

3.2 Resultaten diagnostiek

De belangrijkste kwaliteitscriteria voor de diagnostiek zijn een deelnamepercentage van tenminste 98% en afronding van de diagnostiek vóór de leeftijd van 4 maanden (122 dagen) ($\geq 95\%$; zie tabel 2.1). Hoge deelname aan diagnostiek voor verwezen kinderen is nodig vanwege het hoge risico dat er daadwerkelijk een gehoorverlies aanwezig is. Qua leeftijd is het belangrijk dat diagnose op tijd gesteld wordt, zodat een eventuele interventie kan starten voordat een kind een half jaar oud is (Yoshinaga, 1998). Er wordt in het Fenac-protocol wel onderscheid gemaakt tussen kinderen die verwezen zijn met een unilaterale refer en kinderen die verwezen zijn met een bilaterale refer.

3.2.1 Deelname diagnostiek

In totaal zijn er in 2008 607 kinderen die via de screening geen voldoende uitslag aan één of beide oren hebben gehaald. 504 van deze kinderen hebben het protocol van 3 screeningsronden gevolgd, terwijl 103 kinderen het ziekenhuisprotocol volgden of om een andere reden minder dan 3 screeningsronden hebben gekregen. Van deze 607 kinderen zijn er 601 die diagnostisch onderzoek op het AC zouden moeten krijgen (tabel 3.2.1). Bij de overige 6 kinderen (allen minder dan 3 screeningsronden) is geen verwijzing geweest vanwege pathologie (4x), ‘voldoende afgesloten’ (1x) en (achteraf gebleken) behorend tot de NICU-screenpopulatie (1x). Daarnaast hebben bij 2 kinderen de ouders gelijk geweigerd om naar het AC te gaan, en heeft daarom geen verwijzing plaats gevonden. Omdat bij deze kinderen in feite wel diagnostiek nodig is, tellen deze kinderen toch mee bij het aantal verwezen kinderen.

Tabel 3.2.1 Minimale deelname diagnostiek, landelijk en per uitvoeringsvariant, 2008 (Maximale deelname tussen haakjes)

Kwaliteitsnorm $\geq 98\%$	Hielprik		CB		Totaal	
	aantal (noemer)	% deelname	aantal (noemer)	% deelname	aantal (noemer)	% deelname
Alle via screening verwezen	442	95,0% (96,4%)	159	95,6% (97,5%)	601	95,2%* (96,7%)
Na 3 screeningsronden	370	95,7% (96,8%)	134	96,3% (97,8%)	504	95,8%* (97,0%)
Na <3 screeningsronden	72	91,7% (94,4%)	25	92,0% (96,0%)	97	91,8%* (94,8%)

*Van 9 kinderen (6 uit de groep ‘na 3 screeningsronden’ en 3 uit de groep ‘na <3 screeningsronden’) was in juli 2010, d.w.z. 18-30 maanden na geboorte, nog onbekend of deze kinderen hebben deelgenomen aan diagnostiek en wat de uitkomst was. Deze zijn verwerkt als zijnde “geen deelname”. Als al deze kinderen toch zouden hebben deelgenomen wordt de deelname aan diagnostiek voor alle via de screening verwezen kinderen 97,0%. In werkelijkheid zal de deelname aan de diagnostiek dus tussen de 95,8% en de 97,0% liggen.

Bij 20 kinderen is definitief geen deelname vastgesteld. Echter, bij 9 andere kinderen (1,5% van de verwezen kinderen) was in juli 2010, dus 18-30 maanden na geboorte, dit nog steeds niet bekend omdat geen definitieve diagnose is doorgegeven voor de monitoring. Van vijf van hen is niet bekend of deze bij het AC terecht is gekomen, bij 4 kinderen was wel een datum van 1^e bezoek aan het AC doorgegeven maar geen diagnose, dus deze kinderen hebben mogelijk het diagnostisch traject niet afgerond. Als aangenomen wordt dat alle 9 kinderen het diagnosetraject niet afronden, is de deelname 95,2%, terwijl als aangenomen wordt dat al deze kinderen wel bij het AC zijn gediagnosticeerd de deelname 96,7% is (tabel 3.2.1).

De kwaliteitsnorm voor deelname aan diagnostisch onderzoek ($\geq 98\%$) wordt in beide gevallen niet gehaald.

Het percentage verwezen kinderen dat deelneemt aan diagnostiek op het AC is iets hoger bij JGZ-organisaties die op het CB screenen als bij de hiehprik-organisaties. Verder is de deelname aan diagnostiek op het AC groter bij kinderen die na drie screeningsronden verwezen zijn dan bij kinderen die na minder dan 3 screeningsronden verwezen zijn.

Over de deelname ten opzichte van 2006 is het volgende te zeggen: In totaal was de deelname aan diagnostiek in 2006 tussen 87,5% en 92,6%, en nu tussen 95,2% en 96,7%. De deelname voor de hiehprik-organisaties was in 2006 tussen 84,2% en 91,5%, nu tussen 95,0% en 96,4% en voor de CB-organisaties toen tussen 93,4% en 96,7%, nu tussen 95,6% en 97,5%. Met name dankzij de verbeteringen bij de hiehprik-organisaties is er dus een verbetering opgetreden t.o.v. 2006.

Het is erg jammer dat juist bij het diagnostisch onderzoek op het AC de deelname-norm niet wordt gehaald, omdat de kans dat een kind na drie refers werkelijk een gehoorverlies heeft zeer groot is.

