

# *Envolvendo as Partes Interessadas na Pesquisa: O Caso do Distúrbio Respiratório Obstrutivo do Sono e a Adenotonsilectomia na Pediatria*

*Anne R. Links e Emily F. Boss*

## **Introdução**

A pesquisa centrada no paciente (PCP) incorpora as suas características, preferências e valores, para produzir resultados que “as pessoas percebam e apreciem”<sup>1</sup>. A PCP prioriza o engajamento das partes interessadas, incluindo os pacientes e suas famílias, para informar a questão específica da pesquisa, bem como a elaboração de opções de cuidados da saúde e a tomada de decisão partilhada, com o intuito de criar uma parceria entre pacientes/famílias e prestadores de cuidados da saúde. Sendo assim, a PCP tem o potencial de apresentar resultados superiores, ao auxiliar “as pessoas na comunicação e tomada de decisões fundamentadas, permitindo que suas vozes sejam ouvidas quando se avalia a valoração das opções de cuidados da saúde.”<sup>1</sup>

O valor da pesquisa com as partes interessadas pode ser observado na PCP<sup>2</sup>. Ela questiona quais são os resultados mais importantes para todos os indivíduos acometidos, e envolve as perspectivas dessas partes interessadas no alcance dos resultados desejados na investigação. No caso do distúrbio respiratório obstrutivo do sono pediátrico (DROS), as partes interessadas incluem não só crianças que roncam, mas também os pais, membros da família, pediatras, cirurgiões, formuladores de políticas, serviços da saúde e pesquisadores de resultados. Contamos fortemente com o envolvimento das partes interessadas na nossa pesquisa sobre a tomada de decisão relativa à cirurgia de adenotonsilectomia, que serve como um excelente exemplo do valor da PCP<sup>3-6</sup>.

O DROS pediátrico acomete até 12% das crianças e tem várias consequências para a saúde infantil, incluindo sequelas físicas, cognitivas e emocionais<sup>7-10</sup>. A tonsilectomia com adenoidectomia é o tratamento mais comum para o DROS pediátrico, sendo o segundo procedimento cirúrgico pediátrico ambulatorial mais comum nos Estados Unidos, com mais de 500.000 casos realizados por ano<sup>9-11</sup>. A incidência aumentou nas últimas décadas e existe o risco de uma morbidade real em cada procedimento<sup>12</sup>. Tem havido muita especulação na pesquisa e na mídia sobre o uso excessivo/inadequado ou variação inexplicada da utilização deste procedimento comum<sup>13-16</sup>. Em entrevistas qualitativas com cirurgiões e pediatras que tratam o DROS pediátrico, estes afirmaram que, embora a tonsilectomia seja uma boa opção de tratamento em muitos casos, existem cirurgiões que irão realizá-la indiscriminadamente (“eu não me incomodaria de realizar uma tonsilectomia extra, mas conheço alguns médicos que retiram as amígdalas de qualquer criança que ronca”<sup>5</sup>).

Considerando os benefícios potenciais significativos, mas também os riscos e a ampla variação do uso da tonsilectomia, a investigação sobre os processos de tomada de decisão dos pais e do clínico, que precedem este procedimento, é importante para garantir decisões com qualidade, com base em evidências, e bem fundamentadas<sup>17-18</sup>. A inclusão das partes interessadas nesta pesquisa enfatiza a validade, relevância e abrangência das questões colocadas e das investigações realizadas. Neste capítulo, apresentamos nossas experiências iniciais, envolvendo as partes interessadas para orientar a investigação do DROS pediátrico e a adenotonsilectomia.

### **Projetos de Pesquisa com as Partes Interessadas**

**Entrevistas qualitativas com informantes-chave.** Foram realizadas entrevistas com 11 pais de crianças que foram avaliadas ou tratadas para DROS<sup>6</sup>. Também realizamos entrevistas com 10 médicos/ cientistas que tratam crianças com DROS<sup>5</sup>. Os temas centrais das perspectivas levantadas nessas entrevistas têm fundamentado nossa pesquisa atual e continuam a auxiliar no desenvolvimento de futuras medidas de resultados e ferramentas de apoio à decisão. Foram realizadas entrevistas para conhecer as experiências dos pais em relação a: a) a experiência de seus filhos com relação ao distúrbio respiratório do sono, b) sua experiência com os cuidados ao buscar tratamento, e c) fatores que influenciaram sua tomada de decisão quanto à adenotonsilectomia como opção de tratamento<sup>3,6</sup>. Os pais foram questionados sobre as razões que os fizeram levar seus filhos a otorrinolaringologistas para avaliação, seus conhecimentos e preocupações sobre os riscos e benefícios do tratamento cirúrgico, suas preferências de tratamento e suas experiências com os clínicos, incluindo estilos interpessoais e comunicação.

