o tratados para TROS en niños (Trastornos Respiratorios Obstructivos del Sueño)<sup>6</sup>. También realizamos entrevistas con 10 médicos / científicos que tratan niños con TROS.<sup>5</sup> Las perspectivas de los temas centrales de estas entrevistas han dado información importante a nuestra investigación actual y continuarán ayudando en el desarrollo de medidas de resultado futuro y herramientas de soporte de decisión. Se realizaron entrevistas para conocer las experiencias de los padres con respecto a : a) la experiencia de sus hijos con trastornos de la respiración, b) su experiencia con el profesional de la salud, cuando estaban en búsqueda de tratamiento y c) los factores que influyeron en la toma de decisiones con respecto a la adenoamigdalectomía como una opción de tratamiento<sup>3,6</sup>. Se le preguntó a los padres sobre las razones por las que llevaron a sus hijos al Otorrinolaringólogo para evaluación, su conocimiento y preocupaciones sobre los riesgos y beneficios del tratamiento quirúrgico, sus preferencias para tratamiento y sus experiencias con los médicos, incluyendo la comunicación y estilos interpersonales.

Encontramos que los padres destacaron la importancia del intercambio de información sobre riesgos y beneficios del tratamiento y factores clínicos como la gravedad de los síntomas al tomar decisiones de tratamiento médico. Los padres describieron sus razones para buscar tratamiento a través de un lente emocional, como el miedo por la apnea de sus hijos (“el miedo que ella no despierta, eso me asustó”). Los padres elaboran sobre el miedo de la anestesia a menudo una consideración más importante que los riesgos quirúrgicos reales (“pondremos a dormir a tu bebé. Era mi mayor preocupación. No me preocupaba la amigdalectomía”). Hicieron hincapié en la importancia de factores interpersonales y la comunicación con los médicos para una experiencia positiva, en lugar de influir en sus decisiones de tratamiento (“todo el mundo fue muy, muy agradable. Alivió nuestros temores y nos hizo sentir cómodo”).

Se entrevistaron a 10 médicos de diferentes disciplinas (Pediatría, Otorrinolaringología, Medicina Pulmonar/Sueño, Anestesiología) y diferentes tipos de práctica (académica, pública o privada). Tenían diferentes puntos de vista sobre la amigdalectomía (“cirugía para mí es un último recurso;” “nunca escucho a nadie quejarse por la amigdalectomía”). Los médicos proporcionaron una variedad de perspectivas en el tratamiento del TROS, que determinaron tres tópicos principales: *enfoque de tratamiento y alternativas* (“tengo un sentimiento por los padres”);

*de comunicación y toma de decisiones entre médicos y familias* (“les explico a los padres y les permito decidir”); y *factores socioculturales y barreras a la atención* («algunos preguntan: mi hijo va a quedar estéril como resultado de esto?»). Los médicos tenían patrones de práctica ampliamente variables y puntos de vista con respecto a la necesidad de la referencia a la subespecialidad y el tratamiento.

Los resultados de estas entrevistas subrayan la importancia de la comunicación y el intercambio de información cuando se trabaja con padres de niños con TROS para tomar decisiones de tratamiento. Además, representan las preocupaciones de la vida real que los padres tienen cuando se considera que el tratamiento es quirúrgico. También confirman una variación en el enfoque de tratamiento. Las partes interesadas ampliaron varios aspectos de nuestro tema de investigación que no habíamos considerado y no han sido captados en otros análisis cuantitativos convencionales y nos hizo conscientes de las preocupaciones temáticas, en nuestra evaluación de las experiencias de padres y médico con el tratamiento de TROS. Tópicos generados, a partir de estas entrevistas, han proporcionado una base para muchos proyectos en el futuro que incorporen perspectivas de los interesados en investigación científica de TROS en niños y toma de decisiones para la adenoamigdalectomía. A pesar de la pequeña muestra de los padres y médicos, hemos sido capaces de utilizar las perspectivas de estas entrevistas como “punto de inicio” cuando se consideran los factores del tratamiento de TROS que son importantes tanto para los padres de niños con TROS, y tanto a los clínicos que los tratan. También sirven como base para desarrollar aplicaciones prácticas como ayudas de decisión y las medidas de resultado para evaluar conocimiento de los padres, después de la consulta.

***Los Trastornos respiratorios obstructivos y la adenoamigdalectomía Escala de conocimiento para los padres.*** El mayor conocimiento sobre TROS así como sobre los riesgos y beneficios de la adenoamigdalectomía (A&A) pueden aliviar el conflicto que se presenta a los padres al considerar la adenoamigdalectomía para sus hijos<sup>18,19</sup>. Además de comprometer a las partes interesadas a través de entrevistas cualitativas, también hemos comprometido a los padres y los médicos en un proyecto de investigación para desarrollar una medida de resultado que evalúe el conocimiento de los padres sobre el TROS y la cirugía. Esta medida está disponible para uso en investigación y práctica clínica<sup>4,20</sup>.

