



Università degli Studi dell'Insubria

Dipartimento di Medicina e Chirurgia

Dottorato di Medicina Clinica e Sperimentale e Medical Humanities

XXXIII Ciclo

Direttore Prof. Marco Cosentino

Valutazione costo/beneficio della spesa sanitaria nei percorsi diagnostici e terapeutici per i Disturbi Respiratori del Sonno (DRS) nel bambino sul territorio nazionale: strategie per ottimizzare la gestione, implicazioni etiche ed economiche

Cost / benefit evaluation of healthcare spending in diagnostic and therapeutic pathways for paediatric Sleep Disordered Breathing (SDB) in Italy nationwide: management optimisation strategies, ethical and economic implications

Docente guida: Dott.ssa Luana Nosetti

Tesi di Dottorato

Giacomo Broggi

Matr.735052

Anno Accademico 2019/2020



Servizio di otorinolaringoiatria

Dr. med. R. Piantanida

Primario

Dr. med. F. Barucca

Medico capoclinica

Dr. med. R. Spasiano

Medico capoclinica

Dr. med. M. Paglia

Medico capoclinica

Dr. med. S. Ermanni

Medico aggiunto

Dr. med. E. Jacot

Medico aggiunto

Dr.ssa med. E. Scotti

Medico aggiunto

Dr. med. A. Pellanda

Medico aggiunto

Dr. med. E. Scaini

Medico assistente

L'elaborato del Dr. Massimo Broggi, prende in considerazione una problematica importante nello scenario pediatrico attuale, a livello nazionale ed internazionale.

Dopo un'adeguata introduzione in cui vengono presentati gli aspetti clinici salienti dei Disturbi Respiratori del Sonno (DRS) nel bambino, il Candidato, introduce la valutazione dell'impatto economico relativo ai DRS, nonché delle possibili offerte di miglioramento nella strategia gestionale.

In questo senso è stata programmata una interessante raccolta di dati sullo stato dell'arte in merito in Italia che è poi stata portata a termine con; vengono quindi presentati i dati raccolti commentandoli in maniera articolata e completa, attraverso un confronto con le realtà interne all'Italia e all'estero.

Infine si è proceduto ad uno studio originale focalizzato su di uno schema operativo che, se attuato, potrebbe consentire una razionalizzazione dei processi gestionali dei DRS in età pediatrica con l'auspicabile miglioramento sia in termini clinici che economici, per i bambini e più in generale del sistema.

Trovo infine ben equilibrata la sintassi e la presentazione grafica, nonché completi i riferimenti bibliografici.

Ritengo opportune alcune piccole correzioni, come da schema qui sotto:

1. Pag. 15, la fig. 1 secondo me va dopo la pag. 19, in quanto viene spiegata solo allora. NB Verificare che TUTTE le figure e le tabelle abbiano SEMPRE la spiegazione nel titolo (chi le guarda deve capire di cosa si tratta)

2. Pag. 16, la Tab. 1 (manca il numero) e la Tab. 2 creano un po' di confusione per la distinzione tra clinica e clinica e strumentale, in quanto se ne parla solo molto più avanti...

3. Pag. 17, Tutto il paragrafo da "In base a centri intervistati", va messo PRIMA della Tab. 1. Nell'ultima frase scriverei "in quasi la" invece di "poco meno della", connotato positivo.

Auspico che la Tesi ottenga la massima considerazione.

Dr. med. Renato Piantanida

Stim. Prof. Piantanida,

Ringrazio per la revisione e la considerazione prestata al mio lavoro.

Mi prego di inviare la tesi riveduta e corretta, recependo le indicazioni fornite, in particolare

1. verificata la collocazione e l'inserimento delle spiegazioni delle figure indicate, come risulta dalle evidenziazioni operate nel corpo della tesi, in particolare la descrizione dei grafici delle regioni italiane. La Fig.1 tratta dei questionari raccolti presso le pediatrie ospedaliere, mentre correttamente a pag.22 risulta la mappa italiana con anche i Pediatri di Libera Scelta.

2. l'inserimento delle tabelle a pag.17 come da indicazioni al fine di collocarle nell'impaginazione congiuntamente alla parte di testo che le descrive

3. la variazione lessicale a p.17 come indicato, anch'essa evidenziata nel testo

Distinti saluti,

Giacomo Broggi



Ospedale Regionale di Lugano

Servizio di otorinolaringoiatria

Dr. med. R. Piantanida

Primario

Dr. med. F. Barucca

Medico capoclinica

Dr. med. R. Spasiano

Medico capoclinica

Dr. med. M. Paglia

Medico capoclinica

Dr. med. S. Ermanni

Medico aggiunto

Dr. med. E. Jacot

Medico aggiunto

Dr.ssa med. E. Scotti

Medico aggiunto

Dr. med. A. Pellanda

Medico aggiunto

Dr. med. E. Scaini

Medico assistente

Lugano, 19 gennaio 2021

La tesi del Dr. Giacomo Broggi: "Valutazione costo/beneficio della spesa sanitaria nei percorsi diagnostici e Terapeutici per i Disturbi Respiratori del Sonno (DRS) nel bambino sul territorio nazionale: strategie per ottimizzare la gestione, implicazioni etiche ed economiche - Cost / benefit evaluation of healthcare spending in diagnostic and therapeutic pathways for paediatric Sleep Disordered Breathing (SDB) in Italy nationwide: management optimisation strategies, ethical and economic implications", dopo le correzioni suggerite e debitamente eseguite appare strutturata in maniera adeguata e soddisfacente.

Pertanto, la tesi stessa può essere ammessa alla discussione finale di fronte alla Commissione per il conferimento del titolo di Dottore di Ricerca.



Dr. med. Renato Piantanida



UNIVERSITÀ DEGLI STUDI DI VERONA
DIPARTIMENTO DI SCIENZE CHIRURGICHE, ODONTOSTOMATOLOGICHE
E MATERNO-INFANTILI
Sezione di Pediatria

Valutazione costo/beneficio della spesa sanitaria nei percorsi diagnostici e terapeutici per i Disturbi Respiratori del Sonno (DRS) nel bambino sul territorio nazionale: strategie per ottimizzare la gestione, implicazioni etiche ed economiche.

Commenti Generali

La tesi viene articolata in due Aims: a. valutazione del percorso diagnostico/terapeutico nella gestione dei Disturbi Respiratori del Sonno mediante somministrazione di questionario, b. implementare strategie di gestione dei Disturbi Respiratori del Sonno individuando dei coefficienti/indicatori per misurare il costo/beneficio.

L'introduzione è ben congegnata e concisa. Prosegue poi con la spiegazione dei Disturbi Respiratori del Sonno in ambito pediatrico, le complicanze, la terapia.

Quindi nei Materiali e Metodi vengono spiegati i due Aims.

Il Primo Aim viene svolto mediante la somministrazione di un Questionario di 20 item. Non è nostro compito criticare la preparazione di questi 20 item, però se possiamo esprimerci, non vediamo la validazione di questo questionario. In ambito specifico è sempre importante usare degli strumenti validati e verificati.

Quindi in secondo Aim nel quale vengono "pianificate" le strategie di gestione in rapporto alle risorse e la valutazione del costo/beneficio. Per i non addetti ai lavori che si occupano di gestione economica a volte appare un pochino "complessa", e magari una qualche esemplificazione poteva essere fatta. Comunque la versione attuale si dimostra centrata sull'argomento discusso.

Risultati: il nostro consulente statistico, che ha letto l'approccio statistico di questa tesi, si è chiesto se l'autore ha valutato quei fattori che si definiscono confondenti, oppure ha ritenuto non influenti tali fattori, vista l'analisi statistica eseguita.

Interessante la scelta di sottolineare le criticità emerse e i correttivi.

Lo svolgimento del secondo Aim comporta la "costruzione" di un modello per la gestione dei percorsi diagnostici terapeutici su base nazionale. Le informazioni economiche e sulla spesa sanitaria permettono di capire questo secondo Aim.

La discussione e la conclusione appaiono ben costruite e coerenti con l'analisi dei risultati ed il paragone con altre realtà sanitarie.

Commenti Specifici:

Probabilmente dipende da regole insite nell'Università. Nella nostra Università la Tesi deve avere obbligatoriamente un Abstract sia in Italiano che in Inglese, cosa che qui non abbiamo trovato.

In ogni caso la Tesi può essere AMMESSA alla discussione orale Davanti alla Commissione per l'attribuzione al Candidato del Titolo di PhD.

A disposizione per qualsiasi chiarimento.
Cordialità


Prof. Angelo Pietrobelli

Prof. Angelo Pietrobelli – Professore Associato
Ospedale della Donna e Del Bambino, P.le Stefani, 1 - 37126 Verona, Italy | T +39 045 8127125
angelo.pietrobelli@univr.it

INDICE

1. Introduzione	pag. 7
2. Disturbi respiratori ostruttivi del sonno nel bambino	pag. 9
3. Materiali e metodi	pag. 16
4. Risultati	pag. 19
5. Discussione	pag. 50
6. Conclusioni	pag. 57
7. Bibliografia	pag. 60

1. INTRODUZIONE

I “Disturbi Respiratori nel Sonno” (DRS) vengono definiti come uno spettro di disturbi del respiro durante il sonno, caratterizzati da un aumento prolungato dello sforzo respiratorio e della resistenza a livello delle vie aeree superiori, dovuto ad una parziale o totale ostruzione delle stesse, comportanti un’alterazione della ventilazione, dell’ossigenazione e della qualità del sonno e comprendono: Russamento Primario, Ipoventilazione Ostruttiva, Sindrome delle Aumentate Resistenze delle Vie Aeree Superiori (UARS), Sindrome delle Apnee Ostruttive nel Sonno (OSAS) [1]

Negli ultimi anni è cresciuto l’interesse e l’attenzione della comunità medica nei confronti di questi disturbi, soprattutto in età pediatrica, per le gravi complicanze cui possono comportare se sottovalutati, per via dell’impatto che questi possono avere sulla qualità di vita del bambino, sul suo sviluppo psico-fisico.