Descobrimos que os pais enfatizaram a importância da troca de informações sobre os riscos e benefícios do tratamento e fatores clínicos, como a gravidade dos sintomas, ao tomar decisões sobre o tratamento. Os pais descreveram suas razões para a busca do tratamento através de lentes emocionais, como o medo da apnéia de seus filhos (“que ela não acordaria, isso me assustou”). Os pais narraram o medo da anestesia, uma consideração muitas vezes mais importante do que os riscos cirúrgicos reais (“seu bebê está sendo colocado para dormir. Essa foi a minha maior preocupação. A tonsilectomia em si, eu não me importo”). Eles enfatizaram a importância de fatores interpessoais e de comunicação com os clínicos, que influenciam uma experiência de cuidados positivos e que não afetam as decisões relativas ao tratamento (“Todos foram muito, muito agradáveis. Aliviaram nossos medos e nos deu muito conforto”).

Foram entrevistados 10 médicos de todas as disciplinas (pediatria, otorrinolaringologia, medicina pulmonar/sono, anesthesiologia) e locais da prática (acadêmica, comunitária e privada). Estes últimos, relataram visões diferentes da tonsilectomia (“cirurgia para mim é um último recurso;” “Eu nunca ouvi ninguém reclamar da tonsilectomia”). Os médicos forneceram uma variedade de perspectivas sobre o tratamento do DROS, que foram divididos em três grandes temas: *abordagem do tratamento e alternativas* (“Já me acostumei com os pais”); *comunicação e tomada de decisão entre médicos e famílias* (“Explico

logo aos pais e deixo-os decidirem”); e *fatores socioculturais e barreiras para o cuidado* (“alguns fazem perguntas como ‘meu filho vai ficar estéril por causa disso?’”). Os médicos apresentaram padrões de prática muito variáveis, bem como pontos de vista distintos sobre a necessidade de encaminhamento para a subespecialidade e tratamento.

Os resultados dessas entrevistas enfatizam a importância da comunicação e do compartilhamento de informações ao interagir com pais de crianças com DROS na tomada de decisões relativas ao tratamento. Além disso, retratam as preocupações reais que os pais têm ao considerar o tratamento para seus filhos, e que podem ser comprometidas em uma breve consulta com a equipe cirúrgica. Também confirmam uma variação na abordagem ao tratamento. As partes interessadas expandiram aspectos que o tópico da nossa pesquisa não tinha considerado e que não são capturados em análises quantitativas convencionais, e nos conscientizaram de preocupações temáticas em nossas considerações relativas às experiências de pais e clínicos no tratamento do DROS. Os temas gerados a partir dessas entrevistas forneceram uma base para muitos projetos futuros que incorporam as perspectivas das partes interessadas na investigação científica do DROS pediátrico, e na tomada de decisões para a adenotonsilectomia. Apesar da pequena amostra de pais e clínicos, temos sido capazes de usar as perspectivas dessas entrevistas como um “ponto de partida”, quando se consideram fatores de tratamento do DROS que são importantes tanto para os pais de crianças com DROS, como para os clínicos que as tratam. Também servem como uma base para desenvolver aplicações práticas, incluindo auxílio à decisão e medidas de resultado para avaliar o conhecimento dos pais após a consulta.