El compromiso de las partes interesadas se llevó a cabo en varias etapas. En las primeras etapas del desarrollo de la escala de conocimiento de los padres, se formó un Consejo Asesor de Médicos que tratan TROS pediátrica, para aportar en el desarrollo del prototipo inicial de la medida. Los investigadores realizaron una revisión sistemática de la literatura sobre TROS y la cirugía, con los resultados de las entrevistas con informantes clave descritos anteriormente para determinar los elementos más importantes en la evaluación del conocimiento de los padres. Estos elementos se incluyeron finalmente en la prototipo de la medida, que rindió 9 «categorías» preliminares de conocimiento sobre TROS y A&A, y 89 preguntas potenciales. Una muestra de 32 padres, médicos y otros individuos se dedicaban entonces a realizar la prueba y evaluar el prototipo de la medida para evaluar su validez para su uso en el campo<sup>20</sup>.

Análisis de interesados combinado de padre-clínico indican que las áreas más importantes del conocimiento de los padres sobre TROS y A&A, toma de decisiones para el tratamiento de TROS pediátrico, son 1) síntomas de TROS, 2) opciones de tratamiento, 3) efectos de la anestesia, 4) beneficios de la amigdalectomía y 5) los riesgos de la cirugía de A&A. Como resultado de estos temas definidos por los interesados, el TROS y la escala de conocimiento de los padres sobre adenoamigdalectomía fue construido alrededor de estos elementos. Es decir, basado en las respuestas de los interesados, el prototipo de la medida fue modificado para producir una escala condensada que contiene 5 dominios principales (síntomas de TROS, opciones de tratamiento, experiencias con anestesia, riesgos de A&A, beneficios de A&A), con 39 elementos generales individuales.

La inclusión de interesados en el desarrollo de la escala fue esencial. Los médicos aportaron a los investigadores una visión y el comité editorial integró datos importantes basados en la evidencia en el prototipo de la medida. La inclusión de los padres permitió a los investigadores modificar y desarrollar la escala de manera que sería bien recibida por la población objetivo. Incluir a las partes interesadas en el desarrollo de esta medida aseguró que estaba siendo evaluada adecuadamente por las poblaciones que la utilizaran: los que la administraran (médicos) como los que la tomaran (padres).

**Tabla de Opción™ para ayuda en la decisión.** Además de desarrollar una medida para evaluar el conocimiento, estamos también en el desarrollo de una herramienta de apoyo de decisión para ayudar a los padres, ya sea para la cirugía, versus manejo expectante en casos de TROS. Esta herramienta se basará en la tabla de opción™, que presenta una tabla de una página que contiene una serie de preguntas frecuentes (PF) sobre el tratamiento de TROS pediátrico y proporciona información comparativa, acerca de la cirugía en comparación con el manejo expectante<sup>21, 22</sup>. Las partes interesadas estarán involucradas en el desarrollo de esta herramienta de apoyo de decisión, durante todo el proceso de su creación. Junto con la Tabla de Opción™ en colaboración con el Instituto de Dartmouth para Políticas de Salud y Práctica Clínica, un consejo editorial compuesto por los médicos de varias disciplinas, y los padres de niños diagnosticados previamente con TROS ayudará en el desarrollo de esta herramienta. Los investigadores sintetizarán los temas de entrevistas con los informantes clave mencionados con resultados primarios de la literatura actual. Esta síntesis se utilizará para desarrollar una extensa lista de posibles preguntas frecuentes para la Tabla de Opción™ de ayuda en decisión, que será difundida a una muestra aleatoria más grande de padres de niños con TROS. Los padres de niños con TROS darán sus opiniones, sobre que preguntas frecuentes son más relevantes para su inclusión en la ayuda de decisión sobre la opción para cirugía en TROS pediátrica.

Un prototipo de la ayuda de decisión será desarrollado y administrado posteriormente a un nuevo grupo de interesados para el test de usuarios. Los padres de niños con TROS que están considerando actualmente un tratamiento, evaluarán la herramienta de ayuda de decisión y darán respuestas que ayudarán a su modificación. Así, las tres fases de enlace de los interesados para este proyecto incluyen: 1) el tema y el desarrollo de las preguntas más frecuentes; 2) la crea-

ción del prototipo de la ayuda de decisión, y 3) el test de usuarios de la ayuda de decisión – Tabla de Opción™. Mediante la integración de las partes interesadas no sólo en la evaluación de esta herramienta (etapa 3), sino también durante su desarrollo, nos aseguramos de que, en cada paso de nuestro proceso científico, la herramienta se desarrollara de manera que promueva su uso en la investigación moderna y práctica.