Il russamento abituale in età pediatrica ha una prevalenza alta nella popolazione infantile (in media del 7.45%) e l’OSAS ha una prevalenza stimata variabile fino al 4% nei bambini senza altre patologie associate.

Numerosi studi hanno evidenziato le importanti complicanze dei disturbi respiratori nel sonno di tipo cardio-vascolare, neuro-comportamentale, sull’accrescimento staturponderale con conseguenze rilevanti a livello socio-economico generale.

Queste patologie sono però sottostimate e sottovalutate e numerose sono le lacune conoscitive circa il corretto iter diagnostico-terapeutico da seguire,

Lo studio è articolato in due fasi successive.

Nella prima fase si intende valutare il percorso diagnostico/terapeutico nella gestione dei DRS pediatrici dal punto di vista dei pediatri ospedalieri e dei pediatri di famiglia con la compilazione di un questionario diffuso per via telematica in collaborazione con il gruppo di studio sui DRS della Società Italiana Malattie Respiratorie Infantili (SIMRI), la Società Italiana di Pediatria (SIP) e la Federazione Italiana Medici Pediatri (FIMP).

Nelle seconda fase si intendono pianificare le strategie di gestione che tengano conto delle risorse disponibili spesso scarse e dell’efficacia della prestazione sanitaria erogata. Emerge quindi la necessità di misurarne il beneficio dal punto di vista medico scientifico. Si

tratterà quindi di identificare un indice di efficacia e dei coefficienti ponderati considerando che la problematica economica di allocazione delle risorse non può essere considerata disgiunta da un fatto di etica clinica.

2. DISTURBI RESPIRATORI OSTRUTTIVI DEL SONNO NEL BAMBINO

Con la definizione “Disturbi Respiratori ostruttivi del Sonno” (DRS) si intende un insieme di condizioni di disfunzione delle vie aeree superiori che si manifestano durante il sonno e che sono caratterizzate da russamento e/o da aumento degli sforzi respiratori secondario ad incremento delle resistenze al flusso aereo nelle vie aeree superiori [1].

I DRS dell'età pediatrica possono interessare bambini di tutte le età, dalla prima infanzia alla pubertà. Secondo quanto descritto in un report del 2012 dell'American Academy of Pediatrics (AAP) [2], nel quale sono stati confrontati 10 studi eseguiti in diversi Paesi tra il 2001 e il 2010, la prevalenza della Sindrome delle Apnee Ostruttive del Sonno (OSAS) nella popolazione pediatrica generale si attesta tra l'1,5% e il 5% (diagnosi ottenuta attraverso studio polisunnografico eseguito in laboratorio); per quel che riguarda il Russamento Primario, la prevalenza risulta molto variabile in base allo studio considerato e alla definizione utilizzata, e si estende tra l'1,5% e il 27,6% (in media del 7.45%)

2.1 Classificazione

I DRS di tipo ostruttivo comprendono uno spettro di condizioni cliniche caratterizzate da gradi variabili di gravità dell'ostruzione delle vie aeree superiori:

- **Russamento Primario:** è un disturbo caratterizzato da frequenti episodi di respiro rumoroso (più di tre notti a settimana), senza riscontro di apnee o ipopnee, di risvegli frequenti o di anomalie negli scambi gassosi. Il rumore è prodotto dalla vibrazione del palato molle dovuta al passaggio dell'aria in uno spazio ristretto. Se isolato, il russamento è solitamente considerato un disturbo benigno; può tuttavia essere una manifestazione clinica di disturbi più gravi.
- **Sindrome da aumentata resistenza delle vie aeree superiori (UARS):** si caratterizza per un anomalo aumento delle resistenze delle prime vie aeree cui conseguono russamento, aumento del lavoro respiratorio, risvegli frequenti senza però il riscontro di apnee evidenti e di anomalie negli scambi gassosi.
- **Ipoventilazione ostruttiva:** disturbo spesso associato ad obesità. Si caratterizza per russamento e anomalie degli scambi gassosi, con un aumento della pressione parziale di CO₂ nell'aria espirata e ipossiemia intermittente, in assenza di eventi ostruttivi evidenti.

- **Sindrome delle Apnee Ostruttive del Sonno (OSAS):** sindrome caratterizzata da prolungati episodi di ostruzione parziale e/o da episodi intermittenti di ostruzione completa delle alte vie aeree. Ne conseguono apnee ostruttive, definite come assenza del flusso respiratorio a livello di naso e bocca per almeno due cicli respiratori pur in presenza di sforzi respiratori da parte della muscolatura di torace e addome, ed ipopnee, definite come una riduzione dell'ampiezza del flusso nasale del 50% per una durata di almeno due cicli respiratori. La normale architettura del sonno risulta frammentata e si possono verificare episodi di desaturazione di ossigeno nel sangue.

Tra questi disturbi, l'UARS e l'ipoventilazione ostruttiva sono poco indagati in letteratura e raramente diagnosticati. Vi è infatti sempre più la tendenza ad esprimere i DRS in termini di Russamento Primario o OSAS.

2.2 Eziopatogenesi

Fisiologicamente, durante l'inspirazione l'abbassamento del diaframma determina lo sviluppo di una pressione intratoracica negativa. Qualsiasi condizione che determini un aumento delle resistenze nelle vie aeree superiori induce una maggiore negativizzazione della pressione intratoracica e pertanto, per effetto della legge di Starling, può favorire il collasso della faringe, che nel contesto delle vie aeree risulta essere l'unico tratto non sostenuto da una struttura rigida ossea o cartilaginea. Normalmente, la pervietà delle vie aeree è garantita dall'attivazione della muscolatura della faringe. Tuttavia il tono muscolare fisiologicamente si riduce durante la fase REM del sonno, e pertanto il controllo della pervietà delle vie aeree può essere non adeguato e si può determinare il collasso parziale o completo delle vie aeree con conseguente sindrome ostruttiva con ipopnee o apnee [3].

Per questi motivi l'OSAS è un disturbo che, in generale, si sviluppa come conseguenza di una riduzione degli spazi respiratori e/o per un aumento della collassabilità della faringe. In particolare sono stati individuati tre principali fenotipi di bambini con OSAS, ciascuno dei quali ha una causa preponderante diversa [4].

L'OSAS con fenotipo adenoideo (tipo 1) si associa ad ipertrofia delle vegetazioni adenoidee e delle tonsille palatine. È il fenotipo più rappresentato ed infatti la massima incidenza di OSAS dell'età pediatrica si raggiunge nei bambini di età compresa tra i 2 e gli 8 anni, epoca nella quale lo sviluppo di tali tessuti è al suo massimo. L'ingombro da parte

di adenoidi e tonsille può essere notevole in relazione alle dimensioni ancora ristrette delle vie aeree nei bambini.

Il secondo tipo di OSAS (fenotipo obeso) si associa all'obesità. Questo disturbo metabolico, sempre più frequente anche nella popolazione pediatrica, può essere determinante nello sviluppo di disturbi respiratori ostruttivi in quanto la deposizione del tessuto adiposo in eccesso nei tessuti circostanti le vie aeree ne determina uno schiacciamento, con riduzione dello spazio aereo ed aumento delle resistenze.

Infine, il tipo 3 di OSAS (fenotipo genetico) si manifesta in bambini affetti da sindrome genetica. Tali patologie possono infatti manifestarsi con malformazioni cranio-facciali, quali la micrognazia nella Sindrome di Robin o l'ipoplasia del massiccio facciale nella Sindrome di Crouzon, o con deficit neuromuscolari come nella SMA (atrofia muscolare spinale) o nella Distrofia Muscolare di Duchenne. Tra i bambini sindromici in cui i DRS si manifestano con un'augmentata frequenza ricordiamo anche i pazienti affetti da Sindrome di Down e quelli affetti da Sindrome di Prader-Willi, nei quali si associano apnee centrali ed ostruttive.

In aggiunta alle principali cause precedentemente descritte, è stato riconosciuto un ruolo svolto dalle patologie nasali, le quali possono determinare ostruzione meccanica, come avviene nel caso di deviazioni settali o ipertrofia dei turbinati, o possono indurre un aumento delle resistenze a causa dell'edema della mucosa che si sviluppa in corso di rinite.

2.3 Diagnosi

Il sospetto diagnostico si pone a partire dalle manifestazioni cliniche e dall'esame obiettivo [5]. I sintomi diurni principali riguardano il comportamento, con iperattività, irritabilità, inattenzione e scarso rendimento scolastico; la sonnolenza diurna si manifesta raramente ed è più tipica dell'adolescente e del paziente con OSAS associata ad obesità. Il bambino può inoltre lamentare cefalea mattutina e scarso appetito. L'esame obiettivo risulta solitamente nei limiti di norma; si dovrebbe porre attenzione a rilevare segni quali il respiro orale diurno eventualmente associato a riniti croniche e rinorrea. Sospetto per la presenza di DRS è inoltre il riscontro di una facies adenoidea, caratterizzata da volto allungato, con bocca persistentemente aperta, protrusione della lingua e palato ogivale; essa è una condizione che si sviluppa solitamente in bambini con marcato ingombro delle vie aeree

da parte di adenoidi e tonsille ipertrofiche. In corso di esame obiettivo devono essere attentamente valutate le cavità nasali, per rilevare edema della mucosa, ipertrofia dei turbinati, deviazioni del setto o abbondanti secrezioni mucose, tutte condizioni che possono determinare ostruzione delle vie aeree. L'ispezione del cavo orale permette di determinare il volume tonsillare, le dimensioni e il posizionamento della lingua e la conformazione del palato. Nel bambino con sospetto di DRS è infine importante riconoscere precocemente un eventuale ritardo nell'accrescimento staturale-ponderale e/o la presenza di condizioni di obesità.

