Exmo. Editor da Acta Médica Portuguesa,

Os Autores do manuscrito “**Surdez Congénita ou Precocemente Adquirida: Do Rastreio ao Seguimento, Um Retrato de Portugal”** aceitam e agradecem as sugestões do Editor e dos Revisores.

Como solicitado, de seguida indicaremos a nossa resposta a cada sugestão que nos foi endereçada.

**Notas do editor 1**
Com o objectivo de optimizar a legibilidade do seu artigo e assim incrementar potencialmente as citações do mesmo, recomendamos que os conteúdos redigidos em inglês sejam revistos por um "native speaker", tradutor qualificado ou empresa especializada em serviços de "language polishing". Sendo um Artigo Original o resumo tem de estar estruturado.

**Resposta 1**

O resumo em inglês foi revisto por um “native speaker” e encontra-se estruturado.

“ABSTRACT

**Introduction:** Congenital deafness (CD) or early acquired deafness (EAD) affects 1 to 3/1000 newborns (NB) without risk factors and 20 to 40/1000 with risk factors. The Universal Newborn Hearing Screening (UNHS) allows for its early identification. Children with CD/EAD have a higher prevalence of other pathologies, especially ophthalmologic and neurodevelopmental ones, 30 to 40% have at least one associated comorbidity. **Methods:** We carried out a cross-sectional, multicenter study in which 83% (n=30) of the Hospitals/Maternities (H/M) of the National Health Service (NHS) participated. **Results:** All H/M routinely performed UNHS to all NB before discharge; 63% referred children with risk factors for hearing loss to Otorhinolaryngology. All children with CD/EAD are referred to: Pediatrics in 23% H/M. In 23 H/M all children with CD/EAD are referred to: Speech Therapy in 44% H/M; Ophthalmology in 17% H/M; National System of Early Intervention in Childhood (NSEIC) in 30% H/M; 22% of H/M refers all children with CD/EAD, with no identified cause, to Genetics. The number of deafness diagnoses in the years 2014/2015 was 2.5/1.5 per 1000 NB (respectively) in 15 H/M. **Conclusions:** Awareness of UNHS seems to be widely spread in the NHS. The number of deafness diagnoses performed through the UNHS shows its importance. Not all children with deafness risk factors have follow-up according to the recommendations. The results obtained on the involvement of other specialties, besides Otorhinolaryngology, as well as NSEIC in the follow-up of children with CD/EAD deserves consideration.”

**Nota do editor 2:**

Rever Referências bibliográficas

**Resposta 2:**

Realizámos as alterações indicadas na parte da Bibliografia, no manuscrito que nos foi enviado com as correções e comentários.

\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_

**Revisor A**

**Comentário 1:**
O tema do artigo é muitíssimo importante e actual, procurando avaliar a realidade nacional após a implementação por lei de normas de orientação para rastreio e intervenção em surdez neonatal. Os autores procuraram fortalecer os seus dados fazendo uma avaliação inclusiva de todos os centros. No entanto, a forma como o fizeram (questionário de preenchimento
facultativo) levou a que os dados recolhidos fossem pobres (só apresentam dados relevantes para cerca de 1/4 dos nascimentos) e assim dificilmente podemos dizer que a realidade encontrada é nacional.

**Resposta 1:**

Acrescentámos aos resultados a resposta às perguntas 4 e 6 sobre o número de nados-vivos nascidos na entidade de saúde nos anos 2014 e 2015 (vide questionário enviado em anexo). Existem mais entidades que responderam a estas 2 questões que as que responderam ao nº de recém-nascidos aos quais diagnosticaram surdez. No manuscrito enviado inicialmente só havíamos utilizado os dados dessas 2 perguntas para calcularmos o nº de diagnósticos de surdez por RN (em permilagem), por isso não tínhamos mostrado esse resultado separadamente.

“RESULTADOS

Parte 2.

2.1 Número de nados-vivos nascidos nos anos de 2014 e 2015

Das 30 entidades de saúde, 27 responderam à questão relativa ao número de nados-vivos nascidos no seu Hospital/Maternidade no ano de 2014 e 26 relativamente ao ano de 2015:

- Nados-vivos 2014 (27 entidades de saúde): 40196

- Nados-vivos 2015 (26 entidades de saúde): 40720”

Depois, na discussão colocámos qual a percentagem de RN nascidos nas entidades incluídas no estudo.

