

CUSTOS DAS INTERVENÇÕES PARA DIAGNÓSTICO E TRATAMENTO DE ANOMALIAS CONGÊNTAS: REVISÃO DE ESCOPO

COSTS OF INTERVENTIONS OF DIAGNOSIS AND TREATMENT OF CONGENITAL ANOMALIES: SCOPING REVIEW

COSTOS DE LAS INTERVENCIONES PARA EL DIAGNÓSTICO Y TRATAMIENTO DE ANOMALÍAS CONGÉNITAS: REVISIÓN DE ALCANCE

GABRIELLE FREITAS SAGANSKI*
MÁRCIA HELENA DE SOUZA FREIRE**
FERNANDA GABRIELA LEANDRO SCHAEGLER***
SUELLEN DA ROCHA LAGE MORAES****
MICHELLE THAIS MIGOTO*****

RESUMO

Objetivo: Mapear as evidências disponíveis sobre os custos relativos às intervenções para diagnóstico e/ou tratamento de recém-nascidos, crianças e adolescentes com anomalias congênitas, nos diferentes níveis e cenários de atenção à saúde. Material e Método: Revisão de escopo desenvolvida conforme as diretrizes do Instituto Joanna Briggs[®]. A busca compreendeu as bases de dados Web of Science, Scopus, PubMed/MEDLINE e Cinahl. Os estudos foram incluídos conforme os seguintes critérios de elegibilidade: publicação científica que abordaram a análise de custo com pacientes menores de 19 anos, no idioma inglês, espanhol e português. Não foi definida delimitação no período de tempo das publicações científicas. Resultados: Identificados 365 documentos, os quais foram lidos na íntegra e, selecionados 29 para a amostra final. Predomínio dos estudos realizados com menores de um ano, sobre intervenções para tratamentos relativos às anomalias congênitas do sistema cardiovascular e respiratório, no nível terciário de atenção à saúde. Dentre as intervenções houve destaque para a triagem neonatal e a oximetria de pulso, tratamentos cirúrgicos e medicamentosos. Conclusão: Percebeu-se

*Enfermeira, Doutoranda, Programa de Pós-Graduação em Enfermagem, Universidade Federal do Paraná, Curitiba, Paraná, Brasil. ORCID: 0000-0001-9716-659X Email: gabisaga@gmail.com. Autor correspondente

**Enfermeira, Departamento de Enfermagem, Universidade Federal do Paraná, Curitiba, Paraná, Brasil. ORCID: 0000-0002-4788-3221 Email: marciahelenafreire@gmail.com

***Enfermeira, Pós-graduanda em Enfermagem, Faculdades Pequeno Príncipe, Curitiba, Paraná, Brasil. ORCID: 0000-0001-6031-8000 Email: fernandagschaedler@gmail.com

****Enfermeira, Doutoranda, Programa de Pós-Graduação em enfermagem, Universidade Federal do Paraná, Curitiba, Paraná, Brasil. ORCID: 0000-0002-2468-9784 E-mail: suellen_rl@hotmail.com

*****Enfermeira, Doutoranda, Programa de Pós-Graduação em enfermagem Universidade Federal do Paraná, Curitiba, Paraná, Brasil. ORCID: 0000-0002-8546-8694 Email: michellemigoto@gmail.com

que as pesquisas com as anomalias congênitas estão associadas ao diagnóstico precoce e às novas possibilidades de tratamentos e que, os estudos de economia em saúde são escassos em países em desenvolvimento. Esta revisão contribui com a exploração da literatura para orientação de novos estudos com maior aprofundamento, que repercutam na discussão e, na (re)formulação de políticas públicas preventivas da mortalidade fetal, infantil e materna, com foco na triagem neonatal.

Palavras-chave: Custos e Análise de Custo; Diagnóstico; Tratamento Terciário; Enfermagem baseada em evidência; Enfermagem Pediátrica; Anormalidades congênitas.

ABSTRACT

Objective: To map the existing literature about the costs of diagnostic or treatment interventions of newborns, children and adolescents with congenital anomalies, at different levels and health care scenarios. **Material and Method:** Scoping review developed according to the guidelines of the Joanna Briggs Institute. The search focused on the Web of Science, Scopus, PubMed/MEDLINE and Cinahl databases. The studies were selected according to the following eligibility criteria: scientific publication addressing cost analysis with patients under 19 years old; in English, Spanish and Portuguese. The period of publication was not delimited. **Results:** 365 documents were identified, revised and ultimately 29 were selected for the final sample. There was a predominance of studies carried out with children under one year old, on interventions for treatment related to congenital anomalies of the cardiovascular and respiratory system, at the tertiary level of health care. Among the interventions, neonatal screening and pulse oximetry, surgical and medication treatments were highlighted. **Conclusion:** This review shows that research on congenital anomalies is associated with early diagnosis and new treatment possibilities, and that studies on health economics are still scarce in Brazil. This review can contribute to examine the literature and guide new studies with greater depth, reflecting on the discussion and formulation of public policies that prevent maternal, child and fetal mortality, with a focus on neonatal screening.

Key words: Costs and Cost Analysis; Diagnosis; Tertiary Treatment; Evidence-based Nursing; Pediatric Nursing; Congenital Abnormalities.

RESUMEN

Objetivo: Mapear la evidencia disponible sobre los costos de las intervenciones de diagnóstico o tratamiento para recién nacidos, niños y adolescentes con anomalías congénitas, en diferentes niveles y contextos de atención médica. **Material y Método:** Revisión de Alcance desarrollada de acuerdo con las directrices del Instituto Joanna Briggs®. La investigación incluyó las bases de datos Web of Science, Scopus, PubMed/MEDLINE y Cinahl. Los estudios se incluyeron de acuerdo con los siguientes criterios de elegibilidad: publicación científica con pacientes menores de 19 años, en idioma inglés, español y portugués, que abordara el análisis de costos. No se definió delimitación del período de publicación. **Resultados:** Se identificaron 365 documentos, se leyeron en su totalidad y se seleccionaron 29 para la muestra final. Predominaron estudios realizados con niños menores de un año de edad, referidas a intervenciones de tratamiento, en el nivel terciario de atención de salud, relacionados con anomalías congénitas del sistema cardiovascular y respiratorio. Entre las intervenciones, se destacaron el triage neonatal y la oximetría de pulso, los tratamientos quirúrgicos y de medicamentos. **Conclusión:** Se observó que la investigación de anomalías congénitas se asocia con un diagnóstico precoz y nuevas posibilidades de tratamiento. Los estudios sobre economía de la salud aún son escasos en Brasil. La revisión puede contribuir a examinar la literatura y guiar nuevos estudios en mayor profundidad, reflexionando sobre la discusión y formulación de políticas públicas para prevenir la mortalidad materna, infantil y fetal.

Palabras clave: Costos y Análisis de Costo; Diagnóstico; Tratamiento Terciario; Enfermería basada en la evidencia; Enfermería Pediátrica; Anomalías Congénitas.