Il russamento è la principale manifestazione clinica notturna indicativa per la presenza di un DRS. È utile richiedere ai genitori se il bambino ha mai avuto episodi di pause respiratorie notturne associate a sforzi della muscolatura respiratoria ed eventualmente a movimenti paradossi di torace e addome. Il sonno è spesso descritto come disturbato, caratterizzato da frequenti cambi di posizione, abbondante sudorazione notturna, e numerosi risvegli. Il bambino può spontaneamente assumere posizioni anomale durante il sonno con iperestensione del capo per garantire una maggiore pervietà delle vie aeree. I bambini con DRS possono inoltre manifestare episodi di enuresi.

Nei bambini ritenuti ad alto rischio sulla base dell'anamnesi e dell'esame obiettivo occorre confermare la diagnosi con una valutazione strumentale. L'esame gold standard, secondo quanto ribadito dall'AAP, è la polisonnografia notturna eseguita in laboratorio [2]. Attraverso questo esame si ottengono informazioni sull'attività cardiaca (ECG), sull'attività cerebrale (EEG) e sui movimenti oculari (EOG), con il riconoscimento delle diverse fasi del sonno, sul flusso aereo nasale, sulla qualità degli scambi gassosi e sulla saturazione periferica di O₂, sui movimenti respiratori toracici ed addominali; si può associare anche a videoregistrazione. Si tratta di un esame costoso, di non semplice esecuzione e di non facile reperibilità su tutto il territorio. Per questi motivi talvolta si ricorre ad altre indagini strumentali più semplici quali l'ossimetria notturna, la polisonnografia su NAP e la poligrafia ambulatoriale, che consiste in una polisonnografia senza registrazione elettroencefalografica.

2.4 Complicanze

L'OSAS è una sindrome che, se non tempestivamente riconosciuta ed adeguatamente trattata, può portare allo sviluppo di importanti comorbidità con gravi effetti sul normale

sviluppo del piccolo paziente. Come dimostrato in numerosi studi [2], l'OSAS può determinare disfunzioni dell'apparato cardiovascolare, per lo più di tipo subclinico. Esse sembrano mediate dall'anomala attivazione del sistema nervoso autonomo che si verifica per i ricorrenti episodi di ostruzione respiratoria associati a desaturazione. Nel bambino affetto da OSAS è pertanto spesso dimostrabile una compromissione della contrattilità di entrambi i ventricoli ed un aumento della pressione arteriosa sia sistolica che diastolica. In bambini con cardiopatie congenite è possibile che l'OSAS possa aggravare la patologia fino allo sviluppo di cuore polmonare o scompenso cardiaco congestizio.

I DRS hanno inoltre significative ripercussioni sullo sviluppo neuropsicologico, cognitivo [11] e comportamentale dei giovani soggetti in via di sviluppo, come dimostrato da numerosi studi descritti in un report dell'American Academy of Pediatrics [2]. Nell'ambito della sfera cognitiva, i principali deficit individuati riguardano funzioni quali l'apprendimento, la memoria, il linguaggio e il ragionamento astratto. Da un punto di vista comportamentale, i bambini con DRS manifestano con maggiore frequenza il Disturbo da Deficit di Attenzione/Iperattività, oltre a manifestare facile irritabilità, nervosismo ed aggressività.

In numerosi studi [2] è stata inoltre osservata una correlazione tra l'OSAS e la normale crescita staturponderale. Nei bambini affetti, infatti, il rallentamento della crescita potrebbe dipendere dalla combinazione tra un ridotto apporto calorico ed un aumentato consumo di energie da parte della muscolatura respiratoria. Inoltre in bambini affetti da OSAS è stata dimostrata una ridotta secrezione notturna di ormone della crescita ed una ridotta concentrazione sierica di IGF-1, i cui livelli tendono a ritornare a valori normali a distanza di sei mesi dall'intervento di adenotonsillectomia, con ripresa di un normale ritmo di crescita.

Infine, negli ultimi anni sempre maggior interesse è stato rivolto allo studio su una possibile correlazione tra OSAS ed uno stato di infiammazione sistemica [2]. Nei pazienti con OSAS risulta infatti aumentata la produzione di radicali liberi dell'ossigeno per effetto dell'ipossiemia intermittente; inoltre l'ipossiemia e la frammentazione del sonno indurrebbero una maggior attivazione del sistema nervoso simpatico. Questi fattori potrebbero indurre infiammazione o esacerbare lo stato di infiammazione correlato all'obesità. Diversi studi hanno valutato la condizione di infiammazione sistemica attraverso il dosaggio sierico della Proteina C Reattiva (PCR); non tutti gli studi sono concordi, ma essa sembrerebbe

aumentare solo oltre un certo livello di severità dell'OSAS.

2.5 Terapia

Secondo quanto suggerito nelle linee guida pubblicate nel 2016 dalla European Respiratory Society (ERS) [1], la gestione terapeutica dei DRS in età pediatrica dovrebbe seguire un approccio progressivo e graduale, applicando in successione le diverse strategie terapeutiche proposte, fino ad ottenere la completa risoluzione dei disturbi. La combinazione dei diversi trattamenti deve essere calibrata sulla base della gravità del disturbo diagnosticato.

Nel paziente con diagnosi di OSAS legata ad ipertrofia di adenoidi e tonsille, il primo approccio terapeutico è l'intervento di adenotonsillectomia (AT). Risulta essere un intervento completamente risolutivo in due pazienti su tre e si associa ad un miglioramento significativo dei parametri polisonnografici. Tuttavia, in circa un terzo dei pazienti operati, segni di OSAS possono persistere anche dopo l'intervento. È un'evenienza che si verifica soprattutto in bambini obesi, nei casi più severi di OSAS o nei bambini affetti da asma cronica.

Molto importante nella gestione dei DRS è anche la perdita di peso nei bambini obesi. Può essere la prima strategia terapeutica da adottare, oppure deve essere un obiettivo da conseguire dopo l'intervento di AT nei bambini in sovrappeso nei quali persistono alterazioni respiratorie nel sonno.

In un'ottica sempre più multidisciplinare, che non è semplice giustapposizione di saperi, ma visione integrata ed unitaria, l'approccio ai DRS deve anche considerare la necessità di ricorrere a trattamenti ortodontici e di chirurgia maxillo-facciale quali l'espansione rapida del mascellare.

La somministrazione di corticosteroidi nasali e/o di antileucotrieni orali sembra essere efficace nel ridurre la severità delle forme lievi e moderate di OSAS e nei pazienti con persistenza di segni di OSAS dopo AT [6] [7]. Tali farmaci infatti, agendo sull'infiammazione della mucosa nasale, ne riducono l'edema migliorando così la pervietà delle vie aeree superiori.

Infine, in caso di fallimento delle precedenti strategie terapeutiche, si può rendere necessario il ricorso a sistemi di ventilazione non invasiva a pressione positiva continua.

3. MATERIALI E METODI

Lo studio è stato articolato in due fasi successive.

Nella prima fase si è voluto valutare il percorso diagnostico/terapeutico nella gestione dei DRS pediatrici dal punto di vista dei pediatri ospedalieri e dei pediatri di famiglia con la compilazione di un questionario diffuso per via telematica in collaborazione con il gruppo di studio sui DRS della Società Italiana Malattie Respiratorie Infantili (SIMRI), la Società Italiana di Pediatria (SIP) e la Federazione Italiana Medici Pediatri (FIMP).

Nelle seconda fase si sono pianificate delle strategie di gestione in base alle risorse disponibili, che spesso sono scarse, e all'efficacia della prestazione sanitaria erogata con l'identificazione di un indice di efficacia e dei coefficienti ponderati

Prima fase:

E' stato realizzato un questionario utilizzato per una survey esplorativa, che ha coinvolto i pediatri ospedalieri e di famiglia di tutto il territorio nazionale.

È stato creato un questionario di 20 item per misurare la consapevolezza, l'attitudine, la pratica e la soddisfazione dei pediatri riguardo alla gestione graduale della DRS. Creazione di questionari auto-somministrati (SAQ)

Il questionario SAQ è stato creato dall'SDWG (adattando altri questionari esistenti e convalidati per valutare la conoscenza del sonno nel contesto dell'istruzione medica).

Il questionario SAQ è stato realizzato in quattro fasi per un periodo di 12 mesi, compresa la selezione iniziale degli articoli, la revisione del panel di esperti, i test pilota per la valutazione di affidabilità e validità e la selezione e convalida degli articoli finali.

Il questionario SAQ, ad eccezione dei dati demografici, è stato strutturato in quattro sezioni principali: Consapevolezza degli DRS (*sezione A*), Atteggiamento relativo all'attitudine per far diagnosi di DRS (*sezione B*), Pratica sull'approccio al trattamento degli DRS (*sezione C*), Valutazione della soddisfazione personale nella gestione di DRS (*sezione D*). Il questionario SAQ è stato preparato come modulo specifico da compilare online in forma anonima, con domande in formato chiuso, che richiedeva previa registrazione sul sito web.