“DISCUSSÃO

Este estudo multicêntrico mostra a realidade de 30 entidades de saúde (**83% dos Hospitais com maternidade/ Maternidades do SNS**) no âmbito da realização do RANU (quando o fazem e quem o realiza), do seguimento do RN REFER na 1º fase do RANU e do RN com fatores de risco de surdez. Destas 30 entidades de saúde, 27 responderam à questão relativa ao número de nados-vivos nascidos no seu Hospital/Maternidade no ano de 2014 (40196 nados-vivos) e 26 relativamente ao ano de 2015 (40720 nados-vivos). A percentagem de nados-vivos nessas entidades de saúde face à natalidade nacional (Portugal continental e Ilhas) nesses 2 anos foi de 48,8% no ano de 2014 e de 47,6% em 2015. 38 **Estes valores permitem-nos dizer que a realidade destas 30 unidades de saúde afeta cerca de metade dos nados-vivos nascidos em Portugal.** “

**Comentário 2**

E não comentam o que mais sobressai dos dados obtidos, que foi a muito prevalente ausência de cumprimento das normas, e mesmo o seu desconhecimento. Não o mencionam, mas
facilmente devemos concluir que existe implicação negativa na intervenção devida às crianças detetadas no rastreio.

**Resposta 2**

Acrescentámos na Introdução o facto de não existirem normas que indiquem o papel de outras especialidades, além da ORL, na intervenção precoce crianças das crianças com DA sem indicação para implante coclear.

“(…) As crianças com DA menos graves não são contempladas nesta NOC. As recomendações do GRISI pelo seu caracter mais universal, abrangem estas crianças. No entanto, no que diz respeito ao seguimento por outras especialidades além da ORL, as recomendações são muito genéricas: *“A avaliação e o seguimento de uma criança com perda auditiva deverão ser realizados por uma equipa multidisciplinar que inclua pediatras, otorrinolaringologistas, audiologistas, enfermeiros, terapeutas da fala, psicólogos e outros.”* Não é referida a avaliação por parte de oftalmologia, não é indicada em que idades estas crianças devem ser referenciadas e não esclarece se esta avaliação multidisciplinar deve ser realizada por todas aquelas especialidades e se a todas as crianças com DA, mesmo que os défices sejam ligeiros e as crianças sejam saudáveis. “

No que diz respeito ao seguimento das crianças com DA sem indicação para implante coclear, julgamos ser difícil dizer que há incumprimento de normas uma vez que estas são abordadas de forma vaga nas recomendações do GRISI. Adicionalmente, p.ex. avaliação por oftalmologia não é referida nestas recomendações.

**Comentário 3**

E tem algumas inconsistências - por exemplo, aceitam os autores que todas as unidades que responderam digam que rastrearam todas as crianças antes da alta, quando sabemos por publicações anteriores que tal não corresponde à verdade nos anos imediatamente anteriores a estes.

**Resposta 3**

Reformulámos a discussão sobre estes resultados de modo a clarificar a inconsistência encontrada:

“Nestas 30 entidades de saúde o RANU é realizado, por rotina, antes da alta hospitalar. Realidade que contrasta com os resultados obtidos de estudos retrospetivos sobre dados de Hospitais nível 1/2 publicados recentemente, que mostraram que taxa de efetividade deste rastreio se aproxima, mas não atinge os 100%.39,40 Valor que importa, uma vez que cada percentagem perdida corresponde a RN não rastreado. No questionário utilizado no nosso estudo perguntamos se o RANU é realizado “por rotina” a todos os RN antes da alta. De facto, a resposta mostra o que é feito “por rotina” nestas 30 entidades de saúde. **Não podemos inferir através destas respostas que o RANU tem uma taxa de efetividade de 100% nestas entidades de saúde.”**

**Comentário 4**

Assim sugiro que se possível seja feito um maior esforço para obter os dados omissos (que até foram já publicados em reuniões nacionais), e procurar confirmar que as respostas obtidas são dadas com responsabilidade por parte dos Hospitais consultados.
Estou certo que nenhum Hospital quererá aparecer nestas estatísticas como afirmando que nenhum Serviço seu é responsável por orientar as crianças detectadas (estou certo que não corresponde à realidade e foi apenas desconhecimento de quem respondeu ao inquérito).

**Resposta 4**

Realizámos as alterações na Introdução/Resultados e Discussão que de forma a clarificar as dúvidas suscitadas.

Se por um lado, poderemos ter respostas ao questionário aplicado em 2016 que poderão não corresponder à realidade dado o destinatário desconhecer o tema sobre o qual este tratava. Um novo contato, neste momento, às entidades que responderam ao questionário poderá levar a um viés nos dados obtidos, o risco, que uma interpelação sobre alguma orientação tomada leve a algum viés na resposta, não é nulo.