Deelname screening en diagnostiek gecombineerd

Een kind met een gehoorstoornis wordt alleen ontdekt als het aan alle screeningsronden en aan het diagnostisch onderzoek deelneemt. Onder de aanname dat de deelname bij kinderen met een gehoorstoornis even hoog is als bij kinderen zonder gehoorstoornis, is voor de kinderen die na drie screeningsronden verwezen zijn te berekenen dat met de behaalde deelnamepercentages landelijk 4,9% tot 6,1% van de slechthorende kinderen onontdekt blijft door geen deelname (namelijk $100\% - 99,3\% \times 99,4\% \times 99,3\% \times 95,8\%$ resp. $97,0\%$, zie deelname screening in tabel 3.1.1 en deelname diagnostiek na 3 screeningsronden in tabel 3.2.1).

3.2.2 *Uitkomsten diagnostiek*

Bij de indeling van de uitkomsten van de diagnostiek zijn de kinderen waarvan de diagnose onbekend is, buiten beschouwing gelaten. Het betrof 20 kinderen met bevestigde "geen deelname aan diagnostiek" en 9 kinderen geboren in 2008 van wie de diagnose in juli 2010 nog onbekend was.

De hieronder gepresenteerde uitkomsten zijn definitief omdat per juli 2010 alle uitkomsten van het AC bekend zijn of vastgesteld is dat deze niet meer achterhaald kunnen worden.

Tabel 3.2.2 Uitkomsten diagnostisch onderzoek per uitvoeringsvariant in relatie tot uni- of bilaterale refer vanuit de screening, 2008

	Hielprik		CB		Totaal	
	Aantal	%	Aantal	%	Aantal	%
Alle refer						
normaal	246	58,6%	94	61,8%	340	59,4%
unilateraal gehoorverlies	76	18,1%	20	13,2%	96	16,8%
bilateraal gehoorverlies	98	23,3%	38	25,0%	136	23,8%
totaal aantal diagnose gesteld	420		152		572	
Na unilaterale refer						
normaal	201	69,1%	75	71,4%	276	69,7%
unilateraal gehoorverlies	72	24,7%	18	17,1%	90	22,7%
bilateraal gehoorverlies	18	6,2%	12	11,4%	30	7,6%
totaal aantal diagnose gesteld	291		105		396	
Na bilaterale refer						
normaal	45	34,9%	19	40,4%	64	36,4%
unilateraal gehoorverlies	4	3,1%	2	4,3%	6	3,4%
bilateraal gehoorverlies	80	62,0%	26	55,3%	106	60,2%
totaal aantal diagnose gesteld	129		47		176	

Unilateraal gehoorverlies verwijst naar perceptief of permanent conductief gehoorverlies ≥ 40 dB aan één oor. Dit is resp. 89 en 7 keer vastgesteld. Bilateraal gehoorverlies verwijst naar perceptief of permanent conductief gehoorverlies ≥ 40 dB aan beide oren. Dit is resp. 135 en 1 keer vastgesteld.

Van alle verwezen kinderen bleek 59,4% geen permanent gehoorverlies ≥ 40 dB te hebben, terwijl 16,8% een unilateraal verlies had en 23,8% een bilateraal verlies (tabel 3.2.2). Kinderen verwezen vanuit CB-organisaties hebben bijna even vaak geen gehoorverlies als kinderen uit de hielprik-organisaties (61,8% resp. 58,6%).

Dit is opmerkelijk gezien het feit dat een veel hoger percentage vanuit het screeningsprotocol werd doorverwezen (0,40% vanuit CB, 0,26% vanuit hielprik, zie tabel 3.1.4), terwijl er in eerste instantie geen reden lijkt te zijn om aan te nemen dat de prevalentie van gehoorstoornissen hoger is bij de CB-organisaties. Maar mogelijk ligt de reden toch in het feit dat de prevalentie van slechthorendheid wel degelijk hoger is in de regio's die door de CB-organisaties gedekt worden. Deze omvat een belangrijk deel van de 'bible belt', waar de prevalentie van erfelijke slechthorendheid mogelijk groter is. Via geografische projectie, op basis van postcode, zou deze hypothese getoetst kunnen worden.

Vanuit beide uitvoeringsvarianten hadden kinderen die verwezen werden met een bilaterale refer een kans van 63,6% op gehoorverlies, en kinderen die verwezen werden met een unilaterale refer een kans van 30,3% (tabel 3.2.2).

Het maakte bijna geen verschil in kans op gehoorverlies of een kind na 3 screeningsrondes of minder dan 3 screeningsrondes verwezen werd (resp. 40,6% en 40,4%, tabel 3.2.2a); oftewel, als eerder wordt doorverwezen, dan was dit even vaak terecht. Bij de kinderen die na minder dan 3 screeningsrondes zijn verwezen is vaker een bilateraal gehoorverlies vastgesteld dan bij kinderen die na 3 screeningsrondes werden verwezen (resp. 29,2% en 22,8%, tabel 3.2.2a).

Tabel 3.2.2a Uitkomsten diagnostisch onderzoek per screentraject, 2008

	Verwezen na 3 screeningsronden		Verwezen na <3 screeningsronden		Totaal	
	Aantal	%	Aantal	%	Aantal	%
Alle refer						
normaal	287	59,4%	53	59,6%	340	59,4%
unilateraal gehoorverlies	86	17,8%	10	11,2%	96	16,8%
bilateraal gehoorverlies	110	22,8%	26	29,2%	136	23,8%
totaal aantal diagnose gesteld	483		89		572	

De meeste kinderen met een unilaterale refer hebben een normaal gehoor (69,7%). Net als in het implementatiejaar en in 2006 blijken kinderen met een unilaterale verwijzing een bilateraal gehoorverlies te kunnen hebben (nu 7,6%, in 2006 7,8%, in implementatiejaar 6,7%, tabel 3.2.2b). Deze gehoorverliezen bevinden zich meestal rond de opsporingsgrens. Van alle 136 kinderen met een bilateraal gehoorverlies is 22% (30 kinderen) verwezen vanuit een unilaterale refer. De meeste kinderen met een bilaterale refer hebben een normaal gehoor (36,4% in 2008) of een bilateraal gehoorverlies (60,2% in 2008).