La *sezione A* era composta da domande sulla rilevanza del problema "Pensi che l'DRS sia un problema? ", " Nella tua pratica clinica, consideri un percorso multidisciplinare nella

gestione di un bambino con DRS? "" Saresti interessato a ricevere materiale informativo su DRS? ", " Saresti interessato a frequentare un corso di formazione su DRS?". La possibile risposta alle domande era "non rilevante" o "poco rilevante" o "rilevante" o "molto rilevante"

La *sezione B* esaminava l'attitudine nel far diagnosi di DRS utilizzando le seguenti domande: "Come si effettua la diagnosi DRS?", "Con quale frequenza vengono diagnosticate le patologie di OSAS, russamento e ALTE?"

La *sezione C* valutava l'approccio terapeutico nella gestione degli DRS suddividendolo in base ai trattamenti maggiormente consigliati: farmaci, adenoidectomia, adenotonsillectomia, perdita di peso e ventilazione non invasiva.

La *sezione D* valutava i sentimenti di competenza personale sulla gestione dell'DRS in relazione all'utilizzo della pulsossimetria notturna, della poligrafia, e della polisonnografia completa con EEG.

La fase di raccolta dei dati si è realizzata tramite invio del questionario per e-mail a 180 responsabili delle Unità Operative di Pediatria ospedaliera presenti sul territorio nazionale in base ai dati forniti dalla Società Italiana di Pediatria (SIP) ed ai pediatri di famiglia appartenenti alla FIMP.

Per lo scarso tasso di risposte ottenute, il questionario è stato inviato una seconda volta tramite posta elettronica, senza, comunque riuscire a raggiungere una percentuale di adesione soddisfacente. Si è deciso di contattare per via telefonica le U.O. di Pediatria che non avevano aderito al questionario via e-mail, allo scopo di ottenere dati rappresentativi di ogni singola regione italiana.

I dati così ottenuti sono stati sottoposti a rielaborazione statistica, in collaborazione con il CNR di Palermo, in due momenti successivi:

Per la valutazione dei dati relativi alle pediatrie ospedaliere è stato applicato il test del chi-quadro (χ^2); si è considerato statisticamente significativo un valore di p-value <0.05; tutte le analisi statistiche sono state condotte con il software R (versione 3.1.0).

Per valutare le differenze di variabili categoriali tra i gruppi di pediatri di famiglia ed ospedalieri è stato usato il test del chi quadrato. È stata inoltre applicata una regressione per stimare la soddisfazione della gestione dei DRS. Le analisi sono state eseguite utilizzando il software R 3.5.2. È stato considerato un valore p <0,05 come statisticamente significativo. E' stato utilizzata una Latent class analysis (LCA) per consentire

l'identificazione di gruppi di rispondenti con consapevolezza, attitudine, pratica e soddisfazione simili. La LCA è stata calcolata utilizzando il pacchetto R polCA. [8] [9] [10]

Seconda fase

Si è realizzato un modello di gestione sanitaria dei DRS pediatrici mediante un'analisi iniziale della capacità con identificazione di indici di efficacia e analisi della dimensione ottima in ambito territoriale. In questa fase di analisi dei costi e dei benefici sono risultate necessarie inoltre le stime della dimensione della patologia epidemiologica, ed una valutazione della capacity con costi diversi in relazione ad efficacia (ad esempio utilizzare una poligrafia domiciliare rispetto alla polisonnografia ospedaliera). Questa parte dello studio è stata effettuata in collaborazione con l'Università Bocconi di Milano e con il dott. L. Masini dell'AORN Santobono Pausilipon Napoli.

4. RISULTATI

Prima fase

Pediatri Ospedalieri

Si è riusciti a raccogliere, in collaborazione con la Società Italiana di Pediatria (SIP) che ci ha fornito elenco e recapiti telefonici, i dati relativi a 102 Pediatri responsabili di Unità Operative di Pediatria, di cui 53(52%) al Nord, 13 (13%) al Centro e 36 (36%) al Sud con risposte da tutte le regioni d'Italia. Lombardia e Campania quelle più rappresentate, avendo fornito, rispettivamente, il 19,6% ed il 14,7% delle risposte raccolte. I dati sono stati rivalutati per numerosità della popolazione nelle varie regioni.



Fig.1-questionari per regione%)

Si è rilevato che il 57 % dei responsabili delle U.O. di Pediatria intervistate (58 su 102) si occupavano di DRS; fra tutte le U.O. interpellate, più della metà (52 su 102, pari al 51%) riconoscevano nei disturbi respiratori del sonno un problema rilevante, il 43% (44 su 102) un problema molto rilevante. Secondo i Pediatri ospedalieri intervistati, il 46% dei genitori sapeva dell'esistenza dei DRS, ma solo il 16% era informato sulle loro potenzialmente gravi conseguenze. I genitori più consapevoli sembravano essere quelli del Nord Italia.

Per quanto riguardava il tipo di patologia, il disturbo diagnosticato più spesso tra quelli che fanno parte della sfera dei DRS è risultato essere il russamento primario (79%), seguito dall'OSAS (il 50% delle U.O. intervistate riferiva di diagnosticarla spesso). In base alle modalità con cui veniva effettuata la diagnosi, il 69% dei centri intervistati (70 su 102) riferiva di essere in grado di eseguire esami strumentali a scopo diagnostico. La pulsossimetria notturna era utilizzata nel 66% dei centri (67 su 102), la poligrafia notturna con monitoraggio cardiorespiratorio completo nel 46% dei centri (47 su 102) e la PSG completa con EEG era eseguibile solo nel 23% (23 su 102) dei centri interpellati. La diagnosi strumentale veniva effettuata più spesso al Nord (51%), rispetto al Centro (19%) e al Sud (30%). Invece, per quanto riguarda la modalità diagnostica basata sull'anamnesi e sull'esame clinico il 47% dei centri che la usavano in modo esclusivo erano al Sud.

I centri ospedalieri italiani che si occupavano di DRS, nella grande maggioranza dei casi (73%), disponevano anche della possibilità di una diagnosi strumentale, ed avevano anche una maggiore percezione della gravità del problema: nel 99% dei casi reputavano i DRS un problema grave o molto grave. Non solo, ma i centri che effettuavano una diagnosi strumentale avevano anche una maggiore affluenza di piccoli pazienti affetti da questo problema: il 19% (13 su 70) affermava di visitare almeno 20 bambini al mese con DRS (mentre nessuno dei centri senza la possibilità di diagnosi strumentale visitava altrettanti bambini), ed il 77% (54 su 70) ne visitava meno di 20 al mese.

Per quanto riguarda gli strumenti terapeutici, il trattamento che più spesso veniva proposto per la gestione dei DRS in età pediatrica era il calo ponderale: proposto spesso nel 51% dei centri intervistati. Il trattamento farmacologico veniva impiegato spesso nel 45% dei casi, molto spesso nel 7% dei casi; il 31% dei centri lo impiegavano raramente, ed il 17% affermava di non ricorrervi mai. La terapia chirurgica di adenoidectomia o dell'adenotonsillectomia veniva utilizzata in quasi la metà dei centri intervistati.

Nettamente meno impiegata risultava la terapia ventilatoria nei DRS pediatrici: il 48% non se ne avvaleva mai, soltanto il 10% dei centri intervistati vi ricorreva spesso o molto spesso. Dall'analisi dei dati, è emerso anche, che esistevano delle differenze geografiche in merito al tipo di trattamento proposto: al Centro e al Sud esisteva una maggiore tendenza a proporre la terapia farmacologica spesso o molto spesso rispetto a quanto avveniva al Nord ($p\text{-value}=0.002$); per quanto concerne, invece, l'approccio chirurgico mediante AT, si rilevava una maggiore propensione del Centro e del Nord a ricorrere a questa possibilità di trattamento rispetto a quanto avveniva al Sud ($p\text{-value}=0.033$).