INTRODUÇÃO

As estimativas da Organização Mundial da Saúde⁽¹⁾ apontam as anomalias congênitas (AC) como responsáveis anuais por cerca de 300.000 óbitos de crianças no primeiro mês de vida, cifra que representa entre 2 a 3% dos recém-nascidos com uma AC maior^(2, 3). Contudo, na América Latina contribuem com mais de 21% da mortalidade de crianças menores de 5 anos⁽⁴⁾.

As AC são definidas como distúrbios que ocorrem durante o desenvolvimento fetal, no útero materno, e estão vinculadas às alterações genéticas, ambientais ou multifatoriais. São classificadas em três grupos: estrutural, quando relacionada a deformidades físicas; funcional, por apresentarem alterações neuromotoras; e metabólica, quando ocorrem alterações químicas complexas que resultam em morbidades diversas⁽⁵⁾.

Em países de baixa e média renda, um grupo importante que contribui para alta mortalidade, são os defeitos do tubo neural, estima-se que causem 29% das mortes referentes as AC⁽³⁾. E as alterações mais comumente geradas afetam sistemas e apontam por prevalências dentre os nascidos-vivos (NV), a saber: musculoesquelético (26/10.000 NV), neurológico (17,20/10.000 NV), cabeça e pescoço (16,73/10.000 NV), e cardiovascular (8,72/10.000 NV). Eventos estes que são via de regra associados ao nascimento prematuro com baixo peso, por via cirúrgica e más condições de vitalidade do neonato no primeiro e quinto minuto de vida⁽⁶⁾, reconhecendo assim, a necessidade de ações de prevenção e cuidados com as mães e bebês, que se configuram desde o planejamento familiar, seguindo pela gestação, o parto e, o nascimento⁽³⁾.

Ademais, as AC retratam a maioria das hospitalizações pediátricas e cirurgias complexas e de elevado custo para o serviço de saúde. As despesas relacionadas às hospitalizações podem chegar a \$80.872 por bebê. Quando comparadas com outros grupos de doenças, as AC que demandam de cirurgias são desproporcionalmente caras para o sistema de saúde⁽⁷⁾. E ainda, impactam no desenvolvimento e crescimento da criança, gerando consequente cenário de dificuldade de inclusão destes indivíduos, com interferência no avanço econômico do país.

Frente aos custos crescentes exigidos por tratamentos das AC tem-se sinalizada a necessidade

de alocação financeira de maneira eficiente. Neste sentido, é relevante que este estudo desenvolva um mapeamento dos avanços em pesquisas sobre os custos de diagnóstico e tratamento frente às anomalias congênitas. Com evidências crescentes os estudos com abordagem de economia em saúde contribuem para a tomada de decisão, elaboração de diretrizes e protocolos clínicos⁽⁸⁾. Com isto lograse subsidiar o planejamento de políticas públicas considerados como pontos chaves para a redução da mortalidade, melhora na qualidade de vida e implementação de intervenções economicamente favoráveis nos diferentes sistemas de saúde⁽⁴⁾.

Nesta perspectiva, o objetivo deste estudo foi mapear as evidências disponíveis sobre os custos das intervenções para diagnóstico ou tratamento de recém-nascidos, crianças e adolescentes com anomalias congênitas, nos diferentes níveis de atenção à saúde.

MATERIAL E MÉTODO

Trata-se de uma Revisão de Scopo desenvolvida a partir das recomendações do Joanna Briggs Institute⁽⁹⁾ e a lista de verificação *Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses Extension for Scoping Reviews* (PRISMA-ScR)⁽¹⁰⁾. Conceituada como um método de mapeamento e resumo de evidências a Revisão de Scopo apresenta-se com rigor metodológico em cada uma de suas etapas de elaboração. Esta modalidade de revisão tem o propósito de viabilizar futuras revisões sistemáticas por favorecer a identificação de lacunas no conhecimento, além de esclarecer conceitos chaves, ou determinar quais tipos de pesquisas têm sido utilizadas na abordagem aos temas de interesse⁽¹¹⁾.

Em síntese, este método de pesquisa é disposto em seis etapas, a saber: 1) Definição da pergunta de pesquisa; 2) Estabelecimento dos critérios de elegibilidade das publicações científicas; 3) Elaboração da estratégia de busca; 4) Realização da triagem e seleção das evidências; 5) Extração dos dados e 6) Análise e apresentação dos resultados⁽⁹⁾.

A pergunta de pesquisa foi definida a partir do mnemônico PCC que se refere a população (P) recém-nascidos, crianças e adolescentes até 19 anos com anomalias congênitas; ao conceito (C) custos das intervenções para diagnóstico ou tratamento;

e o contexto (C) diferentes cenários de atenção à saúde. Concluída como: Quais as evidências disponíveis sobre os custos das intervenções para diagnóstico e tratamento, de recém-nascidos e crianças, com anomalias congênitas, nos diferentes cenários de atenção à saúde?

Para a localização das publicações nacionais e internacionais, foi realizada uma busca em junho de 2019, nas seguintes bases de dados: *Web of Science*, *Scopus*, *PubMed* e *Cinahl*. Utilizaram-se os descritores do *Medical Subject Headings (MESH)* e *entry terms*, associados aos operadores booleanos. Cada base de dados possui especificidades, assim destaca-se que houve adaptações na estratégia de busca, preservando a semelhança na combinação dos descritores (Quadro 1). Para as bases citadas, a padronização da busca aconteceu mediante a utilização do Portal de Periódicos da CAPES, Comunidade Acadêmica Federada (CAFe), e acesso pela Universidade Federal do Paraná (UFPR).

Os critérios de inclusão foram: publicação científica incluindo a população pediátrica e

hebiátrica - menores de 19 anos⁽¹²⁾, no idioma inglês, espanhol e português e que abordaram análise de custo. Não foi definida uma delimitação no período de tempo das publicações científicas. Foram excluídos artigos que não respondessem à pergunta norteadora, resumos e anais de congressos, comentários, editoriais, opiniões de especialistas, estudo de caso único, notas prévias e relatórios, e estudos de revisão.

O número de estudos identificados e o processo de seleção estão apresentados na Figura 1. A amostra foi composta por 29 artigos científicos. Os artigos identificados foram organizados mediante o uso da ferramenta *Mendeley Desktop* Versão 1803 e com apoio do *Microsoft Office Excel* foram lidos títulos e resumos por dois revisores de forma independente, e em sequência ocorreu à leitura na íntegra dos potencialmente elegíveis para o estudo. As discordâncias foram solucionadas por consenso entre os revisores, visando se o artigo atendia aos critérios de elegibilidade.

Quadro 1. Estratégias de busca conforme as bases de dados, realizada em junho 2019.