Tabel 3.2.2b. Uitkomsten diagnostisch onderzoek in relatie tot uni- of bilaterale refer vanuit de screening, voor 2008, 2006 en het implementatiejaar

	Totaal 2008		Totaal 2006		Totaal implementatiejaar	
	Aantal	%	Aantal	%	Aantal	%
Alle refer						
normaal	340	59,4%	333	65,8%	314	59,1%
unilateraal gehoorverlies	96	16,8%	61	12,1%	89	16,8%
bilateraal gehoorverlies	136	23,8%	112	22,1%	128	24,1%
totaal aantal diagnose gesteld	572		506		531	
Na unilaterale refer						
normaal	276	69,7%	239	74,2%	249	69,9%
unilateraal gehoorverlies	90	22,7%	58	18,0%	83	23,3%
bilateraal gehoorverlies	30	7,6%	25	7,8%	24	6,7%
totaal aantal diagnose gesteld	396		322		356	
Na bilaterale refer						
normaal	64	36,4%	94	51,1%	65	37,1%
unilateraal gehoorverlies	6	3,4%	3	1,6%	6	3,4%
bilateraal gehoorverlies	106	60,2%	87	47,3%	104	59,4%
totaal aantal diagnose gesteld	176		184		175	

3.2.3 Leeftijd bij diagnostiek en tijd tussen verwijzing en eerste bezoek aan het AC

Leeftijd bij diagnostiek landelijk en per uitvoeringsvariant

De leeftijd bij het 1^e onderzoek op AC en bij afronden diagnostiek per uitvoeringsvariant is weergegeven in tabel 3.2.3. Zowel de kwaliteitsnorm dat 95% van de verwezen kinderen een 1^e AC-bezoek moeten hebben gehad binnen 92 dagen (3 maanden), als ook de kwaliteitsnorm dat bij 95% een diagnose gesteld moet zijn binnen 122 dagen (4 maanden) worden gemiddeld niet gehaald in beide uitvoeringsvarianten.

Kinderen met een bilaterale refer worden eerder opgeroepen dan kinderen met een unilaterale refer. De kans dat kinderen met een bilaterale refer daadwerkelijk een gehoorverlies hebben is groter dan bij kinderen met een unilaterale refer (zie vorige paragraaf). Het stellen van de uiteindelijke diagnose is bij kinderen met een gehoorverlies vaak lastiger dan bij kinderen die op het AC een normaal gehoor blijken te hebben, en duurt naar verwachting langer.

Dit kan de verklaring zijn voor de bevinding dat het percentage kinderen dat na 4 maanden is gediagnosticeerd ongeveer vergelijkbaar is geworden voor uni- en bilaterale refer (resp. 16,0% en 14,1%) ondanks het verschil in leeftijd van eerste bezoek aan het AC ten gunste van de kinderen met een bilaterale refer (14,2%, versus 22,8% bij een unilaterale refer). In 2008 is de diagnose bij kinderen met een gehoorverlies even snel gesteld als bij de groep van alle verwezen kinderen (% kinderen dat op leeftijd \geq 122 dagen een diagnose krijgt is 15,0% voor de kinderen met gehoorverlies versus 15,4% voor de hele groep verwezen kinderen).

De leeftijd tijdens het 1^e AC-bezoek is in 2008 enigszins achteruit gegaan t.o.v. 2006: het % kinderen dat pas na 92 dagen een eerste onderzoek op het AC kreeg is vermeerderd van 13,6% in 2006 naar 20,1% in 2008. Dit is nog wel beter dan in het implementatiejaar, toen 23,0% pas na 92 dagen een eerste onderzoek op het AC kreeg (Kauffman et al, 2006). De diagnostiek wordt nu door 15,4% niet afgerond binnen 122 dagen. In 2006 was dit beter (8,4%), maar in het implementatiejaar slechter (19,7%, zie bijlage A, indicator "Tijdigheid afronden diagnostiek op het AC"). De kwaliteitsnorm dat bij 95% de diagnose binnen 4 maanden moet worden afgerond is nog nooit gehaald, ook in 2008 niet. De subgroep kinderen met een gehoorverlies die door de hiepruk-organisaties werden gescreend zit er het dichtst bij met 88,2% (tabel 3.2.3).

Opgemerkt moet worden dat de resultaten waarschijnlijk iets vertekend zijn om de volgende reden:

1) Wanneer het audiologisch centrum niet rapporteert op welke datum een kind is onderzocht, wordt de datum van de brief als datum van eerste bezoek gehanteerd. Deze datum ligt veelal later dan de feitelijke onderzoeksdatum. Hoeveel verschil hier tussen zit is niet bekend, maar in werkelijkheid liggen de resultaten hierdoor waarschijnlijk iets gunstiger.

Bij de kinderen verwezen uit hiepruk-organisaties vond de diagnostiek gemiddeld op jongere leeftijd plaats dan bij de kinderen verwezen uit CB-organisaties (tabel 3.2.3). Dit komt vooral doordat kinderen die gescreend werden op het CB al ouder waren bij verwijzing naar het AC.