Tabella Risposte al questionario per tipo di diagnosi

	Clinica n=32	Clinica e Strumentale n=70	p-value
Collocazione Geografica			0.011
Nord	17 (53%)	36 (51%)	
Centro	0 (0%)	13 (19%)	
Sud	15 (47%)	21 (30%)	
DRS (Disturbi Respiratori del Sonno)	7 (22%)	51 (73%)	<0.001
Pensi che i DRS siano un problema:			0.011
poco rilevante	5 (16%)	1 (1%)	
rilevante	17 (53%)	35 (50%)	
molto rilevante	10 (31%)	34 (49%)	
Percorso multidisciplinare nella gestione di un bambino con SDB	15 (47%)	53 (76%)	<0.001
Soddisfatti della gestione pazienti DRS	7 (22%)	44 (63%)	<0.001
Interessato a ricevere materiale informativo sui DRS	29 (91%)	67 (96%)	0.375
Quanti bambini con disturbi Respiratori nel sonno (DRS) visitate ogni mese?			0.016
Nessuno	2 (6%)	3 (4%)	
<20	30 (94%)	54 (77%)	
≥20	0 (0%)	13 (19%)	
Sindrome delle apnee Ostruttive nel Sonno (OSAS)			<0.001
mai	2 (6%)	1 (1%)	
raramente	24 (75%)	24 (34%)	
Quanto spesso sono proposti i seguenti trattamenti?			
Farmacologico, n (%)			0.412
mai	8 (25%)	9 (13%)	
raramente	9 (28%)	23 (33%)	
spesso	14 (44%)	32 (46%)	
molto spesso	1 (3%)	6 (9%)	
Adenoidectomia, n (%)			1
mai	2 (6%)	6 (9%)	
raramente	14 (44%)	28 (40%)	
spesso	16 (50%)	34 (49%)	
molto spesso	0 (0%)	2 (3%)	
Adenotonsillectomia, n (%)			0.226
mai	3 (9%)	3 (4%)	
raramente	19 (59%)	32 (46%)	
spesso	10 (31%)	31 (44%)	
molto spesso	0 (0%)	4 (6%)	
Calo di Peso, n (%)			0.622
mai	2 (6%)	3 (4%)	

Tab.1

Bisogna, inoltre, considerare che il 66% (67 su 102) dei centri che hanno aderito allo studio disponeva di un percorso multidisciplinare per l'inquadramento e la gestione dei DRS pediatrici. Tali percorsi multidisciplinari erano più spesso individuabili nei centri che disponevano della possibilità di diagnosi strumentale, rispetto a quelli che potevano

contare solo sulla valutazione clinica (76% vs 47%), e, inoltre, si trovavano più spesso al Nord ed al Centro (rispettivamente, il 68% ed il 100% dei centri di queste macroaree geografiche avevano la possibilità di indirizzare i bambini con DRS verso un percorso di gestione multidisciplinare, contro il 56% dei centri del Sud).

Per quanto riguarda il livello di soddisfazione degli intervistati, il campione è risultato equamente diviso: il 50% si riteneva soddisfatto delle modalità con cui veniva gestito il problema dei DRS nel proprio centro, il restante 50% si dichiarava, invece, insoddisfatto; tale rapporto vale sia al Nord, sia al Centro, sia al Sud, senza differenze statisticamente significative.

La quasi totalità dei Pediatri ospedalieri sarebbe stato interessato a ricevere materiale informativo (94%) o a partecipare a corsi di formazione sul tema (97%). Con una differenza significativa dal punto di vista statistico tra soddisfatti e insoddisfatti. Tra i soddisfatti, l'88% (45 su 51) erano interessati ad una maggiore formazione, mentre tale percentuale era del 100% (51 su 51) negli insoddisfatti (p-value= 0.026).

Per quanto riguarda i parametri che aumentavano le probabilità di essere soddisfatti nel centro di lavoro erano: 1) la possibilità di effettuare una diagnosi strumentale, e non solamente clinica. Chi lavora in un centro che effettua anche diagnosi strumentale di DRS è soddisfatto nel 63% dei casi, contro il 22% di chi lavora in un centro che non ha questa possibilità. Inoltre, anche se andiamo a considerare solo centri che possiedono la possibilità di diagnosi strumentale, emerge che, per ogni tipo di strumento a disposizione, i soddisfatti ne fanno un uso maggiore rispetto agli insoddisfatti (pulsossimetria: 80% vs 51%; poligrafia notturna: 69% vs 24%; PSG completa + EEG: 33% vs 12%; valutazione della CO₂: 41% vs 12%). 2) La possibilità di usufruire di una gestione multidisciplinare dei DRS: l'88% (45 su 51) dei Pediatri che si definiscono soddisfatti delle modalità con cui viene affrontato il problema lavorano in U.O. che prevedevano la gestione multidisciplinare del disturbo; al contrario, tra gli insoddisfatti, solo il 45% (23 su 51) lavorava in U.O. che offrivano le medesime possibilità. 3) Il numero di bambini visitati al mese: gli operatori che si definivano soddisfatti, nel 25% dei casi, lavoravano in centri dove venivano visitati almeno 20 bambini/mese. 4) La frequenza con cui venivano diagnosticate le OSAS. Il 61% dei soddisfatti lavorano in centri che effettuano spesso diagnosi di OSAS, contro il 39% degli insoddisfatti;

Questi parametri sono gli uni la conseguenza degli altri: è verosimile, infatti, che i centri che effettuano la diagnosi con strumenti ed hanno la possibilità di proporre percorsi multidisciplinari siano anche, di riflesso, quelli che visitino più bambini nell'arco di tempo ed effettuino più diagnosi di OSAS. Pertanto, applicando una regressione logistica, i più importanti predittori del livello di soddisfazione risultano: la possibilità di intraprendere un percorso multidisciplinare e la possibilità di effettuare la polisinnografia/poligrafia notturna. Lo studio fornisce pertanto informazioni per porre le basi di un modello organizzativo per la gestione dei DRS a livello nazionale in base a quanto territorialmente disponibile a livello ospedaliero. [14]

Pediatri di famiglia

Per completare la valutazione dei dati nazionali sulla gestione e soddisfazione dei DRS pediatrici era fondamentale avere informazioni relative ai pediatri di Famiglia o di Libera scelta (PLS) che rappresentano una parte fondamentale della rete assistenziale territoriale. Il questionario standardizzato è stato inviato ai pediatri di famiglia italiani le cui email ci sono state fornite dalla Federazione Italiana Medici Pediatri (FIMP). I pediatri di famiglia (PLS) che hanno risposto al sondaggio sono stati in totale 594

I risultati ottenuti sono stati confrontati con quelli ottenuti da 420 pediatri delle UO ospedaliere omogenei per caratteristiche di appartenenza, per un totale di 1042 questionari valutati. I risultati ottenuti sono stati i seguenti:

La distribuzione geografica degli intervistati è stata riportata nella Figura 1, anche se alcune regioni sono poco rappresentate, le regioni geografiche sono quasi equamente distribuite (Nord 39,94%, Centro 29,09% e sud 30,97%). Il 91% degli intervistati considerava i DRS un problema clinico molto rilevante, il 79% era interessato ad avere materiale didattico. Il 44% dei pediatri aveva fatto diagnosi di DRS in base alla clinica, mentre il 56% aveva fatto diagnosi di DRS basata su esame clinico e misurazioni strumentali. Il russamento era la più frequente patologia diagnosticata (83%), OSAS era stata diagnosticata dal 27% dei pediatri. I risultati ottenuti hanno mostrato che il trattamento chirurgico era il più prescritto, adenoidectomia dal 55% dei rispondenti, adenotonsillectomia dal 38%, perdita di peso e trattamento farmacologico dal 39% e NIV dal 6% dei pediatri. Il 56% di pediatri utilizzava la pulsossimetria, la poligrafia notturna il 52% con monitoraggio cardio-respiratorio completo e il 47% la polisinnografia completa

(PSG) con EEG. Il 59% si è dichiarato soddisfatto della gestione di pazienti con DRS. Avere un percorso multidisciplinare è risultato essere associato ad una maggiore probabilità di soddisfazione (OR = 7,49, IC 95% [5,51-10,26]). Avere la possibilità di esami strumentali aumentava la probabilità di soddisfazione, in particolare chi aveva la possibilità di effettuare la pulsossimetria aveva una probabilità maggiore di essere soddisfatto (OR = 1,68, IC 95% [1,21-2,35]), nonché chi aveva la poligrafia (OR = 1,42, IC 95% [1,02-1,97]). Essere interessati al materiale informativo era associato ad una maggiore soddisfazione (OR = 0,36, 95% IC [0,34-0,55]). Confrontando i risultati ottenuti da pediatri di Famiglia e pediatri ospedalieri (Tabella 1), si è evidenziato che i pediatri ospedalieri più frequentemente ritenevano i DRS un problema rilevante (74,76% vs 68,52%, valore p = 0,02), inoltre, essi erano più frequentemente interessati a ricevere materiale informativo (90,95% vs 70,37%, p <0,0001). La patologia più frequentemente diagnosticata dai pediatri di famiglia era il russamento (87,62% vs 80,3%, valore p = 0,007). Per quanto riguarda la terapia, i pediatri ospedalieri suggerivano molto più spesso farmaci dei pediatri di famiglia (10,95% vs 5,22%, p = 0,001), seguito da adenoidectomia (9,76% vs 3,70%, p <0,001), adenotonsillectomia (4,25% vs 2,02%, p = 0,0006) e perdita di peso (4,76% vs 2,86%, p = 0,0004). I pediatri di famiglia erano più soddisfatti della gestione dei DRS rispetto ai pediatri ospedalieri (40,71% vs 71,72%, p <0,001). I confronti tra pediatri soddisfatti e non soddisfatti riportano che un alto grado di soddisfazione è stato registrato in base alla distribuzione geografica, in particolare gli insoddisfatti vivevano più frequentemente nel Sud Italia (42,21% vs 23,12%, p <0,001). I pediatri insoddisfatti sono più sensibili al problema dei DRS, anzi, pensavano che i DRS erano un problema rilevante più frequentemente dei soddisfatti (76,98% vs 16,7%, p = 0,002). Inoltre, i pediatri soddisfatti eseguivano più frequentemente la pulsossimetria notturna (63,82% vs 45,32%, p <0,001) e la poligrafia notturna (58,46% vs 42,69%, p <0,001) rispetto a quelli insoddisfatti.

Percezione, diagnosi e soddisfazione condizionatamente all'area geografica (Tabella 2). La risposta all'indagine è correlata all'area geografica. Alcune differenze sorgono, in particolare, chi vive al Sud Italia è meno soddisfatto (N = 63,95%, C = 67,8%, S = 43,95%, p <0,001), ha meno possibilità di utilizzare la pulsossimetria notturna (N = 62,96%, C = 65,08%, S = 39,17%, p <0,001) e la poligrafia notturna (N = 58,02%, C = 49,83%, S = 46,18%, p = 0,004) rispetto a chi vive al Nord o al centro Italia.