Bases de Dados	Estratégias de busca
PubMed	((("Infant, Newborn" OR child OR "Child, Preschool" OR children OR Adolescent)) AND ("Heart Defects, Congenital" OR "congenital heart malformation" OR "Abnormalities, Heart" OR "Abnormality, Heart" OR "Congenital Heart Defect" OR "Congenital Heart Defects" OR "Defect, Congenital Heart" OR "Defects, Congenital Heart" OR "Heart Abnormalities" OR "Heart Abnormality" OR "Heart Defect, Congenital" OR "Heart, Malformation Of")) AND ("Cost-Benefit Analysis" OR "Cost Benefit Analyses" OR "Cost Benefit Analysis" OR "Analysis, Cost Benefit" OR "Analysis, Cost-Benefit" OR "Analysis, Cost-Effectiveness" OR "Analysis, Cost-Utility" OR "Health Care Costs"))
Cinahl	((("Infant, Newborn" OR child OR "Child, Preschool" OR children OR Adolescent)) AND ("Heart Defects, Congenital" OR "congenital heart malformation" OR "Abnormalities, Heart" OR "Abnormality, Heart" OR "Congenital Heart Defect" OR "Congenital Heart Defects" OR "Defect, Congenital Heart" OR "Defects, Congenital Heart" OR "Heart Abnormalities" OR "Heart Abnormality" OR "Heart Defect, Congenital" OR "Heart, Malformation Of")) AND ("Cost-Benefit Analysis" OR "Cost Benefit Analyses" OR "Cost Benefit Analysis" OR "Analysis, Cost Benefit" OR "Analysis, Cost-Benefit" OR "Analysis, Cost-Effectiveness" OR "Analysis, Cost-Utility" OR "Health Care Costs"))
Scopus	TITLE-ABS-KEY (((("Infant, Newborn" OR child)) AND (("Heart Defects, Congenital" OR "congenital heart malformation" OR "Congenital Heart Defect" OR "Congenital Heart Defects" OR "Defect, Congenital Heart" OR "Defects, Congenital Heart"))) AND ("Cost-Benefit Analysis" OR "Analysis, Cost-Effectiveness" OR "Analysis, Cost-Utility")))
Web of Science	TS=(((Infant, Newborn OR child OR children)) AND ("Heart Defects, Congenital" OR Congenital Heart Defect OR "Congenital Heart Defects" OR "Defect, Congenital Heart" OR "Defects, Congenital Heart")) AND ("Cost-Benefit Analysis" OR "Analysis, Cost-Benefit" OR Analysis, Cost-Effectiveness OR Analysis, Cost-Utility OR Health Care Costs))

Para a etapa de coleta de dados foi utilizado um instrumento estruturado desenvolvido, também, no *Microsoft Office Excel*, contendo as seguintes variáveis: ano, país, base de dado, idioma, periódico, área da revista, objetivo geral, método, população, amostra, período de coleta de dados, tipos de anomalias congênitas, diagnóstico ou tratamento, tipo de intervenção, nível de atenção (primário, secundário ou terciário), custos, principais resultados, limitações e vieses, e, principais recomendações.

Salienta-se que como principais resultados e recomendações extraíram-se apenas os aspectos que atendessem à pergunta de pesquisa desta revisão, sem demérito aos demais achados e recomendações das publicações em estudo.

RESULTADOS

Referente ao ano de publicação, os estudos estão distribuídos entre 1990 e 2019, no idioma inglês, desenvolvidos em diferentes países do continente Europeu (28%), América do Norte e Central (59%), Africano (3%) e Asiático (10%). Em relação

à indexação nas bases de dados, foram extraídos: 22 (75%) da PubMed, 4 (14%) da Scopus, 2 (8%) da Cinahl e 1 (3%) da Web of Science.

Os artigos são procedentes de diferentes periódicos das áreas da medicina 27 (93%) e economia em saúde 2 (7%). Quanto aos métodos de pesquisa utilizados pelos estudos, foram: 10 (34%) de análise de custo-efetividade, 16 (55%) retrospectivos, incluindo coorte e transversal e 3 (11%) ensaios clínicos randomizados com análise de custo.

A amostra de participantes variou entre 9 a 1.613.376 indivíduos, com idades díspares, a saber: 12 (41%) abordaram crianças menores de 1 ano, 7 (25%) foram desenvolvidos com menores de 5 anos, 10 (34%) com menores de 19 anos.

Na Figura 2 estão apresentados o número de estudos que abordaram as intervenções para diagnóstico ou tratamento, em qual contexto de assistência em saúde e quais as AC estudadas agrupadas por sistemas. Os dados coletados apresentam-se em forma de quadro (Quadro 2), estão descritas as AC de interesse dos estudos, bem como as intervenções de diagnóstico ou tratamento, os custos relativos a essas intervenções.

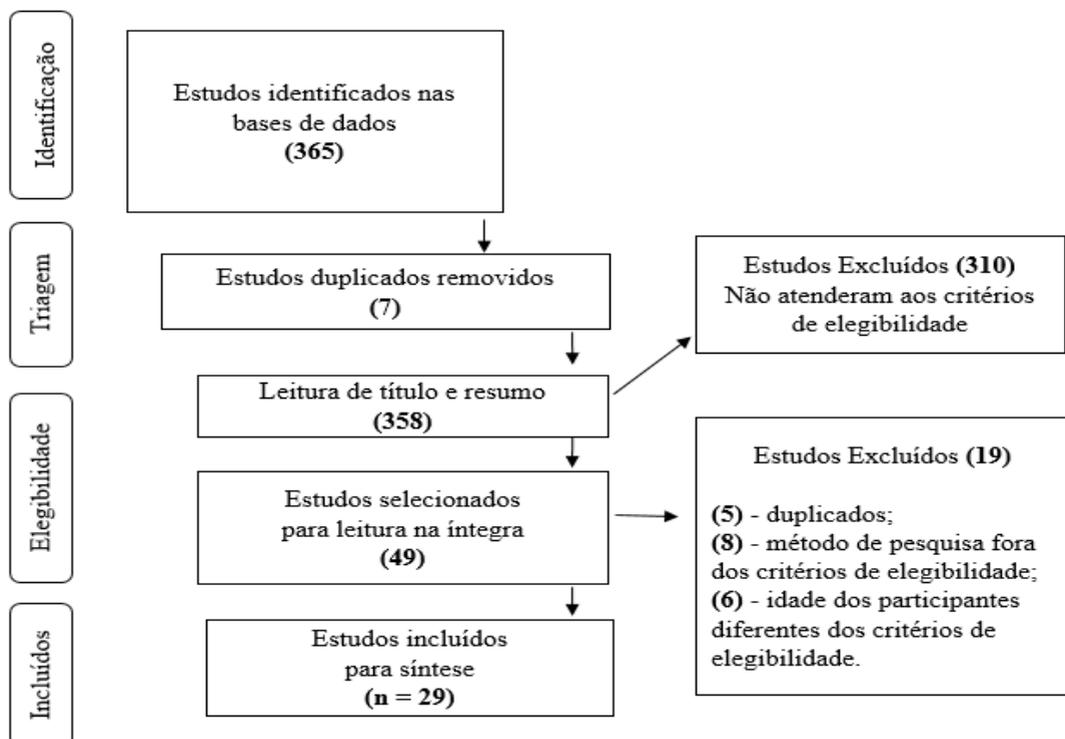


Figura 1. Fluxograma do processo de seleção dos artigos científicos, n=29, junho 2019.