Tabel 3.2.3. Leeftijd bij 1^e onderzoek op AC en bij afronden diagnostiek, landelijk en per uitvoeringsvariant, 2008

Leeftijd bij 1e onderzoek op AC (norm ≥95% binnen 92 dagen)	Hieiprik	CB	Totaal
Alle (N=551)			
Mediaan (in dagen)	51	72	57
95e percentiel (in dagen)	135	147	135
% kinderen dat kwaliteitsnorm niet haalt (≥ 92 dagen)	16,9%	29,6%	20,1%
Gehoorverlies (N=225)			
Mediaan (in dagen)	44	66	51
95e percentiel (in dagen)	112	149	119
% kinderen dat kwaliteitsnorm niet haalt (≥ 92 dagen)	13,5%	20,4%	15,1%
Na unilaterale refer vanuit de screening (N=382)			
Mediaan (in dagen)	57	77	61
95e percentiel (in dagen)	139	177	144
% kinderen dat kwaliteitsnorm niet haalt (≥ 92 dagen)	19,1%	33,3%	22,8%
Na bilaterale refer vanuit de screening (N=169)			
Mediaan (in dagen)	39	62	46
95e percentiel (in dagen)	133	121	128
% kinderen dat kwaliteitsnorm niet haalt (≥ 92 dagen)	11,9%	20,9%	14,2%
Leeftijd bij afronden diagnostiek (norm ≥95% binnen 122 dagen)	Hieiprik	CB	Totaal
Alle (N=551)			
Mediaan (in dagen)	56	77	61
95e percentiel (in dagen)	205	202	204
% kinderen dat kwaliteitsnorm niet haalt (≥ 122 dagen)	14,0%	19,6%	15,4%
Gehoorverlies (N=226)			
Mediaan (in dagen)	49	76	55
95e percentiel (in dagen)	214	228	220
% kinderen dat kwaliteitsnorm niet haalt (≥ 122 dagen)	11,8%	25,0%	15,0%
Na unilaterale refer vanuit de screening (N=381)			
Mediaan (in dagen)	61	81	64
95e percentiel (in dagen)	205	212	205
% kinderen dat kwaliteitsnorm niet haalt (≥ 122 dagen)	14,2%	21,2%	16,0%
Na bilaterale refer vanuit de screening (N=170)			
Mediaan (in dagen)	43	65	51
95e percentiel (in dagen)	196	177	177
% kinderen dat kwaliteitsnorm niet haalt (≥ 122 dagen)	13,5%	15,9%	14,1%

Vet gedrukte getallen geven aan dat de kwaliteitsnorm niet gehaald wordt.

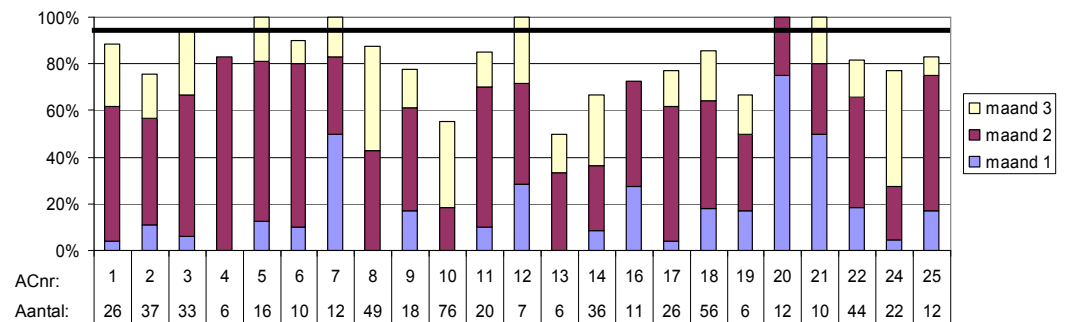
De mediaan is de leeftijd waarbinnen 50% van de kinderen is gescreend. Het 95^e percentiel is de leeftijd waarbinnen 95% van de kinderen is gescreend. De mediaan is dus gelijk aan het 50^e percentiel.

N is het aantal kinderen dat bij de berekening is meegenomen. Kinderen met diagnose maar zonder datum van 1^e onderzoek op AC of datum afronding diagnostiek konden niet in de berekening worden meegenomen.

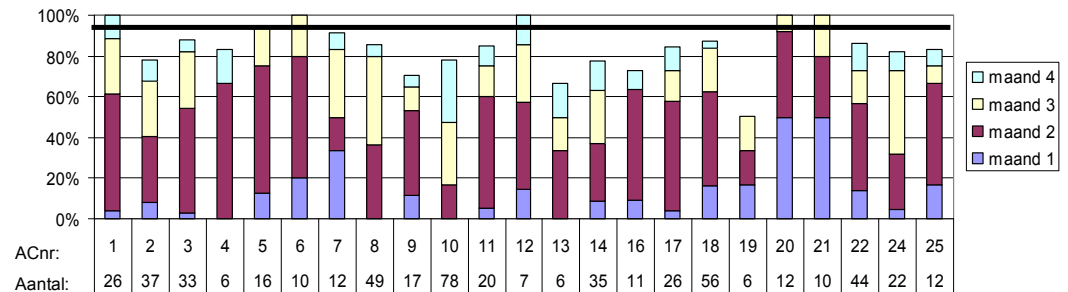
Leeftijd bij diagnostiek per AC

De leeftijd bij het 1^e AC-bezoek en de leeftijd waarop de diagnose is afgerond is voor de afzonderlijke AC's gepresenteerd in figuur 3.2.1 en 3.2.2 (de bijbehorende percentages en het aantal kinderen per AC staan in tabellen B3.2.3a en B3.2.3b in bijlage B). De resultaten per AC zijn gebaseerd op kleine aantallen kinderen: 4 van de 23 AC's hebben in 2008 minder dan 10 kinderen een diagnose gegeven. De percentages kinderen die binnen 4 maanden (122 dagen) een afgeronde diagnose hebben verschillen sterk tussen de AC's. De kwaliteitsnorm dat minstens 95% van de verwezen kinderen een afgeronde diagnose heeft voor de leeftijd van 4 maanden wordt door 5 van de 23 AC's gehaald.