Ai dati ottenuti è stata applicata una Latent Class Analysis (LCA) La figura 2 illustra le due classi identificate utilizzando l'LCA. Per semplificare la discussione, ogni classe è stata assegnata un'etichetta di riepilogo. La Classe 1 (n. = 368, 36,29%) “ Senza specifica formazione sui DRS e poco soddisfatto” era composta principalmente da Pediatri ospedalieri (62,5%) ed era composta da intervistati che avevano esperienza di un basso tasso di multidisciplinarietà nell'approccio nella gestione dei bambini con DRS (13,7%); riferivano che i genitori di bambini con DRS non erano a conoscenza di potenziali complicanze gravi dei DRS (7,96%); erano poco soddisfatti del modo di gestire i DRS (7,39%); erano più interessati a frequentare i corsi (90,83%) e non avevano consigliato esami strumentali negli ultimi 12 mesi. La Classe 2 (n. = 646, 63,71%) “Con formazione tecnica sui DRS e soddisfatto” era composta principalmente da Pediatri di famiglia (70,6%) ed era composta da intervistati con un alta percentuale di esperienza di approccio multidisciplinare (77,08%); riferivano che i genitori di bambini con DRS erano consapevoli del potenziale gravi complicazioni dei DRS (45,60%); Veniva segnalato un alto livello di soddisfazione (89,51%) in chi aveva consigliato più frequentemente la pulsossimetria notturna (65,25%), la poligrafia (60,63%) e la polisonnografia (PSG) con EEG (51,68%) negli ultimi 12 mesi. La soluzione a 2 classi ha prodotto un'elevata probabilità di appartenenza a una classe per la maggior parte dei partecipanti.

Questo è il primo sondaggio italiano che indaga la percezione, l'attitudine e la pratica nei DRS tra pediatri italiani. In conclusione, il sondaggio ha rivelato una diversa composizione delle risposte e l'approccio al problema dei disturbi del sonno respiratori. Alcune differenze geografiche anche sono emerse. La soddisfazione dipende dal potenziale del centro in cui l'operatore sanitario lavora. Abbiamo riscontrato che il 91% degli intervistati ha riconosciuto un significativo problema clinico rilevante nei DRS. Per quanto riguarda il tipo di patologia, secondo i dati internazionali, il disturbo più frequentemente diagnosticato è il russamento (83%) e l'OSAS (27%).

Fig.2- questionari raccolti per regione, Pediatri Ospedalieri e Pediatri di Libera Scelta (%)

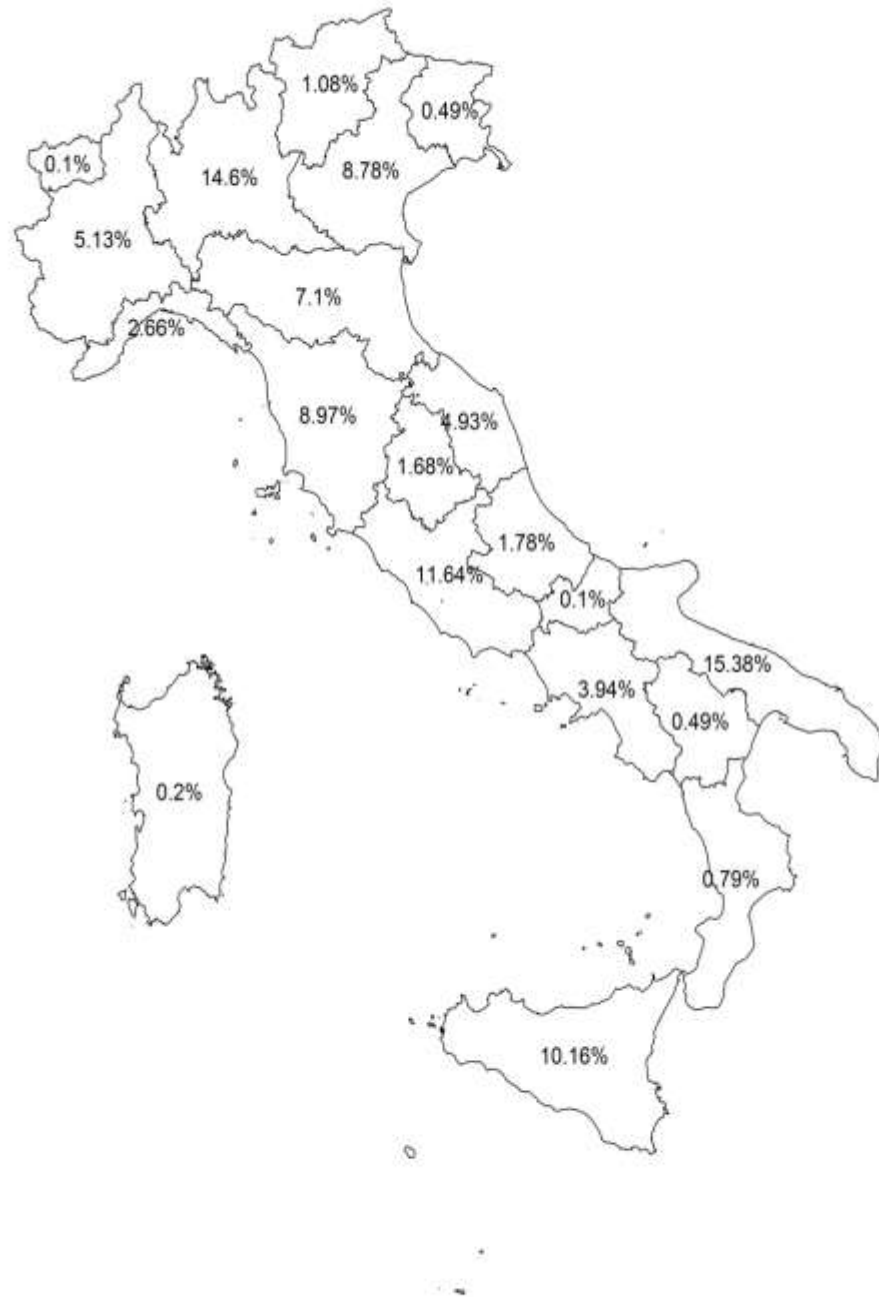


Tabella 2

	Tutti n=1014	Pediatri Ospedalieri n=420	Pediatri di Libera Scelta n=594	p-value
<i>Percezione</i>				
Pensi che i DRS siano un problema:				0.02324
Non importante	4 (0%)	0 (0%)	4 (0.67%)	
Poco importante	88 (9%)	26 (6.19%)	62 (10.44%)	
Rilevante	721 (71%)	314 (74.76%)	407 (68.52%)	
Molto rilevante	201 (20%)	80 (19.05%)	121 (20.37%)	
Saresti interessato a ricevere materiale informativo sui DRS?	800 (78.8%)	382 (90.95%)	418 (70.37%)	<0.001
<i>Soddisfazione</i>				
Ti ritieni soddisfatto del modo in cui sono gestiti i DRS nei tuoi pazienti?	597 (58.87%)	171 (40.71%)	426 (71.72%)	<0.001
Nella vostra realtà lavorativa è possibile avere un percorso multidisciplinare nella gestione di un bambino con DRS?	542 (53.45%)	167 (39.76%)	375 (63.13%)	<0.001

Tabella 3

	Nord n=405	Centro n=295	Sud n=314	p-value
Pensi che i DRS siano un problema:				0.11332
Non importante	1 (0.25%)	3 (1.02%)	0 (0%)	
Poco importante	36 (8.89%)	23 (7.8%)	29 (9.24%)	
Rilevante	296 (73.09%)	197 (66.78%)	228 (72.61%)	
Molto rilevante	72 (17.78%)	72 (24.41%)	57 (18.15%)	
<i>Diagnosi</i>				
Come viene diagnosticato un DRS?, n(%)				0.10973
Evidenza clinica	176 (43.46%)	117 (39.66%)	151 (48.09%)	
Evidenza clinica ed esami strumentali	229 (56.54%)	178 (60.34%)	163 (51.91%)	
<i>Soddisfazione</i>				
Ti ritieni soddisfatto del modo in cui sono gestiti i DRS nei tuoi pazienti?	259 (63.95%)	200 (67.8%)	138 (43.95%)	<0.001
Nella vostra realtà lavorativa è possibile avere un percorso multidisciplinare nella gestione di un bambino con DRS?	236 (58.27%)	170 (57.63%)	136 (43.31%)	<0.001
Pulsossimetria	255 (62.96%)	192 (65.08%)	123 (39.17%)	<0.001
Poligrafia notturna	235 (58.02%)	147 (49.83%)	145 (46.18%)	0.00473
PSG con EEG	177 (43.7%)	131 (44.41%)	169 (53.82%)	0.01479

Criticità emerse e correttivi

Lo studio effettuato aveva l'obiettivo di valutare la conoscenza globale ed il grado di soddisfazione dei Pediatri ospedalieri e di Famiglia in merito alle modalità di gestione

diagnostico-terapeutica dei DRS sul territorio nazionale, ed ha consentito di ottenere un'interessante fotografia della situazione in Italia.