Quadro 2. Artículos incluídos segundo país do estudo, grupo etário, tipo de malformação, intervenção e custos, n=29, junho 2019.

ID ^(cita)	País do estudo	Grupo etário	Anomalias congênitas	Intervenção e Tratamentos	Custos
1 ⁽¹³⁾	Canadá	Recém-nascido	Displasia congênita de quadril e subluxação de quadril	Programa de triagem	Triagem e tratamento: US\$* 3.391,74 Sem triagem e tratamento: US \$ 19.101,75 Custo benefício: US\$ 1.571,01
2 ⁽¹⁴⁾	EUA	Menores de 19 anos	Cardiopatía congênita	Cateter de "Rashkind PDA occluder" versus cirurgia	Cateter: US\$ 11.466,00 Cirurgia: US\$ 8.838,00
3 ⁽¹⁵⁾	Noruega	Recém-nascido	Displasia congênita de quadril	Três estratégias de triagem	Sem triagem: US\$ 29.181,00 Triagem seletiva: US\$ 29.565,10 Triagem generalizada: US\$ 27.886,10
4 ⁽¹⁶⁾	EUA	Menores de 14 anos	Cardiopatía congênita	Grupo A: Transaxillary muscle-sparing Grupo B: toracotomia convencional	Grupo A: custo médio US\$ 6.408,00 Grupo B: custo médio US\$ 7.980,00
5 ⁽¹⁷⁾	EUA	Recém-nascido	Rim displásico multicístico	Nefrectomia	Custo por paciente: US\$ 5.000,00 a \$ 7.000,00
6 ⁽¹⁸⁾	Holanda	Recém-nascido	Fenda palatina e lábio leporino unilateral	Tratamento ortopédico <i>pré-cirúrgico</i> versus sem tratamento	Com tratamento: US\$ 1.211,00 Sem tratamento: US\$ 513,00
7 ⁽¹⁹⁾	EUA	Menores de 5 anos	Cardiopatías congênitas	Ecocardiografia transesofágica (ETE) durante cirurgia	Com ETE: US\$ 376,00 Sem ETE: US\$ 343,00
8 ⁽²⁰⁾	EUA	Menores de 18 anos	Coartação da aorta	Implantação de stent endovascular versus cirurgia convencional.	Stent: US\$ 7.148,00 Cirurgia: US\$ 11.769,00
9 ⁽²¹⁾	EUA	Menores de 17 anos	Cardiopatías congênitas	Oxigenação por membrana extracorpórea (ECMO)	Hospitalização Custo médio por paciente: US\$ 156.324,00
10 ⁽²²⁾	Suíça	Menores de 5 anos	Cardiopatías congênitas	Ecocardiografia transesofágica intraoperatório	Custo total: US\$ 87.000,00
11 ⁽²³⁾	EUA	Prematuros 24 a 27 semanas	Canal arterial patente	Profilaxia com indometacina para canal arterial patente em prematuro	Grupo placebo: US\$ 68.279,00 Grupo indometacina: US\$ 69.629,00. Profilaxia com indometacina custa US\$ 67.500,00 adicionais por morte ou impedimento evitado
12 ⁽²⁴⁾	Guatemala	Menores de 11 anos	Mediastinite	Cirurgia/desbridamento e irrigação com antibióticos	Atraso no fechamento esternal: US\$ 9.612,00 Fechamento esternal primário: US\$ 2.467,00

Continuação Quadro 2.

ID ^(cita)	País do estudo	Grupo etário	Anomalias congênitas	Intervenção e Tratamentos	Custos
13 ⁽²⁵⁾	Holanda	Recém-nascidos prematuro e a termo	Displasia broncopulmonar e cardiopatias congênitas	Palivizumabe (P)	Prematuro com P: US\$ 9.490,80 Prematuro sem P: US\$ 7.118,10 Criança com P: US\$ 21.354,30 Criança sem P: US\$ 23.727,00
14 ⁽²⁶⁾	Irã	Menores de 4 anos	Desordens metabólicas e genéticas	Triagem neonatal	Triagem: US\$ 6.310,00 Tratamento precoce: US\$ 12.297,20 Tratamento tardio: US\$ 29.740,00
15 ⁽²⁷⁾	EUA	Menores de 5 anos	Fenda labial e fenda palatina	Cirurgia para correção de fenda labial e fenda palatina	Para as oito missões analisadas Custo total por paciente: US\$ 55.846,21 Custo total por DALY evitado: US\$ 79.696,00
16 ⁽²⁸⁾	Canadá	Menores de 2 anos	Cardiopatias congênitas	Palivizumabe (P)	Sem P: US\$ 838,00 por paciente Com P: US\$ 9.130,00 por paciente
17 ⁽²⁹⁾	Reino Unido	Recém-nascido	Cardiopatias congênitas	Oximetria de pulso (OP)	OP como adicional ao exame clínico: US\$ 883.470,00 por 100 mil nascidos vivos
18 ⁽³⁰⁾	Canadá	Menores de 10 anos	Fenda labiopalatina	Cirurgia de correção	Custo global: US\$ 196,00 M. DALY evitados: US\$ 2,1 a 4,7 milhões
19 ⁽³¹⁾	Vietná	Menores de 5 anos	Fenda labial e fenda palatina	Cirurgia de correção	Por paciente: US\$ 335,00 custos diretos e indiretos Por DALY evitado: US\$ 52 a 79,00
20 ⁽³²⁾	EUA	Menores de 11 anos	Rim único	Ultrassonografia abdominopélvica	Exame com ácido dimercapto-succínico: US\$ 460 a 720,00
21 ⁽³³⁾	Holanda	Recém-nascido	Síndrome de Pierre Robin (dificuldade respiratória severa)	Traqueostomia e distração osteogênica mandibular	Custos diretos gerais: 3x mais para traqueostomia US\$ 125.190,00 versus DOM US\$ 39.720,00 Custos indiretos gerais: 5 vezes mais US\$ 3.018,89 versus US\$ 644,19
22 ⁽³⁴⁾	Reino Unido	Menores de 12 anos	Fenda palatina (otite média com efusão bilateral)	Inserção cirúrgica do tubo de ventilação em comparação com alternativas não-cirúrgicas, como aparelhos auditivos e do-nothing strategies	Valor esperado: US\$ 7.190.800,00 com disposição para pagar um limite de US\$ 27.688,00 /QALY.

Continuação Quadro 2.