Figuur 3.2.1 Leeftijd bij 1e onderzoek AC in 2008, per AC. In de tabel onder de figuur zijn de aantallen kinderen per AC waar de berekening op gebaseerd zijn weergegeven.



Figuur 3.2.2 Leeftijd bij afronding diagnose in 2008, per AC



Tijd tussen verwijzing na afronding van de screening en eerste bezoek aan AC, landelijk en per uitvoeringsvariant

In tabel 3.2.4a is het tijdsinterval tussen de laatste screening en het eerste bezoek aan het AC weergegeven, zowel voor alle kinderen voor wie beide data bekend zijn als per uitvoeringsvariant. Bijna de helft van deze kinderen (47,5%) brengt binnen 4 weken na een negatief resultaat van de laatste screening een bezoek aan het AC. Binnen 2 maanden is 81,5% geweest. De tijdsduur tussen verwijzing en eerste bezoek aan het AC is groter voor de via de CB-organisaties verwezen kinderen dan de via de hiehprik-organisaties verwezen kinderen (resp. 33,1% en 52,6% komt binnen 4 weken na verwijzing). Omdat de leeftijd bij laatste screening ook al hoger is voor de via de CB-organisaties verwezen kinderen dan voor de via de hiehprik-organisaties verwezen kinderen (zie figuur 3.1.3), zullen via de CB-organisaties verwezen kinderen gemiddeld een nog hogere leeftijd hebben bij het eerste bezoek aan het AC dan de via de hiehprik-

organisaties verwezen kinderen. Dit bleek ook al uit de resultaten hierboven over leeftijd bij diagnostiek.

Er is een verschil tussen uni- en bilaterale refer (tabel 3.2.4b): 66,3% van de kinderen met een bilaterale refer brengt binnen 4 weken een bezoek aan het AC, tegen 39,3% van de kinderen met een unilaterale refer. Het verschil wordt kleiner als gekeken wordt naar het percentage dat binnen 2 maanden een bezoek brengt aan het AC: 89,3% van de kinderen met bilaterale refer en 78,0% van de kinderen met unilaterale refer.

Tabel 3.2.4a Tijd tussen de laatste screening en het eerste bezoek aan het AC, landelijk en per uitvoeringsvariant, 2008

Criterium*	Hiehprik			CB			Totaal		
	aantal	%	% cumulatief	aantal	%	% cumulatief	aantal	%	% cumulatief
week 1	27	6,6	6,6	2	1,4	1,4	29	5,3	5,3
week 2	57	13,9	20,5	9	6,3	7,7	66	12,0	17,2
week 3	71	17,4	37,9	13	9,2	16,9	84	15,2	32,5
week 4	60	14,7	52,6	23	16,2	33,1	83	15,1	47,5
maand 2	126	30,8	83,4	61	43,0	76,1	187	33,9	81,5
maand 3	38	9,3	92,7	20	14,1	90,1	58	10,5	92,0
>3 maanden	30	7,3	100,0	14	9,9	100,0	44	8,0	100,0
Totaal	409			142			551		

* een week is 7 dagen, maand is 30 dagen, dus week 1= dag 0 t/m6, week 2= dag 7 t/m 13, etc, maand 2=dag 28 t/m 57,etc.

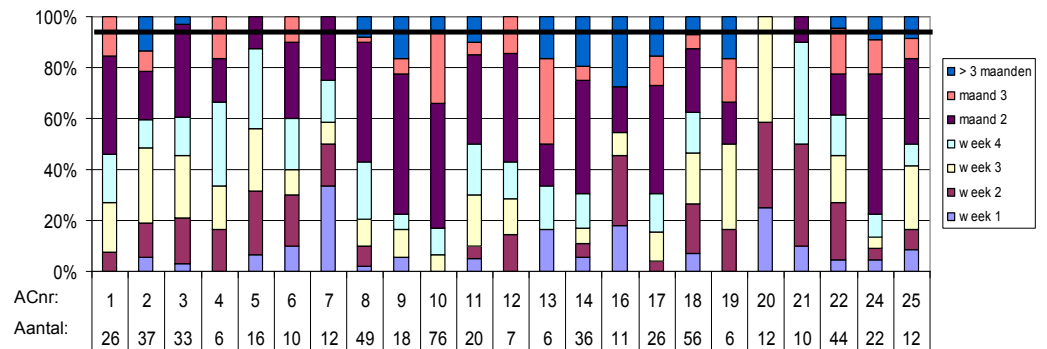
Tabel 3.2.4b Tijd tussen de laatste screening en het eerste bezoek aan het AC, landelijk en uitgesplitst per type refer, 2008

Criterium*	Bilateraal refer			Unilateraal refer			Totaal		
	aantal	%	% cumulatief	aantal	%	% cumulatief	aantal	%	% cumulatief
week 1	17	10,1	10,1	12	3,1	3,1	29	5,3	5,3
week 2	33	19,5	29,6	33	8,6	11,8	66	12,0	17,2
week 3	40	23,7	53,3	44	11,5	23,3	84	15,2	32,5
week 4	22	13,0	66,3	61	16,0	39,3	83	15,1	47,5
maand 2	39	23,1	89,3	148	38,7	78,0	187	33,9	81,5
maand 3	9	5,3	94,7	49	12,8	90,8	58	10,5	92,0
>3 maanden	9	5,3	100,0	35	9,2	100,0	44	8,0	100,0
Totaal	169			382			551		

* een week is 7 dagen, maand is 30 dagen, dus week 1= dag 0 t/m6, week 2= dag 7 t/m 13, etc, maand 2=dag 28 t/m 57,etc.