***Escala de Conhecimento do Distúrbio Respiratório Obstrutivo do Sono e da Adenotonsilectomia para os Pais.*** Um maior conhecimento do DROS, assim como os riscos e os benefícios da adenotonsilectomia (A&T), pode aliviar o grande conflito decisório pelo qual passam os pais, ao considerarem esta cirurgia<sup>18,19</sup>. Além de engajar as partes interessadas nas entrevistas qualitativas, também vinculamos pais e clínicos, em um projeto de pesquisa para desenvolver uma medida de resultado que avalia o conhecimento dos pais com relação ao DROS e a cirurgia de A&T. Esta medida está disponível para ser utilizada, tanto na investigação como na prática clínica<sup>4,20</sup>.

O envolvimento das partes interessadas foi conduzido em várias etapas. Nos estágios iniciais do desenvolvimento da escala de conhecimento dos pais, foi constituído um conselho consultivo de médicos que tratam o DROS pediátrico, para contribuir com informações para o modelo inicial da medida. Os pesquisadores sintetizaram uma revisão sistemática da literatura sobre o DROS e a cirurgia de A&T, com os resultados das entrevistas com os informantes-chave acima descritos, para a determinação dos elementos mais importantes na avaliação do conhecimento dos pais. Estes elementos foram então incluídos na medida do modelo inicial, que resultou em 9 “categorias” preliminares de conhecimento sobre o DROS e a A&T, e 89 possíveis questões. Uma amostra de 32 pais, clínicos e outros leigos foram então envolvidos no teste e avaliação da medida do modelo, afim de validar a sua utilização no campo<sup>20</sup>.

A análise combinada entre as partes interessadas e os pais, indicou que as áreas mais importantes do conhecimento destes sobre o DROS e A&T, ao tomarem decisões para o seu tratamento, eram: 1) sintomas do DROS; 2) opções de tratamento; 3) efeitos da anestesia; 4) benefícios da A&T; e 5) riscos da cirurgia de A&T. A escala para os pais, com base no conhecimento deles em relação ao DROS e a A&T, foi construída em torno desses elementos e como resultado destes temas definidos pelas partes interessadas. Ou seja, com base nas respostas das partes interessadas, a medida do modelo foi modificada para produzir uma escala condensada contendo 5 domínios principais (sintomas do DROS, opções de tratamento, experiências com anestesia, riscos da A&T, benefícios da A&T), com um total de 39 itens individuais.

A inclusão das partes interessadas no desenvolvimento da escala foi essencial. Os clínicos forneceram aos pesquisadores com pontos de vista (*insight*), e um conselho editorial que incorporou na medida fatos importantes, com base em evidências. A inclusão de pais permitiu que os pesquisadores modificassem e desenvolvessem a escala de uma forma que fosse bem recebida pela população-alvo. A inclusão das partes interessadas no desenvolvimento desta medida, assegurou a sua avaliação adequada pelas populações que a utilizaria, tanto as que aplicam (clínicos) como as que recebem (os pais).

**Option Grid™ de auxílio à decisão.** Além de elaborar uma medida para avaliar o conhecimento, estamos também no processo de desenvolvimento de uma ferramenta de apoio, que auxilie os pais, enquanto decidem quanto a cirurgia A&T versus espera vigilante, no cenário do DROS. Esta ferramenta será baseada no quadro *Option Grid™*, o qual apresenta uma tabela, com uma única página, contendo uma série de perguntas frequentes (PF) sobre o tratamento para o DROS pediátrico, fornecendo informações sobre a cirurgia em comparação com a espera vigilante<sup>21,22</sup>. As partes interessadas estarão fortemente envolvidas no desenvolvimento desta ferramenta de apoio à decisão, ao longo de todo o processo de sua criação. Juntamente com a *Option Grid™* colaborativa no Instituto Dartmouth para Políticas de Saúde e Prática Clínica, um conselho editorial composto por médicos de várias disciplinas e pais de crianças previamente diagnosticadas com DROS, ajudarão no desenvolvimento desta ferramenta. Os pesquisadores vão sintetizar temas das entrevistas com os informantes-chave acima mencionados, com os resultados primários da literatura atual. Esta síntese será usada para desenvolver uma extensa lista de perguntas frequentes potenciais para a *Option Grid™* de auxílio à decisão, que será divulgada para uma amostra aleatória maior de pais de crianças com DROS. Estes darão suas perspectivas de quais PF são as mais relevantes e relacionadas para a sua inclusão no auxílio da decisão sobre a escolha da cirurgia de A&T, no âmbito do DROS pediátrico.