**\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_\_**

**Revisor C:**

**Comentário 1**
Reflecte o conteúdo de forma sucinta? Ponderar “do rastreio ao seguimento”

**Resposta 1**

Os autores alteraram o título para: “Surdez Congénita ou Precocemente Adquirida: Do Rastreio ao Seguimento, Um Retrato de Portugal”

**Comentário 2**

Nota: Na introdução, a sigla DA não está descrita na primeira vez que aparece.

**Resposta 2**

Corrigimos a fala e descrevemos DA a 1ª vez que ela aparece no texto (introdução):

“(…) A sua prevalência éidêntica qualquer que seja o grau de défice auditivo (DA).21,23

**Comentário 3**

O questionário enviado às entidades de Saúde não é apresentado. Fica na dúvida se os Hospitais nível 1/2 responderam a questionários diferentes que os Hospitais de Referência ou se foram contactados posteriormente à realização do questionários (. “Neste sentido, os Hospitais nível 1/2 que responderam ao questionário foram contatados com o objetivo de se saber o tipo de seguimento que realizavam às crianças com alterações no RANU ou SC/SPA – seguimento na integra até colocação de implantes cocleares (inclusivé ou exclusivé) ou
encaminhamento de todas estas crianças para Hospital de referencia”.
Muitos hospitais nível 1/2 apenas realizam o RANU, encaminhando depois para
os Hospitais de referência (como bem referem os autores).

**Resposta 3**

Enviamos em conjunto com o artigo revisto o questionário para que este possa constar em anexo ao artigo.

Foi elaborado apenas um único questionário, que seguiu para todos os 36 Serviços de Pediatria e Otorrinolaringologia.

Notar: uma vez que o questionário passa a ser apresentado, adicionámos aos resultados os dados obtidos pelas respostas à questão nº 14 que não havíamos abordado no manuscrito inicial, mas que por se visualizar no questionário pode levantar dúvidas.

Acrescentámos nos RESULTADOS

**“3.4 Seguimento da criança com DA com indicação para implante coclear, além da ORL**

Entidades de saúde representadas: 23 (as mesmas do ponto 3.2)

- 15 entidades de saúde (2 Hospitais nível 3 e 13 Hospitais nível 1/2, onde se inclui um Hospital que realiza o seguimento das crianças com indicação para colocação de implante coclear), referiram que estas crianças são seguidas em diferentes consultas: Terapia da Fala (n=15), Pediatria do Desenvolvimento (n=12), Neuropediatria (n=4), Psicologia (n=15).

- 8 entidades de saúde (3 Hospitais nível 1/2 que seguem as crianças com SC/SPA sem indicação para implante coclear e 5 cuja diferenciação no seguimento realizado às crianças com SC/SPA é desconhecido) “

**Comentário 4**

Em alguns centros houve resposta do Serviço de ORL e de Pediatria (30% das instituições). Como trataram estes dados? E se fossem contraditórios?

**Resposta 4**

Seguimos sempre os pressupostos indicados na Metodologia descritos na primeira versão do manuscrito. De modo a ir ao encontro ao referido abaixo no comentário 7 tivemos de alterar a metodologia para a validação das respostas sobre o seguimento das crianças com DA.

Para clarificação da metodologia utilizada acrescentámos elementos sobre o tratamento dos dados na metodologia:

“ MÉTODOS

(…) A análise das respostas obtidas teve em consideração os seguintes pressupostos:

- Quer o Serviço de Pediatria quer de ORL, seja de um Hospital nível 1/2 ou 3 tem conhecimento se os RN nascidos na sua instituição realizam ou não o RANU antes da alta hospitalar e quais são os profissionais que o realizam;

- Nas Maternidades e Hospitais distritais nível 1/2, pode ser realizado apenas o RANU, podendo os RN que não passam na 1ª ou 2ª fase do rastreio ou que tenham fatores de risco de surdez ser encaminhados para Hospital de referência. Nestes casos, apenas este último pode informar sobre o seguimento realizado a estas crianças. Neste sentido, os Hospitais nível 1/2 que responderam ao questionário foram contatados com o objetivo de se saber o tipo de seguimento que realizavam às crianças com alterações no RANU ou SC/SPA – seguimento na integra até colocação de implantes cocleares (inclusive ou exclusive) ou encaminhamento de todas estas crianças para Hospital de referência;

- O Serviço de Pediatria sabe na íntegra todo o seguimento realizado à criança com SC/SPA se a ele forem referenciadas por rotina todas estas crianças.