ID ^(cita)	País do estudo	Grupo etário	Anomalias congênitas	Intervenção e Tratamentos	Custos
23 ⁽³⁵⁾	Guatemala	Menores de 15 anos	Anomalias neurológicas	Ventrículo shunt itoneal, reparos de lipomieleningocele, meningocoele torácica, mielomeningocele dermóide, excisão do cisto e ventriculostomia endoscópica.	Hospital: US\$ 871.401,00 Fundação pediátrica Guatemala: US\$ 4.196,21 Pacientes e Família: US\$ 3.842,00 Projeto médico: US\$ 36.400,19 Total: US\$ 53.152,19 US\$385/DALY evitado
24 ⁽³⁶⁾	Uganda	Menores de 4 anos	Inguinal hérnia	Cirurgia	Custo médio por procedimento: US \$ 86,68 US\$12,41/DALY evitado
25 ⁽³⁷⁾	EUA	Menores de 14 anos	Fenda labial e palatina	Cirurgia	Missões médicas: US\$ 247,42/DALY. Centro de cuidados: US\$ 189,81/DALY.
26 ⁽³⁸⁾	China	Recém-nascidos	Cardiopatas congênitas	Triagem de oximetria de pulso x sem intervenção	US\$ 7.833,00 / DALY in Beijing US\$ 27.780 / DALY in Shandong US\$ 167. 407 Intervenção sem custo efetividade em Gansu.
27 ⁽³⁹⁾	EUA	Recém-nascido	Perda auditiva incapacitante	Emissões otoacústicas da triagem auditiva neonatal	Triagem: US\$ 9.342,00-22.350,00 Tratamento: US\$ 2.429-33,050
28 ⁽⁴⁰⁾	EUA	Recém-nascido	Cardiopatas congênitas	Eletrocardiograma e ecocardiograma versus oximetria de pulso (OP) e exame-físico (EF)	Exames: US\$ 38.713,49 EF e OP: US\$ 11.336,00
29 ⁽⁴¹⁾	Holanda	Recém-nascido	Cardiopatas congênitas	Oximetria de pulso (OP)	Triagem de OP: US\$ 2.280.000,00 Sem triagem: US\$ 298.940,00 por 100 mil crianças

* US\$ - dólar americano

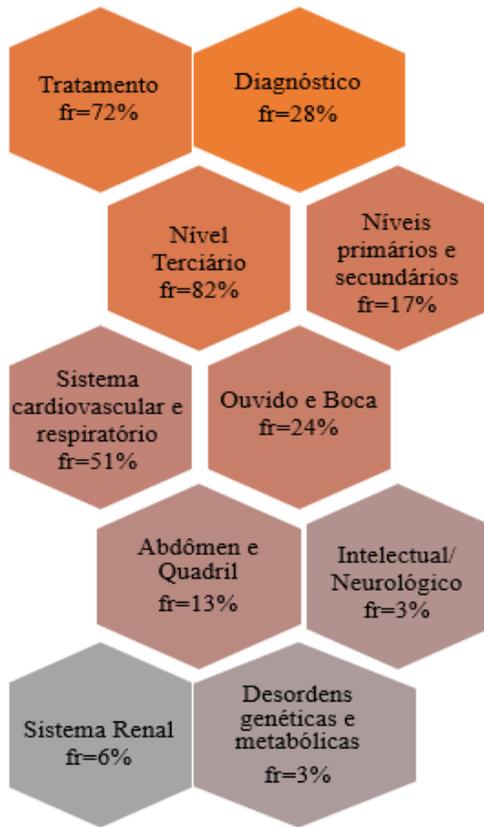


Figura 2. Representação visual e distribuição absoluta e relativa dos artigos segundo tipo de intervenção, nível de atenção e anomalias congênitas, n = 29, junho de 2019.

DISCUSSÃO

O mapeamento da literatura trouxe uma amostra dos estudos sobre os custos referentes as intervenções para diagnóstico precoce e tratamento de diversos tipos de AC em crianças, destacando os exames de triagem neonatal e as cirurgias corretivas menos invasivas.

Foi observado domínio de publicações internacionais, no idioma inglês e pela área da medicina⁽¹³⁻⁴¹⁾. Bem como, artigos desenvolvidos entre os anos de 1990 a 2019 indicando o reconhecimento sobre as AC associado ao interesse em compreender etiologias subjacentes, identificar as causas modificáveis bem como, os tratamentos efetivos, quer sejam pré ou pós-natais⁽²⁾. Atenta-se para o fato de que os países economicamente desenvolvidos apresentam maiores taxas de AC, fato possivelmente relacionado à redução da mortalidade infantil por outros grupos de doenças⁽³⁾.

Diversos fatores estão envolvidos na prevalência das AC, de um modo geral nesta amostra foram captadas maior quantitativo de publicações que abordaram as AC do sistema cardiovascular e respiratório^(14,16,19-25,28,29,33,38,40-41). Esclarece-se que estas são complexas e demandam de exame de imagem para o diagnóstico, podendo impactar nas altas taxas de mortalidade⁽²⁾. Quando relacionadas ao sistema osteomuscular, geniturinário, de ouvido, face e pescoço, as AC são menos complexas e com maiores possibilidades de serem identificadas em maior número nas crianças nascidas vivas, mediante a realização do exame físico⁽³⁾, sistematizado.

Quanto à população, o maior volume dos estudos incluiu crianças menores de um ano^(13,15,17,18,23,25,29,33,38-41). Cenário este que pode ser advindo do fato de as AC graves serem incompatíveis com a vida, assumindo papel crescentemente expressivo na morbimortalidade infantil, sobretudo no período neonatal⁽³⁾. Sugere-se ainda que a análise dos casos de morte perinatal somado à contínua colaboração internacional para compartilhamento dos dados é fundamental, pois além de favorecerem a melhor compreensão das AC, mobilizam o desenvolvimento das tecnologias para diagnóstico, tratamento e reabilitação, contribuindo, portanto com a redução da morbimortalidade global⁽²⁾. Reitera-se que os indicadores de mortalidade na infância, principalmente, em menores de um ano de idade, são notadamente sensíveis aos determinantes relacionados ao cenário sócio-econômico e, às iniciativas de saúde pública, como por exemplo, o acesso aos serviços de saúde⁽⁴²⁾.

Houve destaque à produção de evidências científicas para o tratamento a ser realizado em ambiente hospitalar^(14,16-25,27-29,30,31,33-37,41). Esta condição possivelmente está relacionada à necessidade dos cuidados intensivos, com o uso de recursos tecnológicos e de profissionais especializados para a manutenção da vida desse recém-nascido com AC, podendo relacionar-se também ao fato de demandarem por maior volume de recursos financeiros consequentes às taxas elevadas de rehospitalização e à mortalidade pós-alta⁽⁴³⁾.