Um modelo de auxílio à decisão será então desenvolvido, e subsequentemente aplicado a um novo grupo de partes interessadas para testes de usuários. Os pais de crianças com DROS que estão atualmente considerando o tratamento, avaliarão o auxílio à decisão e fornecerão respostas que ajudarão na sua modificação. Assim, as três fases do engajamento das partes interessadas para este projeto incluem: 1) o tema e o desenvolvimento de PF; 2) a criação do modelo de

auxílio à decisão; 3) o teste da *Option Grid*™ pelo usuário. Ao integrar as partes interessadas, não só na avaliação desta ferramenta (fase 3), mas também no seu desenvolvimento, asseguramos que, em cada passo do nosso processo científico, a ferramenta seja desenvolvida de forma a promover a sua utilização na investigação moderna e na prática clínica.

### Conclusões

Os métodos dos projetos descritos demonstram a importância de envolver as partes interessadas, no desenvolvimento de pesquisas que tenham implicações reais, para impactar os sistemas de prestação de saúde e a prática clínica. Envolver as partes interessadas na investigação, ajuda a garantir que os resultados não apenas serão de interesse delas, mas conterão material para utilização prática no cenário clínico. Estamos otimistas de que a evolução da pesquisa em nossa especialidade, irá incorporar questões, desenho do estudo e resultados relevantes e importantes, tanto no cenário clínico como para os pacientes e suas famílias.

### Referências bibliográficas

1. PCORI. Patient-centered outcomes research. 2013; Available from: <http://www.pcori.org/research-results/patient-centered-outcomes-research>.
2. Florence, R., *et al.*, How the Patient-Centered Outcomes Research Institute is engaging patients and others in shaping its research agenda. *Health Affairs*, 2013. 32: p. 393-400.
3. Boss, E., *et al.*, “You have to be sure before someone cuts on your baby:” Parent perspectives on decision-making and communication for adenotonsillectomy in children who snore., in *International Conference on Communication in Healthcare*. 2015: New Orleans, LA
4. Boss, E.F., A. Links, and D.E. Tunkel, Stakeholder engagement in measure development for pediatric obstructive sleep-disordered breathing: The oSDB and adenotonsillectomy knowledge scale for parents. 2016.
5. Boss, E.F., A.R. Links, and M.C. Beach, “I could care less if I do an extra tonsillectomy:” Physician perspectives on parent decision-making for treatment of pediatric sleep-disordered breathing. 2016, Poster presentation, Pediatric Academic Society Annual Meeting 2016.
6. Boss, E.F., *et al.*, Parent experience of care and decision-making for children who snore. *JAMA Otolaryngology–Head & Neck Surgery*, 2016.
7. Bixler, E.O., *et al.*, Sleep disordered breathing in children in a general population sample: prevalence and risk factors. *Sleep*, 2009. 32(6): p. 731-6.
8. Mitchell, R.B. and J. Kelly, Behavior, neurocognition and quality-of-life in children with sleep-disordered breathing. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2006. 70(3): p. 395-406.
9. Alexander, N.S. and J.W. Schroeder, Jr., Pediatric obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatr Clin North Am*, 2013. 60(4): p. 827-40.
10. Lumeng, J.C. and R.D. Chervin, Epidemiology of pediatric obstructive sleep apnea. *Proc Am Thorac Soc*, 2008. 5(2): p. 242-52.
11. Ingram, D.G. and N.R. Friedman, Toward Adenotonsillectomy in Children: A Review for the General Pediatrician. *JAMA Pediatr*, 2015: p. 1-8.
12. Younis, R.T. and R.H. Lazar, History and current practice of tonsillectomy. *Laryngoscope*, 2002. 112(8 Pt 2 Suppl 100): p. 3-5.
13. Boss, E.F., Tonsillectomy variation in the United States: the evidence is catching up, but are the payers aware of the evidence? *J Pediatr*, 2012. 161(5): p. 972-3; author reply 973.
14. Boss, E.F., J.A. Marsteller, and A.E. Simon, Outpatient tonsillectomy in children: demographic and geographic variation in the United States, 2006. *J Pediatr*, 2012. 160(5): p. 814-9.

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