Partindo das condições acima referidas, os dados obtidos através das respostas ao questionário foram divididos em 3 partes. Parte 1 - Perguntas 2 e 3 (realização por rotina do RANU antes da alta e quais os profissionais que o realizam) ; Parte 2 – Perguntas 4 a 10 (nº de dados vivos nascidos em 2014 e 2015 e respetivos diagnósticos de SC/SPA detetados através do RANU; seguimento realizado aos RN REFER na 1º fase do rastreio e aos RN com fatores de risco de surdez); Parte 3 – Questões 11 a 17 (seguimento das crianças com DA por outras especialidades além da ORL).

As respostas foram validadas como representativas da realidade da entidade de saúde, representada pela resposta dada pelo Serviço de ORL e/ou Pediatria, da forma indicada no diagrama apresentado na figura 1

Fig. 1 Diagrama explicativo dos critérios utilizados para validação das respostas e inclusão no estudo

Legenda:

ES – Entidade de Saúde; DA – Défice auditivo; FR – Fator de risco; H – Hospital; ORL – Otorrinolaringologia

◊ Repostas complementares - um Serviço responde “Não sei responder. (…)” e o outro responde o tipo de referenciação realizada.

**Comentário 5**

A metodologia nos manuscritos de caráter epidemiológico são adequados? Algumas dúvidas em relação ao questionário – era de escolhe múltipla (“Numa segunda fase do estudo, elaborámos um questionário composto por 17 perguntas de escolha múltipla”) ou também incluía perguntas de resposta aberta? Exemplo: Qual o número de nados vivos na Instituição?
Nº de diagnósticos de SC/SPA na instituição?

**Resposta 5**

Corrigimos na Metodologia a descrição do questionário:

“Numa segunda fase do estudo, elaborámos um questionário composto por 13 perguntas de escolha múltipla e 4 de resposta aberta, que incidiam sobre (…)”

**Comentário 6**

Que instituições responderam às questões do diagnóstico de SC/SPA – apenas as que fizeram de facto o diagnóstico (através da realização de potenciais auditivos do tronco) ou pode haver repetição de dados entre hospitais de 1/2 linha e hospitais para onde são referenciados para diagnóstico e seguimento?

**Resposta 6**

Nos resultados acrescentámos:

“Das 30 entidades de saúde que responderam ao questionário, 15 (13 Hospitais nível 1/2 e 2 Hospitais nível 3) indicaram o número de nados vivos nascidos no seu local de saúde em 2014 e 2015, bem como o número de crianças a quem através do RANU se realizou o diagnóstico de SC/SPA, nesse mesmo período.”

De referir:

A pergunta sobre o nº de RN com diagnóstico de DA e respetivo grau de severidade no ano de 2014 e 2015 vem no seguimento da pergunta do nº de nados vivos na entidade de saúde nesses mesmos anos. O diagnóstico referido é obrigatoriamente o definitivo pelo que a metodologia utilizada para chegar a esse diagnostico, supomos ser a correta. Os dados que tivemos dos Hospitais nível 3 não correspondem ao somatório, nem são em geral superiores aos diagnósticos referidos por Hospitais nível 1/2 que a eles referenciam.

**Comentário 7**

São claros e convincentes? Os resultados em relação ao seguimento e referenciação das crianças com SC/SPA são difíceis de ler. Tabelas que diferenciassem as respostas entre os hospitais de nível 1/2 e os 3 poderiam ajudar na leitura.

**Resposta 7**

No sentido de tornarmos os resultados mais claros alterámos uma parte da metodologia utilizada na análise das respostas. Obtivemos resultados diferentes atendendo a que as alterações realizadas na metodologia diminuíram o *n* da nossa amostra.

Apresentamos uma parte dos resultados em tabela, diferenciando hospitais de nível 1/2 e os 3, como sugerido.

Tabela . Referenciação das crianças com SC/SPA para Pediatria/subespecialidade, Oftalmologia, Genética e SNIP