Neste sentido, para que seja possível identificar as intervenções mais efetivas em relação ao custo e ao benefício dos tratamentos são desenvolvidas as pesquisas em economia em saúde, essas se propõem a avaliar as tecnologias e os desfechos clínicos

associados à suas aplicações. Sendo assim, os estudos que relacionaram a triagem neonatal para AC de quadril, cardiopatias, distúrbios metabólicos e genéticos, e perda auditiva^(13,15,26,29,32,38-40,41), apresentaram melhores resultados e menores custos, quando analisados a longo prazo, na vida criança. Espera-se que, crescentemente, um maior número de AC sejam passíveis de triagem no período neonatal, sobretudo, com o avanço na área de genomas⁽⁴⁴⁾. Sendo caracterizada como uma ação de sucesso na saúde pública, a triagem neonatal está relacionada com a diminuição nas taxas de morbidade e mortalidade, e conseqüentemente, impacto na economia em saúde, suavizando a escassez de recursos, a diminuição de custos, e ainda reduzindo a carga de trabalho⁽⁴⁵⁾.

Os estudos sobre tratamento enfatizaram as cirurgias corretivas e compararam o método convencional com abordagens atualizadas e menos invasivas^(14-16,18-20,24,34,38,39,41), apresentaram resultados com melhor custo-efetividade relacionado às inovações. Os avanços da tecnologia na área da saúde com a preocupação de redução dos danos ao paciente e, da morbimortalidade a curto e longo prazo, privilegiando sua qualidade de vida, são justificativas para o quantitativo de pesquisas referentes aos tratamentos minimamente invasivos. Há esforços para reduzir o trauma e o desconforto, como incisões menores, reduzir os efeitos adversos da circulação extracorpórea, reduzir a dor associada às incisões e melhorar o impacto da experiência hospitalar⁽⁴⁶⁾. Isso demonstra a relevância da prática baseada em evidências no ambiente hospitalar para a transformação da prática clínica⁽⁴⁷⁾.

Destarte, coloca-se que a maioria das AC vão se apresentar no período neonatal. E sob esta ótica, enfatiza-se a competência do enfermeiro em compreender o processo de triagem, em avaliar e prestar a adequada e oportuna assistência. Processo este que requer o desenvolvimento de novas habilidades frente às novas tecnologias a serem utilizadas na prática clínica para a garantia de crescimento pessoal, o avanço da profissão e a busca perene pela maior segurança e qualidade da assistência⁽⁴⁸⁾.

Isto posto, limitações foram apontadas em alguns dos estudos, como: o número reduzido de participantes, a escassez de estudos semelhantes com

base em evidência, o favorecimento de discussões mais concretas, resultados que não podem ser aplicáveis fora do escopo geográfico pesquisado, e os desafios que cercam as abordagens econômicas para avaliação de todos os custos envolvidos ao diagnóstico ou tratamento.

Como limitações da presente pesquisa devido se apresentarem como informações de interesse ao escopo delimitado, apresentam-se: o número de estudos identificados, a inclusão de artigos que não auto-referiram as suas limitações nem as recomendações para prática ou pesquisa, e a inóxia de pesquisas referentes aos custos com AC, em especial, nos países em desenvolvimento.

Por fim, os autores do presente acreditam que a opção por mapear e conhecer a realidade global das AC expresse potencial para subsidiar o refinamento do diálogo, entre gestores, profissionais e sociedade, sobre a necessidade de (re)formulação de políticas públicas preventivas da morbidade e da mortalidade fetal, infantil e materna, tendo como exemplo oportuno, a implementação e/ou ampliação da triagem neonatal a nível global.

CONCLUSÃO

Esta revisão de escopo resumiu os principais resultados sobre os custos das intervenções para diagnósticos e tratamentos realizados no nível terciário para anomalias congênitas. Trata-se de uma temática de destaque no cenário global, visto a necessidade de estudos que possam produzir evidências científicas para diretrizes voltadas a estratégias de prevenção de anomalias congênitas em nascidos vivos.

Destaca-se assim, o programa de triagem neonatal para diagnóstico precoce das AC e a implementação de tecnologias atualizadas e minimamente invasiva nas cirurgias corretivas, acarretando um impacto na redução de custos a longo prazo, bem como na qualidade e segurança da assistência e do paciente / familiar. De maneira que o desenvolvimento de pesquisas na perspectiva econômica, visando aplicabilidade de uma prática clínica integral e sustentável é colocado em destaque na trajetória de minimização do impacto das AC na população infantil e na sociedade em geral.