Tijd tussen verwijzing na afronding van de screening en eerste bezoek aan AC, per AC
De resultaten per AC verschillen sterk (zie figuur 3.2.3 en Bijlage B, tabel B3.2.4): bij één AC (AC 10) is in 2008 maar 17% van de kinderen binnen 4 weken na verwijzing gezien, terwijl bij andere AC's (AC 5, 20 en 21) dit 80% of meer is. Bij AC 20 was 100% binnen 3 weken na verwijzing gezien.

Figuur 3.2.3 Tijd tussen de laatste screening en het eerste bezoek aan het AC in 2008, per AC



3.3 Validiteit van landelijk screeningsprogramma

De validiteit van een screeningsprogramma is het vermogen om personen die ziek zijn te onderscheiden van personen die niet ziek zijn. Bij de neonatale gehoorscreening gaat het om het onderscheid tussen baby's met een gehoorverlies (perceptief of permanent conductief uni- of bilateraal ≥ 40 dB) en baby's met een normaal gehoor. Vaak wordt validiteit uitgedrukt met de sensitiviteit, specificiteit en positief voorspellende waarde.

- De *sensitiviteit* geeft aan hoe gevoelig het screeningsprogramma is, d.w.z. welk deel van de baby's met een gehoorverlies wordt opgespoord. Omgekeerd gaat het hierbij ook om de vraag of er slechthorende of dove kinderen gemist worden bij de screening.
- De *specificiteit* geeft aan welk deel van de kinderen zonder gehoorverlies terecht niet worden doorverwezen. Omgekeerd kan dus ook worden bepaald in welke mate kinderen onterecht worden doorverwezen, wat onnodige inspanningen en kosten en ongerustheid met zich meebrengt.
- De *positief voorspellende waarde* geeft aan wat de kans is op slechthorendheid indien het kind vanuit de screening wordt doorverwezen naar het AC.

Met onderstaande tabel is geïllustreerd hoe deze testeigenschappen kunnen worden berekend.

		Uni- of bilateraal gehoorverlies		
		Aanwezig	Afwezig	
Screenuitslag	Verwezen	a	b	a+b
	Niet-verwezen	c	d	c+d
		a+c	b+d	a+b+c+d
		Sens: $a/(a+c)$	Spec: $d/(b+d)$	

PPV: $a/(a+b)$

In dezelfde tabel zijn hieronder de uit de screening bekende getallen ingevuld voor het jaar 2008. Er zijn 601 kinderen verwezen, van wie zeker 232 een gehoorverlies hadden en 340 niet. De overige 29 kinderen², bij wie onbekend is of ze een gehoorverlies hebben, zijn in dezelfde verhouding verdeeld over de twee kolommen.

		Uni- of bilateraal gehoorverlies		
		Aanwezig	Afwezig	
Screen- uitslag	Verwezen	232 (zeker)+12*=244*	340 (zeker) + 17*=357*	601
	Niet-verwezen	c	d	180.851
		363 [^]	181.452 – 232 (-12)- c	181.452

* Schatting op basis van aantal met onbekende diagnostiek-uitslag.

[^] Schatting op basis van aanname dat 2/1000 kinderen van de JGZ-populatie een uni-of bilateraal gehoorverlies hebben

3.3.1 Specificiteit

Er is een minimumwaarde van de specificiteit te schatten op basis van de in de tabel ingevulde resultaten van de screening. Deze is $d/(b+d) = 1 - b/(b+d)$. De maximale waarde van b is $601-232=369$. Een schatting van b+d is 181.452 min het aantal kinderen met uni- of bilateraal gehoorverlies (grove aanname: 363). De specificiteit is dan minimaal $1 - 369/(181.452-363) = 1 - 0,2\% = 99,8\%$. Deze berekening is robuust t.o.v. de aannamen, d.w.z. bij andere aannamen voor de prevalentie en de diagnostiek-uitslag van de verwezen kinderen zonder uitslag blijft de specificiteit bijna hetzelfde. Omdat deze waarde hoog is, mogen we zeer tevreden zijn over de specificiteit van de screening.

3.3.2 Sensitiviteit

De berekening van de sensitiviteit is heel gevoelig voor de aanname over de prevalentie van gehoorverlies in de JGZ-populatie. Dit is snel duidelijk met twee verschillende berekeningen die allebei mogelijk zijn: $232/454=51,1\%$ (454 als de prevalentie 2,5/1000 is) of (zie tabel, bij een prevalentie van 2/1000) $(601-340)/363 = 261/363$ is 71,9%. Er is dus veel onzekerheid over de sensitiviteit.

De belangrijkste groep kinderen die met de screening moeten worden opgespoord zijn de kinderen met een bilateraal gehoorverlies. Om in te schatten in hoeverre deze kinderen gemist worden met de screening is een berekening gemaakt op basis van de aannamen dat:

- 1/1000 kinderen een bilateraal gehoorverlies ≥ 40 dB heeft
- een deel van deze kinderen via het NICU-screeningsprogramma ontdekt wordt (prevalentie in NICU-populatie is 1,9%, Van Straaten, 2003).