|  |  |
| --- | --- |
| REFERENCIAÇÃO | GRAU DE DIFERENCIAÇÃO DO HOSPITAL E DO SERVIÇO DE ORL |
| Consulta (n = ES representadas) | Crianças c/ SC/SPA referenciadas | H nível 1/2ORL A (n) | H nível 1/2ORL B (n) | H nível 1/2ORL C (n) | H nível 3 (n) | Totaln (%) |
| Pediatria/subespecialidaden=30 | Todas |  | 4 | 3 |  | 7 |
| Nenhuma (por rotina) | 1 | 6 | 4 | 4† | 15 |
| Se DA de determinada gravidade (qual) |  | 7 (6 DA≥ moderado; 1 DA≥severo |  | 1 (DA ≥ moderado) | 8 |
| Total | 30 |
| Terapia da Falan= 23 | Todas |  | 7 | 1 | 2 | 10 (44%) |
| Nenhuma (por rotina) | 1 | 2 | 1 |  | 4 (17%) |
| Se DA de determinada gravidade (qual) |  | 2 (DA ≥ moderado) | 4 (DA ≥ moderado) |  | 6 (26%) |
| “Não sei responder (…)” |  |  | 3 |  | 3 (13%) |
| Total | 23 |
| Oftalmologian=23 | Todas |  |  | 4 |  | 4 (17%) |
| Nenhuma (por rotina) | 1 | 7 | 3 | 2 | 13 (57%) |
| Se DA de determinada gravidade (qual) | 1 (DA ≥ severo) |  |  |  | 1 (4%) |
| “Não sei responder (…)” |  | 2 | 3 |  | 5 (22%) |
| Total | 23 |
| Genétican=23 | Todas |  | 1 | 2 | 2 | 5 (22%) |
| Nenhuma (por rotina) |  | 1 | 5 |  | 6 (26%) |
| Se DA de determinada gravidade (qual) | 1(DA≥ severo) | 4 (3 DA ≥ moderado; 1 DA ≥ severo) | 3 (2 DA ≥ moderado; 1 DA ≥ severo) |  | 8 (35%) |
| “Não sei responder (…)” |  | 1 | 3 |  | 4 (17%) |
| Total | 23 |
| SNIPn=23 | Todas |  | 3 | 3 | 1 | 7 (30%) |
| Raramente |  | 1 | 1 | 1 | 3 (13%) |
| “Não sei responder (…)” | 1 | 7 | 5 |  | 13 (57%) |
| Total | 23 |

Legenda:

DA – Défice auditivo; ES – Entidade de Saúde; H – Hospital; ORL – Otorrinolaringologia; SC/SPA – Surdez Congénita/Surdez Precocemente Adquirida; SNIPI – Sistema Nacional de Intervenção Precoce na Infância;

ORL A - Realiza o seguimento de todas as crianças com DA até à colocação do implante coclear (inclusive); ORL B - Realiza o seguimento de todas as crianças com DA, exceto aquelas que têm indicação para colocação de implante coclear; ORL C- Desconhece-se o seguimento que realiza

† 1 das entidades de saúde é uma maternidade

**Comentário 8**

Referências: a literatura existente foi considerada de forma apropriada? Do meu conhecimento existe uma tese de Mestrado “Rastreio Auditivo Neonatal Universal em Portugal: Ponto da Situação” da autora Ana Rita Ferreira Canas dos Santos que aborda em alguns pontos o mesmo tema e que poderia ser referida.

**Resposta 8**

Essa referência bibliografia foi acrescentada (ref. 37), é ser mencionada na Introdução e na Discussão.

**Comentário 9**

Tabelas / Figuras: a sua mensagem é bem clara sem ser necessário a referência no texto principal? A tabela nº2 é de difícil leitura e o seu contexto não está bem explícito no texto.

**Resposta 9**

A tabela 2 deixou de existir.

**Comentário 10**

Agradecimentos: identifica a fonte de financiamento? Não Identifica
conflitos de interesse?  Não

**Resposta 10**

Como o devemos fazer?

**Comentário 11**

Extensão: o manuscrito pode ser encurtado sem eliminar aspectos fundamentais? Revisão da apresentação dos resultados. O trabalho perde-se na apresentação dos resultados. Na minha opinião esta devia ser revista e simplificada em tabelas. Há muita repetição das hipóteses de resposta (às questões de escolhe múltiplas” no texto A tabela já existente é extensa e de difícil leitura./ As figuras/tabelas podem ser eliminadas ou melhoradas? A tabela nº 2
deveria ser melhorada/ Apresentação: o manuscrito é apresentado de uma forma clara e lógica? Se não, pode ser melhorado? Como? A seção dos resultados deverá ser
melhorada

**Resposta 11**

Alteramos a forma de apresentação de resultados (para tal tivemos de alterar também a forma como descrevemos a metodologia utilizada). A tabela referida já não existe.

**Comentário 12**

Recomendação de publicação: Acha que o manuscrito deve ser publicado na AMP? Porquê? Porque não? Acho que sim após revisão dos resultados e esclarecimento dos métodos.

**Resposta 12**

Clarificámos a metodologia utilizada e reanalisámos alguns dados por forma a simplificar os resultados apresentados. Os dados são agora apresentados de outra forma.

Os autores agradecem a decisão de considerar a publicação do artigo e esperam que as alterações realizadas sejam do agrado dos Revisores e da Equipa Editorial e vão ao encontro das suas expectativas.

Atenciosamente,

Catarina S Oliveira (autor correspondente).