REFERÊNCIAS

1. World Health Organization. Congenital anomalies [Internet]. 2016 [citado 2020 jan 29]. Disponível em: <https://www.who.int/es/news-room/factsheets/detail/congenital-anomalies>
2. Wojcik MH, Agrawal PB. Deciphering congenital anomalies for the next generation. *Cold Spring Harb mol case stud* [Internet]. 2020 [citado 2021 jul 7]; 6(5): 01-09. Disponível em: <https://doi.org/10.1101/mcs.a005504>
3. Lehtonen L, Gimeno A, Parra-Llorca A, Vento M. Early neonatal death: A challenge worldwide. *Semin fetal neonatal med* [Internet]. 2017 [citado 2021 jul 7]; 22(3): 153-160. Disponível em: <https://doi.org/10.1016/j.siny.2017.02.006>
4. Zarante I, Hurtado-Villa P, Walani SR, Kancherla V, Camelo JL, Giugliani R, et al. A consensus statement on birth defects surveillance, prevention, and care in Latin America and the Caribbean. *Rev panam salud pública* [Internet]. 2019 [citado 2021 jul 7]; 43: 1-6. Disponível em: <http://dx.doi.org/10.26633/RPSP.2019.2>
5. Silva JH, Terças ACP, Pinheiro LCB, França GVA, Atanaka M, Sculer-Faccini L. Profile of congenital anomalies among live births in the municipality of Tangará da Serra, Mato Grosso, Brazil, 2006-2016. *Epidemiol serv saúde* [Internet]. 2018 [citado 2019 out 25]; 27(3): 1-10. Disponível em: <http://dx.doi.org/10.5123/S1679-49742018000300017>
6. Porras-Hurtado GL, León-Castañeda OM, Molano-Hurtado J, Quiceno SL, Pachajoa H, Montoya JJ. Prevalence of birth defects in Risaralda, 2010-2013. *Biomédica (Bogotá)* [Internet]. 2016 [citado 2019 nov 20]; 36(4). Disponível em: <http://dx.doi.org/10.7705/biomedica.v36i4.2771>
7. Apfeld JC, Kastenber ZJ, Gibbons AT, Phibbs CS, Lee HC, Sylvester KG. The disproportionate cost of operation and congenital anomalies in infancy. *Pediatrics* [Internet]. 2019 [citado 2021 jul 7]; 1234-1242. Disponível em: <https://doi.org/10.1016/j.surg.2018.12.022>
8. Neumann PJ, Sanders GD. Cost-Effectiveness Analysis 2.0. *N. Engl. j. med.* [Internet]. 2017 [citado 2021 jul 07]; 376(3): 203-205. Disponível em: <https://doi.org/10.1056/NEJMp1612619>
9. Peters MDJ, Godfrey C, McInerney P, Munn Z, Tricco AC, Khalil, H. Chapter 11: Scoping Reviews (2020 version). In: Aromataris E, Munn Z (Editors). *JBIMES-20-12* [Internet]. 2020 [citado 2021 jul 7]. Disponível em: <https://doi.org/10.46658/JBIMES-20-12>
10. Tricco AC, Lillie E, Zarin W, O'Brien KK, Colquhoun H, Levac D, et al. PRISMA Extension for Scoping Reviews (PRISMA-ScR): Checklist and Explanation. *Ann Intern Med* [Internet]. 2018 [citado 2021 jul 7]; 169(7): 467-473. Disponível em: <https://doi.org/10.7326/M18-0850>
11. Lockwood C, Santos KB, Pap R. Practical guidance for knowledge synthesis: scoping review methods. *Asian nurs res* (online) [Internet]. 2019 [citado 2020 jan 31]; 13(5): 287-294. Disponível em: <https://doi.org/10.1016/j.anr.2019.11.002>
12. World Health Organization. Definition of key terms [Internet]. 2013 [citado 2019 ago 15]. Disponível em: <http://www.who.int/hiv/pub/guidelines/arv2013/intro/keyterms/en/>
13. Tredweel SJ. Economic evaluation of neonatal screening for congenital dislocation of the hip. *J pediatr orthop* [Internet]. 1990 [citado 2019 out 20]; 10(3): 327-330. Disponível em: <https://doi.org/10.1097/01241398-199005000-00006>
14. Gray DT. Cost-effectiveness analysis of interventions for congenital heart disease. *J interv cardiol* [Internet]. 1995 [citado 2019 out 20]; 8(5). Disponível em: <https://doi.org/10.1111/j.1540-8183.1995.tb00585.x>
15. Rosendahl K, Markestad T, Lie RT, Sudmann E, Geitung JT. Cost-effectiveness of alternative screening strategies for developmental dysplasia of the hip. *Arch pediatr adolesc med* [Internet]. 1995 [citado 2019 out 21]; 149. Disponível em: <https://doi.org/10.1001/archpedi.1995.02170190053009>
16. Cetta F, Deleon SY, Roughneen PT, Graham LC, Lichtenberg RC, Bell Tj, et al. Cost-effectiveness of transaxillary muscle-sparing same-day operative closure of patent ductus arteriosus. *Am j cardiol* [Internet]. 1997 [citado 2019 out 21]; 79: 1281-82. Disponível em: [https://doi.org/10.1016/s0002-9149\(97\)00103-3](https://doi.org/10.1016/s0002-9149(97)00103-3)
17. Perez LM, Naidu SI, Joseph DB. Outcome and cost analysis of operative versus nonoperative management of neonatal multicystic dysplastic kidneys. *J urol* [Internet]. 1998 [citado 2019 out 21]; 160: 1207-11. Disponível em: <https://doi.org/10.1097/00005392-199809020-00070>
18. Severens JL, Prah C, Kuijpers-Jagtman AM, Prah-Andersen, B. Short-term cost-effectiveness analysis of presurgical orthopedic treatment in children with complete unilateral cleft lip and palate. *Cleft palate-craniofac j* [Internet]. 1998 [citado 2019 out 21]; 35(3). Disponível em: https://doi.org/10.1597/1545-1569_1998_035_0222_stceao_2.3.co_2
19. Siwik ES, Spector ML, Patel CR, Zahka KG. Cost and cost-effectiveness of routine transesophageal echocardiography in congenital heart surgery. *Am heart j* [Internet]. 1999 [citado 2019 out 21]; 138: 771-6. Disponível em: [https://doi.org/10.1016/s0002-8703\(99\)70195-x](https://doi.org/10.1016/s0002-8703(99)70195-x)

20. George JC, Shim D, Bucuvalas JC, Immerman E, Manning PB, Pearl JM, et al. Cost-effectiveness of coarctation repair strategies: endovascular stenting versus surgery. *Pediatr cardiol* [Internet]. 2003 [citado 2019 out 22]; 24(6): 544-547. Disponible em: <https://doi.org/10.1007/s00246-003-0496-1>
21. Mahle WT, Forbes JM, Kirshobom PM, Cuadrado AR, Simsic JM, Kanter KR. Cost-utility analysis of salvage cardiac extracorporeal membrane oxygenation in children. *J thorac cardiovasc sur* [Internet]. 2005 [citado 2019 out 22]; 129(5): 1084-90. Disponible em: <https://doi.org/10.1016/j.jtcvs.2004.08.012>
22. Bettex DA, Pretre R, Jenni R, Schmid ER. Cost-effectiveness of routine intraoperative transesophageal echocardiography in pediatric cardiac surgery: a 10 year experience. *Anesth analg* [Internet]. 2005 [citado 2019 out 22]; 100(5): 1271-5. Disponible em: <https://doi.org/10.1213/01.ANE.0000149594.81543.F0>
23. Zupancic VER, Richardson DK, O'Brien BJ, Cronin CG, Schmidt B, Roberts R, et al. Retrospective economic evaluation of a controlled trial of indomethacin prophylaxis for patent ductus arteriosus in premature infants. *Early hum dev* [Internet]. 2006 [citado 2019 out 22]; 82(2): 97-103. Disponible em: <https://doi.org/10.1016/j.earlhumdev.2006.01.004>
24. Vida VL, Leon-Wyss J, Larrazabal A, Cruz S, Castañeda AR. Mediastinitis in pediatric cardiac surgery: treatment and cost-effectiveness in a low-income country. *Pediatr cardiol* [Internet]. 2007 [citado 2019 out 23]; 28(3): 163-166. Disponible em: <https://doi.org/10.1007/s00246-006-0008-1>
25. Nuijten M, Lebmeier M, Wittenberg W. Cost effectiveness of palivizumab for RSV prevention in high-risk children in the netherlands. *J Med Econ* [Internet]. 2009 [citado 2019 out 23]; 12(4): 291-300. Disponible em: <https://doi.org/10.3111/13696990903316961>
26. Hatam N, Shirvani S, Javanbakht M, Askarian M, Rastegar M. Cost-utility analysis of neonatal screening program, Shiraz university of medical sciences, Shiraz, Iran, 2010. *Iran j pediatr* [Internet]. 2010 [citado 2019 out 23]; 23(5): 493-500. Disponible em: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4006495/pdf/IJPD-23-493.pdf> doi:
27. Magee WPJr, Vander BR, Hatcher KW. Cleft lip and palate as a cost effective health care treatment in the developing world. *World j emerg surg* [Internet]. 2010 [citado 2019 out 23]; 34(3): 420-27. Disponible em: <https://doi.org/10.1007/s00268-009-0333-7>
28. Harris KC, Anis AH, Crosby MC, Cender LM, Potts JE, Human DG. Economic evaluation of palivizumab in children with congenital heart disease: a canadian perspective. *Can j cardiol* [Internet]. 2011 [citado 2019 out 24]; 27(4). Disponible em: <https://doi.org/10.1016/j.cjca.2010.12.064>
29. Roberts TE, Barton PM, Auguste PE, Middleton LJ, Furnston AT, Ewer AK. Pulse oximetry as a screening test for congenital heart defects in newborn infants: a cost-effectiveness analysis. *Arch Dis Child Educ Pract Ed* [Internet]. 2012 [citado 2019 out 23]; 97(3): 221-226. Disponible em: <https://doi.org/10.1136/archdischild-2011-300564>
30. Poenaru D. Getting the Job Done: Analysis of the Impact and Effectiveness of the SmileTrain Program in Alleviating the Global Burden of Cleft Disease. *World j emerg surg* [Internet]. 2013 [citado 2019 out 24]; 37(7): 1562-70. Disponible em: <https://doi.org/10.1007/s00268-012-1876-6>
31. Moon W, Perry H, Baek R. Is International Volunteer Surgery for Cleft Lip and Cleft Palate a Cost-Effective and Justifiable Intervention? A Case Study from East Asia. *World j emerg surg* [Internet]. 2012 [citado 2019 out 25]; 36(12): 2819-30. Disponible em: <https://doi.org/10.1007/s00268-012-1761-3>
32. Krill A, Cubillos J, Gitlin J, Palmer LS. Abdominopelvic ultrasound: a cost-effective way to diagnose solitary kidney. *J urol* [Internet]. 2012 [citado 2019 out 24]; 187(6): 2201-04. Disponible em: <https://doi.org/10.1016/j.juro.2012.01.129>
33. Paes EC, Fouché JJ, Muradin MSM, Speleman L, Kon M, Breugem CC. Tracheostomy versus mandibular distraction osteogenesis in infants with Robin sequence: a comparative cost analysis. *Br j oral maxillofac surg* [Internet]. 2014 [citado 2019 out 25]; 52(3): 223-229. Disponible em: <https://doi.org/10.1016/j.bjoms.2013.11.017>
34. Mohiuddin S, Payne K, Fenwick E, O'Brien K, Bruce I. A model-based cost-effectiveness analysis of a grommets-led care pathway for children with cleft palate affected by otitis media with effusion. *Eur j health econ* [Internet]. 2014 [citado 2019 out 25]; 16(6): 573-87. Disponible em: <https://doi.org/10.1007/s10198-014-0610-8>
35. Davis MC, Than KD, Garton HJ. Cost-effectiveness of a short-term pediatric neurosurgical brigade to Guatemala. *World neurosurgery* (Online) [Internet]. 2014 [citado 2019 out 25]; 82(6): 974-9. Disponible em: <https://doi.org/10.1016/j.wneu.2014.08.038>
36. Eeson G, Birabwa-Male D, Pennington M, Blair GK. Costs and cost-effectiveness of pediatric inguinal hernia repair in uganda. *World j emerg surg* [Internet]. 2015 [citado 2019 out 25]; 39(2):