Het aantal kinderen dat door de JGZ is gescreend is 181.452, en daarnaast waren er 3.414 kinderen die in een NICU zijn opgenomen. De totale populatie is dus 184.866 kinderen, dus we verwachten in totaal 185 kinderen met een bilateraal gehoorverlies. Hiervan zullen er $1,9\% \times 3.414 = 65$ via het NICU-screeningsprogramma worden ontdekt. We verwachten dus, bij een goede, sensitieve screening, $185-65 = 120$ kinderen met een bilateraal gehoorverlies op te sporen via de JGZ. Deze verwachting komt goed uit, want het werkelijke aantal opgespoorde kinderen is (zeker) 136.

Hoewel we tevreden mogen zijn met deze aanwijzing dat er vermoedelijk niet veel kinderen met een bilateraal gehoorverlies worden gemist met de screening, is ook deze schatting onzeker en erg afhankelijk van de aannamen.

² 11 kinderen van wie de diagnose nog niet bekend is en 18 kinderen van wie bekend is dat ze niet deelnemen aan diagnostiek op het AC

3.3.3 *Positief voorspellende waarde (PPV)*

De positief voorspellende waarde is erg belangrijk. Als deze laag is zullen veel kinderen zonder gehoorverlies worden verwezen voor diagnostiek. Dit veroorzaakt niet alleen onnodig werk, mogelijke wachtlijsten bij het AC en ongerustheid bij de ouders, maar tast de geloofwaardigheid van de verwijzing aan. Hiervan kunnen ook kinderen mét gehoorverlies de dupe worden.

De PPV in 2008 is als volgt berekend. Er zijn 601 kinderen verwezen naar het AC. Van 572 van hen is een uitslag bekend (18 kinderen hadden geen deelname en van 11 kinderen is onbekend of zij op het AC zijn gekomen en wat evt. de uitslag was). 96 van de 572 hadden een unilateraal gehoorverlies en 136 een bilateraal gehoorverlies. In totaal hadden dus 232 van de 572 kinderen een gehoorverlies. Dit is 41%. Onder de aanname dat de verwezen kinderen van wie geen uitslag bekend is dezelfde kans hebben op gehoorverlies als de onderzochte kinderen, is de positief voorspellende waarde ook 41%. Op dezelfde manier kan de PPV apart worden berekend voor de hielprik- en CB-organisaties:

	PPV
Hielprik	$(76 + 98) / 420 = 174 / 420 = 41\%$
CB	$(20 + 38) / 152 = 58 / 152 = 38\%$
Samen	$(96 + 136) / 572 = 232 / 572 = 41\%$

De PPV is hoog. Dit betekent dat er weinig onnodige doorverwijzingen naar het AC zijn. Bij beide uitvoeringsvarianten heeft ruim één op de drie verwezen kinderen een gehoorverlies.

Omdat vanuit de CB-organisaties meer kinderen zijn doorverwezen dan vanuit de hielprik-organisaties (0,40% versus 0,26%), terwijl gehoorverlies naar verwachting bij beide varianten even vaak voorkomt, is te verwachten dat de PPV bij de CB-organisaties lager is dan bij de hielprik-organisaties. Dit is het geval, maar het verschil is kleiner dan verwacht.

De hoge PPV betekent dat het erg belangrijk is dat na een verwijzing ook diagnostisch onderzoek wordt verricht. De kans op gehoorverlies is dan namelijk zeer groot. Doordat 29 verwezen kinderen niet hebben deelgenomen aan de diagnostiek (of in ieder geval uitslag niet bekend) kunnen er 17 kinderen met een gehoorverlies gemist zijn.

De PPV voor bilateraal gehoorverlies bij bilaterale uitval op de screening is $106/176=60\%$.

Dus een kind met een bilaterale uitval op de screening heeft 60% kans op een bilateraal gehoorverlies van in elk geval 40 dB. Voor kinderen met een bilaterale uitval op de screening is het dus nog belangrijker dat na een verwijzing ook diagnostisch onderzoek wordt verricht.

Tabel B3.2.3a Leeftijd bij 1^e onderzoek AC in 2008, per AC cumulatief

AC	Aantal kinderen	t/m maand 1	t/m maand 2	t/m maand 3	t/m maand 4	t/m maand 5	t/m maand 6
1	26	61,5%	88,4%	99,9%	99,9%	99,9%	99,9%
2	37	56,7%	75,6%	86,4%	97,2%	97,2%	99,9%
3	33	66,7%	94,0%	100,1%	100,1%	100,1%	100,1%
4	6	83,3%	83,3%	83,3%	100,0%	100,0%	100,0%
5	16	81,3%	100,1%	100,1%	100,1%	100,1%	100,1%
6	10	80,0%	90,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%
7	12	83,3%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%
8	49	42,9%	87,8%	91,9%	93,9%	98,0%	100,0%
9	18	61,1%	77,8%	83,4%	94,5%	94,5%	100,1%
10	76	18,4%	55,2%	92,0%	98,6%	98,6%	99,9%
11	20	70,0%	85,0%	90,0%	100,0%	100,0%	100,0%
12	7	71,5%	100,1%	100,1%	100,1%	100,1%	100,1%
13	6	33,3%	50,0%	83,3%	100,0%	100,0%	100,0%
14	36	36,1%	66,7%	80,6%	94,5%	97,3%	100,1%
16	11	72,8%	72,8%	72,8%	81,9%	81,9%	100,1%
17	26	61,5%	76,9%	88,4%	88,4%	88,4%	99,9%
18	56	64,3%	85,7%	91,1%	92,9%	92,9%	100,0%
19	6	50,0%	66,7%	83,4%	100,1%	100,1%	100,1%
20	12	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%
21	10	80,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%
22	44	65,9%	81,8%	95,4%	99,9%	99,9%	99,9%
24	22	27,2%	77,2%	95,4%	95,4%	95,4%	99,9%
25	12	75,0%	83,3%	91,6%	91,6%	91,6%	99,9%
Totaal	551	54,8%	79,7%	91,9%	96,6%	97,1%	100,0%