Dall'indagine, è emersa una realtà "a macchia di leopardo", per la diversa composizione delle risposte e per l'eterogeneità nei modi di approcciarsi al problema dei disturbi respiratori del sonno in età pediatrica. Sono emerse alcune differenze geografiche significative, sia dal punto di vista diagnostico (al Nord la diagnosi viene posta più spesso con l'ausilio di strumenti rispetto al Centro-Sud, che invece si basa per lo più sulla clinica), sia dal punto di vista terapeutico (al Nord si ricorre più di frequente al trattamento chirurgico, mentre al Sud a quello farmacologico); anche la possibilità di gestione multidisciplinare dei DRS non è distribuita in modo omogeneo sul territorio nazionale, poiché i centri che ne dispongono si trovano soprattutto al Centro-Nord.

In generale, i Pediatri ospedalieri e di famiglia italiani sono consapevoli del problema dei DRS pediatrici. Dallo studio è emerso che la probabilità per un Pediatra di essere soddisfatto della gestione dei DRS dipende: dalla disponibilità di strumenti idonei alla diagnosi, dal numero di pazienti seguiti per questo problema, dalla possibilità di usufruire di un percorso multidisciplinare avanzato ed integrato. Tutti i pediatri esprimono anche il bisogno di migliorare la propria preparazione con la partecipazione ad incontri di formazione a distanza (FAD) o frontali. [15]

Seconda Fase dello Studio

Costruzione di un modello

Il progetto di ricerca ha utilizzato i risultati ottenuti dallo studio epidemiologico, effettuato nella prima parte, per la costruzione di un modello di gestione dei percorsi diagnostici e terapeutici per i DRS in età pediatrica su tutto il territorio nazionale.

Per comprendere le modalità utilizzate per la sua realizzazione sono necessarie alcune informazioni di economia sanitaria.

I presupposti economici

La Costituzione italiana riconosce e tutela la salute come fondamentale diritto dell'individuo e come interesse della collettività (art. 32). In relazione a tale principio è stato istituito con la Legge 833/1978 il Servizio Sanitario Nazionale (SSN), pubblico, basato sui principi di universalità, uniformità e solidarietà. Esso garantisce l'accesso

all'assistenza sanitaria a tutti i cittadini, sulla base dei bisogni di ciascuno, senza la selezione del rischio. Con la suddetta riforma è stato superato il precedente sistema mutualistico, che era basato sulla contribuzione dei singoli lavoratori e assicurava l'assistenza sanitaria a una parte della popolazione.

Secondo l'articolazione delle competenze dettata dalla Costituzione italiana (art. 117) e dalla riforma del titolo V della Costituzione (legge costituzionale 3/2001), la funzione sanitaria pubblica è esercitata da due livelli di governo:

- a. lo Stato, che definisce i Livelli essenziali di assistenza (LEA) e l'ammontare complessivo delle risorse finanziarie necessarie al loro finanziamento, e che presiede il monitoraggio della relativa erogazione;
- b. le Regioni, che hanno il compito di organizzare i rispettivi Servizi sanitari regionali (SSR) e garantire l'erogazione delle prestazioni ricomprese nei LEA.

La presenza di due livelli di governo rende necessaria la definizione di un sistema di regole che ne disciplini i rapporti di collaborazione nel rispetto delle specifiche competenze. Ciò al fine di realizzare una gestione della funzione sanitaria pubblica che sia capace di coniugare le istanze dei cittadini in termini di bisogni sanitari e il rispetto dei vincoli di bilancio programmati in funzione degli obiettivi comunitari discendenti dal Patto di stabilità e crescita.

Come emerge dagli indicatori elaborati da OCSE (Organizzazione per la cooperazione e lo sviluppo economico) e OMS (Organizzazione mondiale della sanità), la performance del nostro SSN si colloca ai primi posti nel contesto europeo e mondiale, per la qualità delle prestazioni, nonché per l'equità e l'universalità di accesso alle cure. Il miglioramento del livello generale delle condizioni di salute e la salvaguardia dello stato di benessere psicofisico della popolazione costituiscono un risultato importante sotto il profilo del soddisfacimento dei bisogni sanitari. Inoltre, presenta risvolti positivi anche in termini di contenimento della spesa sociale. Tuttavia, il mantenimento degli standard qualitativi raggiunti rende indispensabile affrontare il tema della sostenibilità dei costi del sistema sanitario pubblico in presenza di livelli di finanziamento condizionati dai vincoli finanziari necessari per il rispetto degli impegni assunti dall'Italia in sede comunitaria. Ciò richiede che si prosegua nell'azione di consolidamento e di rafforzamento delle attività di monitoraggio dei costi e della qualità delle prestazioni erogate nelle diverse

articolazioni territoriali del SSN, in coerenza con l'azione svolta negli ultimi decenni, che hanno visto il Servizio sanitario italiano interessato da importanti interventi riformatori, che hanno gradualmente delineato un articolato modello di governance del sistema, che ha consentito di migliorare l'efficienza del settore, anche attraverso un'analisi selettiva delle criticità, fermo restando il principio della garanzia del diritto alla salute costituzionalmente garantito e il rispetto dei vincoli di bilancio programmati.

Gli interventi più significativi del processo complessivo di riforme hanno riguardato: la sottoscrizione di specifiche Intese tra Stato e Regioni, con finalità programmatiche e di coordinamento dei rispettivi ambiti di competenza, l'introduzione e il potenziamento di un sistema di rilevazione contabile economico-patrimoniale, l'attivazione di specifici Tavoli di verifica degli equilibri finanziari e della qualità delle prestazioni erogate dal settore sanitario.

Nella regolamentazione dei rapporti fra lo Stato e le Regioni, costituiscono strumenti essenziali del sistema di governance: l'obbligo regionale di garantire l'equilibrio nel settore sanitario con riferimento a ciascun anno, tramite l'integrale copertura degli eventuali disavanzi sanitari da parte delle regioni che li hanno determinati; l'obbligo della redazione di un Piano di rientro per le regioni con disavanzi sanitari superiori alla soglia fissata per legge fino al commissariamento della funzione sanitaria, qualora il Piano di rientro non sia adeguatamente redatto o non sia attuato nei tempi e nei modi previsti. L'attività di analisi e monitoraggio della gestione della spesa sanitaria a livello regionale ha dimostrato che una gestione non efficiente delle risorse finanziarie in campo sanitario, oltre a determinare rilevanti disavanzi, comporta molto spesso una cattiva qualità dei servizi assicurati ai cittadini. Ne è una conferma il fatto che in tutte le regioni sottoposte ai Piani di rientro dai deficit sanitari si è registrato, contestualmente alla riduzione del disavanzo, anche un miglioramento nell'erogazione dei LEA, seppure in misura non uniforme e con diversa velocità. Queste evidenze rafforzano l'esigenza di un monitoraggio costante dell'andamento della spesa sanitaria, nonché l'esigenza di individuare le pratiche migliori che emergono nei diversi modelli organizzativi presenti a livello regionale, favorendone la diffusione. Il rafforzamento dell'azione di governo del sistema sanitario, con l'adozione di interventi incisivi in tutte quelle situazioni che evidenziano inefficienza o inappropriata produzione ed erogazione delle prestazioni, costituisce uno

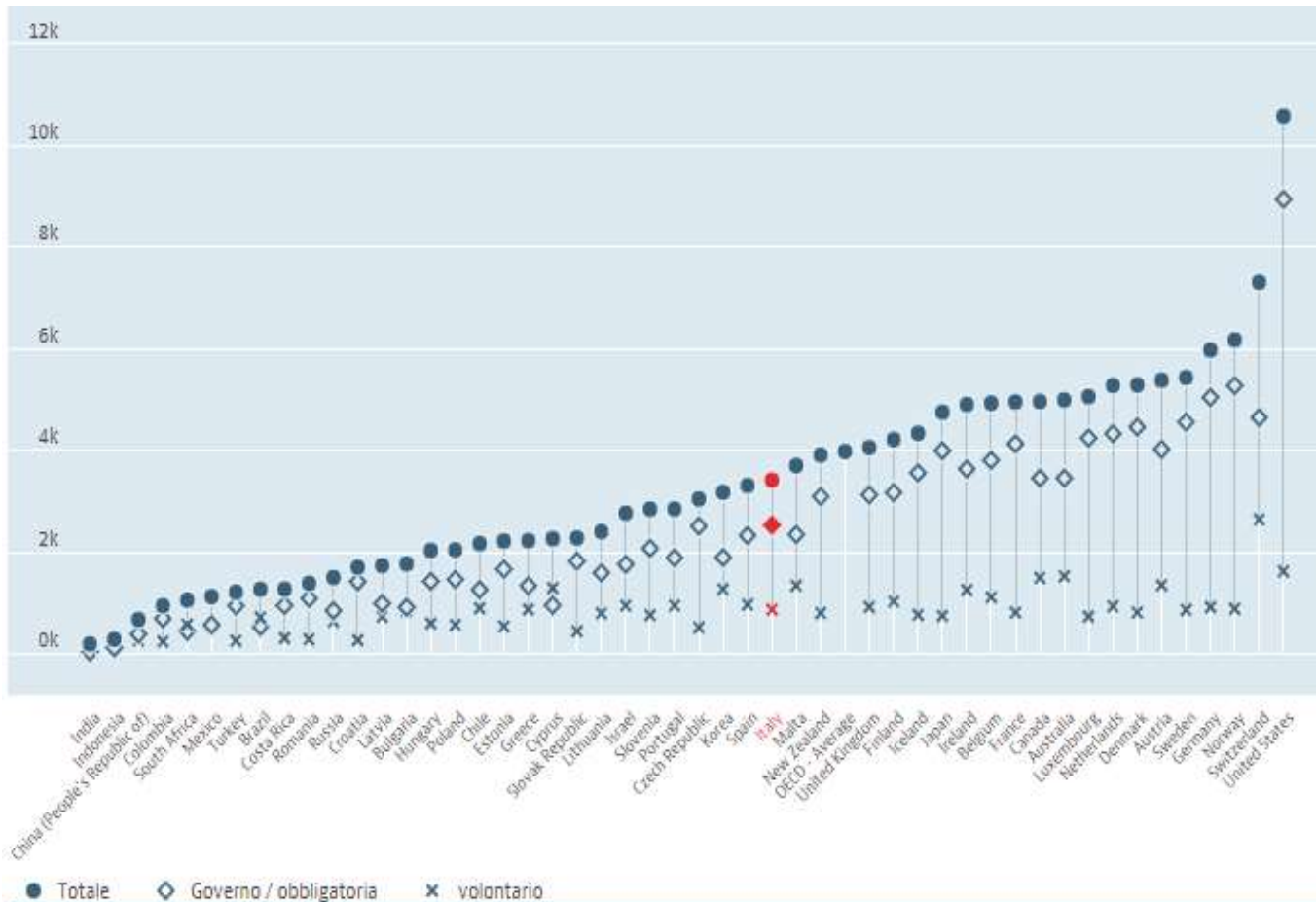
strumento efficace anche nel fronteggiare le tendenze espansive della domanda di prestazioni sanitarie indotte dalle dinamiche demografiche. L'esperienza in tale ambito, ha mostrato che esistono margini di efficientamento e di razionalizzazione del sistema che possono essere utilmente attivati per far fronte agli effetti dell'invecchiamento della popolazione senza compromettere la qualità e l'universalità dei servizi erogati.