- 343-9. Disponível em: <https://doi.org/10.1007/s00268-014-2818-2>
37. Hackenberg B, Ramos MS, Campbell A, Resch S, Finlayson SRG, Sarma H, et al. Measuring and comparing the cost-effectiveness of surgical delivery in low-resource settings: cleft lip and palate as a model. *J craniofac surg* [Internet]. 2015 [citado 2019 out 25]; 26(4): 1121-5. Disponível em: <https://doi.org/10.1097/SCS.0000000000001829>
38. Tobe RG, Martin GR, Li F, Mori R. Should postnatal oximetry screening be implemented Nationwide in China? A cost-effectiveness analysis in three regions with different socioeconomic status. *Int j cardiol* [Internet]. 2016 [citado 2019 out 26]; 204: 45-47. Disponível em: <https://doi.org/10.1016/j.ijcard.2015.10.215>
39. Wong LY, Espinoza F, Alvarez KM, Molter D, Saunders JE. Otoacoustic emissions in rural nicaragua: cost analysis and implications for newborn hearing screening. *Otolaryngol head neck surg* [Internet]. 2017 [citado 2019 out 26]; 156(5): 877-885. Disponível em: <https://doi.org/10.1177/0194599817696306>
40. Minocha P, Agarwal A, Jivani N, Swaminathan S. Evaluation of neonates with suspected congenital heart disease: a new cost-effective algorithm. *Clin pediatri* [Internet]. 2018 [citado 2019 out 29]; 57(13): 1541-48. Disponível em: <https://doi.org/10.1177/0009922818793341>
41. Narayen IC, Te Pas AB, Blom NA, Marle MEVDA. Cost-effectiveness analysis of pulse oximetry screening for critical congenital heart defects following homebirth and early discharge. *Eur. j. pediatri* [Internet]. 2019 [citado 2019 out 29]; 178(1): 97-103. Disponível em: <https://doi.org/10.1007/s00431-018-3268-x>
42. Leyenaar JK, Bogetz JF. Child mortality in the United States: bridging palliative care and public health perspectives. *Pediatrics* [Internet]. 2018 [citado 2021 jul 07]; 142(4): 1-4. Disponível em: <https://doi.org/10.1542/peds.2018-1927>
43. Kieran E, Sara R, Claydon J, Hait V, Salaberry J, Osiovich H, et al. Outcomes of neonates with complex medical needs. *Adv. neonatal care* [Internet]. 2019 [citado 2021 jul 07]. Disponível em: <https://doi.org/10.1097/ANC.00000000000000639>
44. Fabie NAV, Pappas KB, Feldman GL. The Current State of Newborn Screening in the United States. *Pediatr. clin. North America* [Internet]. 2019 [citado 2021 jul 07]; 66(2): 369-386. Disponível em: <https://doi.org/10.1016/j.pcl.2018.12.007>
45. Urv TK, Parisi MA. Newborn screening: beyond the spot. *Adv. exp. med. biol* [Internet]. 2017 [citado 2021 jul 07]; 1031: 323-346. Disponível em: https://doi.org/10.1007/978-3-319-67144-4_19
46. Nido PJ. Minimally invasive cardiac procedures in children. *Innovations* [Internet]. 2020 [citado 2021 jul 07]; 15(2): 95-98. Disponível em: <https://doi.org/10.1177/1556984520914283>
47. Munn Z, Stern C, Porritt K, Lockwood C, Aromataris E, Jordan Z. Evidence transfer: ensuring end users are aware of, have access to, and understand the evidence. *Int J Evid Based Healthc* [Internet]. 2018 [citado 2021 jul 07]; 16: 83-89. Disponível em: <https://doi.org/10.1097/XEB.000000000000134>
48. Magalhães SS, Chaves EMC, Queiroz MVO. Instructional design for nursing care to neonates with congenital heart defects. *Texto & contexto enferm* [Internet]. 2019 [citado 2020 mar 12]; 28: e20180054. Disponível em: <https://doi.org/10.1590/1980-265X-TCE-2018-0054>