### Conclusiones

Los métodos de los proyectos descritos inclusive demuestran la importancia de implicar a los interesados en el desarrollo de investigaciones que tengan implicaciones verdaderas para afectar sistemas de administración de salud y práctica clínica. La participación de las partes interesadas en la investigación ayuda a asegurar que los resultados de la investigación no sólo serán de interés para las partes interesadas, pero contendrá material que tenga un uso práctico en el área clínica. Somos optimistas en que la evolución de la investigación en nuestra especialidad va a incorporar preguntas, diseño de estudio y resultados que sean clínicamente relevantes y también importantes tanto a pacientes como a familiares.

### Referencias bibliográficas

1. PCORI. Patient-centered outcomes research. 2013; Available from: <http://www.pcori.org/research-results/patient-centered-outcomes-research>.
2. Fleurence, R., *et al.*, How the Patient-Centered Outcomes Research Institute is engaging patients and others in shaping its research agenda. *Health Affairs*, 2013. 32: p. 393-400.
3. Boss, E., *et al.*, “You have to be sure before someone cuts on your baby:” Parent perspectives on decision-making and communication for adenotonsillectomy in children who snore., in International Conference on Communication in Healthcare. 2015: New Orleans, LA
4. Boss, E.F., A. Links, and D.E. Tunkel, Stakeholder engagement in measure development for pediatric obstructive sleep-disordered breathing: The oSDB and adenotonsillectomy knowledge scale for parents. 2016.
5. Boss, E.F., A.R. Links, and M.C. Beach, “I could care less if I do an extra tonsillectomy:” Physician perspectives on parent decision-making for treatment of pediatric sleep-disordered breathing. 2016, Poster presentation, Pediatric Academic Society Annual Meeting 2016.
6. Boss, E.F., *et al.*, Parent experience of care and decision-making for children who snore. *JAMA Otolaryngology–Head & Neck Surgery*, 2016.
7. Bixler, E.O., *et al.*, Sleep disordered breathing in children in a general population sample: prevalence and risk factors. *Sleep*, 2009. 32(6): p. 731-6.
8. Mitchell, R.B. and J. Kelly, Behavior, neurocognition and quality-of-life in children with sleep-disordered breathing. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2006. 70(3): p. 395-406.
9. Alexander, N.S. and J.W. Schroeder, Jr., Pediatric obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatr Clin North Am*, 2013. 60(4): p. 827-40.
10. Lumeng, J.C. and R.D. Chervin, Epidemiology of pediatric obstructive sleep apnea. *Proc Am Thorac Soc*, 2008. 5(2): p. 242-52.
11. Ingram, D.G. and N.R. Friedman, Toward Adenotonsillectomy in Children: A Review for the General Pediatrician. *JAMA Pediatr*, 2015: p. 1-8.
12. Younis, R.T. and R.H. Lazar, History and current practice of tonsillectomy. *Laryngoscope*, 2002. 112(8 Pt 2 Suppl 100): p. 3-5.
13. Boss, E.F., Tonsillectomy variation in the United States: the evidence is catching up, but are the payers aware of the evidence? *J Pediatr*, 2012. 161(5): p. 972-3; author reply 973.

14. Boss, E.F., J.A. Marsteller, and A.E. Simon, Outpatient tonsillectomy in children: demographic and geographic variation in the United States, 2006. *J Pediatr*, 2012. 160(5): p. 814-9.
15. Goyal, S.S., *et al.*, Variation in post-adenotonsillectomy admission practices in 24 pediatric hospitals. *Laryngoscope*, 2013. 123(10): p. 2560-6.
16. Sun, G.H., From tonsils to scopes: 80 years of variation in the practice of otolaryngology. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 2015. 152(6): p. 988-90.
17. Hong, P., *et al.*, Shared decision-making in pediatric otolaryngology: Parent, physician and observational perspectives. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2016. 87: p. 39-43.
18. Chorney, J., *et al.*, Understanding shared decision making in pediatric otolaryngology. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 2015. 152(5): p. 941-7.
19. Ritchie, K.C., J. Chorney, and P. Hong, Parents' decisional conflict, self-determination and emotional experiences in pediatric otolaryngology: A prospective descriptive-comparative study. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2016. 86: p. 114-7.
20. Links, A.R., D.E. Tunkel, and E.F. Boss, Stakeholder-engaged measure development for pediatric obstructive sleep-disordered breathing: The Obstructive Sleep-disordered Breathing and Adenotonsillectomy Knowledge Scale for parents. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*, 2016. In Press, September 2016.
21. OGC. How to create an Option Grid. 2015; Available from: [www.optiongrid.org](http://www.optiongrid.org).
22. Elwyn, G., *et al.*, Option Grids: shared decision making made easier. *Patient Educ Couns*, 2013. 90(2): p. 207-12.