NB. Een maand is hier 30 dagen, hierdoor loopt maand 3 t/m 90 dagen en wijken de percentages over de kwaliteitsnorm dus iets af van die in tabel 4.3.1 (kwaliteitsnorm is < 92 dagen)

Tabel B3.2.3b Leeftijd bij afronding diagnose in 2008, per AC cumulatief

AC	Aantal kinderen	t/m maand 1	t/m maand 2	t/m maand 3	t/m maand 4	t/m maand 5	t/m maand 6
1	26	61,5%	88,4%	99,9%	99,9%	99,9%	99,9%
2	37	40,5%	67,5%	78,3%	97,2%	97,2%	99,9%
3	33	54,5%	81,8%	87,9%	94,0%	97,0%	100,0%
4	6	66,7%	66,7%	83,4%	100,1%	100,1%	100,1%
5	16	75,0%	93,8%	93,8%	93,8%	93,8%	100,1%
6	10	80,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%
7	12	50,0%	83,3%	91,6%	91,6%	99,9%	99,9%
8	49	36,7%	79,6%	85,7%	89,8%	98,0%	100,0%
9	17	53,0%	64,8%	70,7%	82,5%	88,4%	100,2%
10	78	16,7%	47,5%	78,3%	86,0%	89,8%	100,1%
11	20	60,0%	75,0%	85,0%	95,0%	100,0%	100,0%
12	7	57,2%	85,8%	100,1%	100,1%	100,1%	100,1%
13	6	33,3%	50,0%	66,7%	83,4%	100,1%	100,1%
14	35	37,2%	62,9%	77,2%	88,6%	94,3%	100,0%
16	11	63,6%	63,6%	72,7%	81,8%	81,8%	100,0%
17	26	57,6%	73,0%	84,5%	84,5%	84,5%	99,9%
18	56	62,5%	83,9%	87,5%	89,3%	91,1%	100,0%
19	6	33,4%	50,1%	50,1%	66,8%	66,8%	100,1%
20	12	91,7%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%
21	10	80,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%
22	44	56,8%	72,7%	86,3%	90,8%	95,3%	99,8%
24	22	31,8%	72,7%	81,8%	90,9%	90,9%	100,0%
25	12	66,7%	75,0%	83,3%	83,3%	83,3%	100,0%
Totaal	551	48,6%	72,9%	84,3%	90,5%	93,6%	100,0%

NB. Een maand is hier 30 dagen, hierdoor loopt maand 4 t/m 120 dagen, en wijken de percentages over de kwaliteitsnorm dus iets af van die in tabel 4.3.1 (kwaliteitsnorm is < 122 dagen)

Tabel B3.2.4 Tijd tussen de laatste screening en het eerste bezoek aan het AC in 2008, per AC cumulatief

AC	Aantal kinderen	t/m 1 week	t/m 2 weken	t/m 3 weken	t/m 4 weken	t/m 2 maanden	t/m 3 maanden
1	26	7,7%	26,9%	46,1%	84,6%	100,0%	100,0%
2	37	18,9%	48,6%	59,4%	78,3%	86,4%	99,9%
3	33	21,2%	45,4%	60,6%	97,0%	97,0%	100,0%
4	6	16,7%	33,4%	66,7%	83,4%	100,1%	100,1%
5	16	31,3%	56,3%	87,6%	100,1%	100,1%	100,1%
6	10	30,0%	40,0%	60,0%	90,0%	100,0%	100,0%
7	12	50,0%	58,3%	75,0%	100,0%	100,0%	100,0%
8	49	10,2%	20,4%	42,8%	89,7%	91,7%	99,9%
9	18	5,6%	16,7%	22,3%	77,9%	83,5%	100,2%
10	76	0,0%	6,6%	17,1%	65,8%	94,7%	100,0%
11	20	10,0%	30,0%	50,0%	85,0%	90,0%	100,0%
12	7	14,3%	28,6%	42,9%	85,8%	100,1%	100,1%
13	6	16,7%	16,7%	33,4%	50,1%	83,4%	100,1%
14	36	11,2%	16,8%	30,7%	75,1%	80,7%	100,1%
16	11	45,5%	54,6%	54,6%	72,8%	72,8%	100,1%
17	26	3,8%	15,3%	30,7%	73,0%	84,5%	99,9%
18	56	26,7%	46,3%	62,4%	87,4%	92,8%	99,9%
19	6	16,7%	50,0%	50,0%	66,7%	83,4%	100,1%
20	12	58,3%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%
21	10	50,0%	50,0%	90,0%	100,0%	100,0%	100,0%
22	44	27,2%	45,4%	61,3%	77,2%	95,4%	99,9%
24	22	9,0%	13,5%	22,6%	77,1%	90,7%	99,8%
25	12	16,6%	41,6%	49,9%	83,2%	91,5%	99,8%
Totaal	551	17,3%	32,5%	47,6%	81,5%	92,0%	100,0%