In definitiva, il vigente ordinamento sanitario prevede due livelli di governo: lo Stato, che definisce i Livelli essenziali di assistenza (LEA) e garantisce, compatibilmente con i vincoli di finanza pubblica, le risorse necessarie al loro finanziamento, in condizioni di efficienza e appropriatezza nell'erogazione delle prestazioni; le Regioni, che organizzano i propri Servizi sanitari regionali (SSR) e garantiscono l'erogazione delle prestazioni ricomprese nei LEA. In questo contesto istituzionale di riferimento, il livello centrale di governance del sistema sanitario, incentiva le Regioni, alle quali compete la programmazione, l'organizzazione e la gestione dei servizi sanitari sul territorio, ad assumere comportamenti "virtuosi", volti a perseguire recuperi di efficienza ed efficacia nell'erogazione dei LEA; questo consente, per un verso, un miglioramento strutturale degli equilibri di bilancio, particolarmente importante per le regioni in disavanzo e, per l'altro, di massimizzare il soddisfacimento dei bisogni sanitari dei cittadini compatibilmente con le risorse preordinate per la funzione sanitaria. La strumentazione, di indirizzo e controllo, implementata ha riguardato, in particolare, le Intese Stato-Regioni in materia sanitaria, il sistema di monitoraggio delle performance regionali e dei conti sanitari nazionali, i Piani di rientro regionali e degli Enti del SSN, il Sistema Tessera Sanitaria (Sistema TS), oltre le disposizioni concernenti la razionalizzazione degli acquisti di beni e servizi.

La Spesa sanitaria

La spesa sanitaria misura il consumo finale di beni e servizi sanitari, compresi i servizi sanitari per il singolo (cure per l'acuto, cure a lungo termine, riabilitazione, servizi ausiliari e beni medici) e per la collettività (prevenzione e servizi sanitari pubblici, amministrazione sanitaria), ma escludendo la spesa per investimenti. L'assistenza sanitaria è sostenuta nei vari paesi del globo attraverso un mix di modalità di finanziamento, tra cui spese statali, regionali e assicurazioni sanitarie obbligatorie e volontarie e fondi privati, con differenze a volte consistenti tra un paese

e l'altro. Questo indicatore è presentato come totale ed è misurato in percentuale del PIL (prodotto interno lordo). In Italia, secondo le stime 2018 OCSE (Organizzazione per la cooperazione e lo sviluppo economico), abbiamo una spesa sanitaria (in dollari) pro capite di 3428 (vs 10586 degli USA), di questi 2545 da finanziamento pubblico e 883 da privato (OECD, Organisation for Economic Cooperation and Development, Health spending indicator).

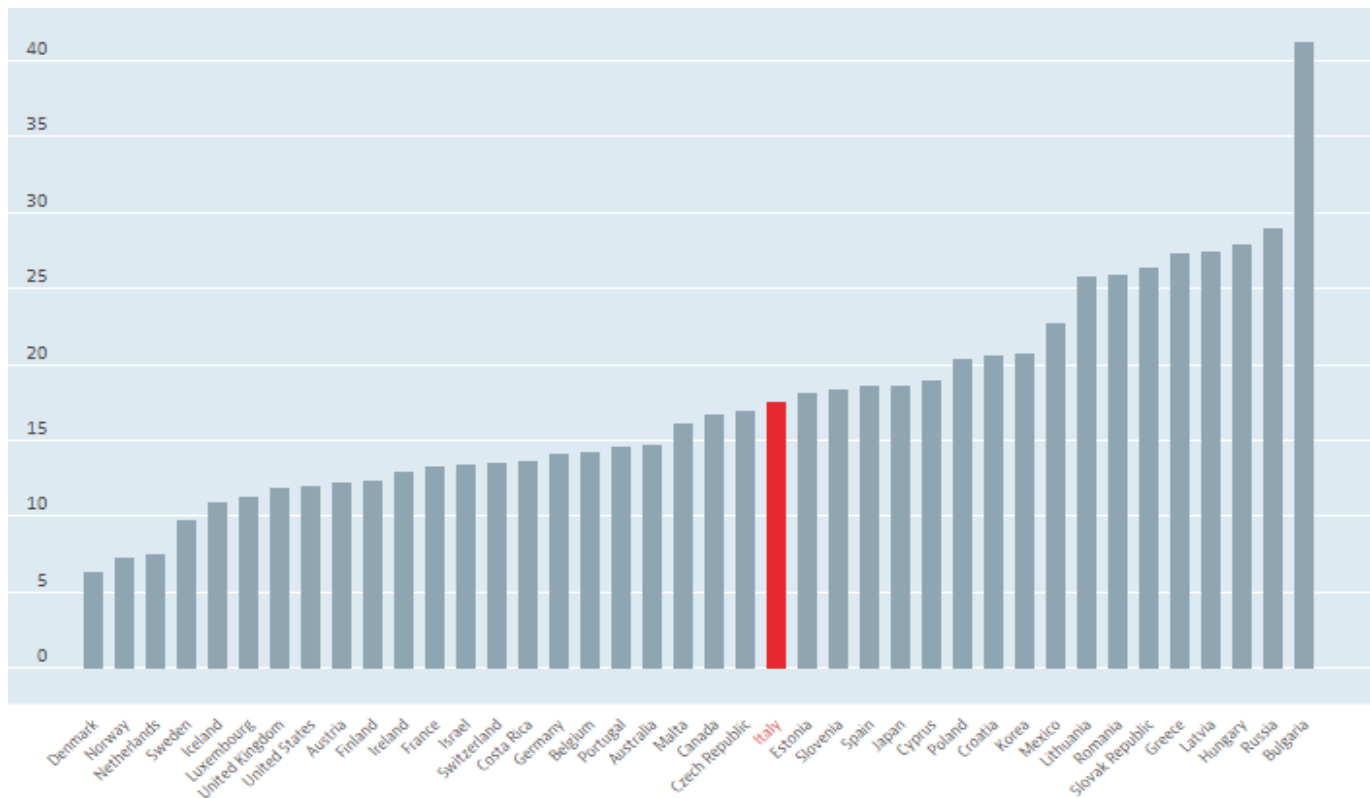


Graf. 3 - Istogramma compartecipazione spesa sanitaria (complessiva; pubblica; privata)

Fig.3

La spesa farmaceutica copre le spese per medicinali soggetti a prescrizione medica e automedicazione, spesso denominati prodotti da banco. I prodotti farmaceutici consumati negli ospedali e in altre strutture sanitarie sono esclusi. Le spese finali per i prodotti farmaceutici comprendono margini all'ingrosso e al dettaglio e imposta sul valore aggiunto. La spesa farmaceutica totale si riferisce nella maggior parte dei paesi alla spesa "netta", ovvero adeguata ai possibili sconti dovuti da produttori,

grossisti o farmacie. Questo indicatore è misurato in percentuale della spesa sanitaria totale. In Italia, secondo le stime 2018 OCSE abbiamo una spesa farmaceutica che impatta per il 17.5% sulla spesa sanitaria totale versus il 12% degli USA (OECD, Organisation for Economic Co-operation and Development, Pharmaceutical spending indicator). [19]



Graf. 4 - Istogramma valutazione spesa farmaceutica in % della spesa sanitaria totale

Fig.4

Spesa sanitaria e variazione demografica

Le dinamiche demografiche attese in futuro determineranno un'espansione della domanda di prodotti e servizi sanitari, in quanto aumenterà il peso della popolazione nelle fasce di età più avanzate, in cui i bisogni sanitari sono maggiori; l'aumento della quota di popolazione anziana dipende sia dal costante incremento della speranza di vita, in linea con le tendenze dei decenni passati, sia dalla transizione demografica, cioè il processo di invecchiamento delle generazioni del baby boom che progressivamente raggiungeranno le età più anziane. L'elevato livello della speranza

di vita e la significativa dinamica attesa per i prossimi decenni, se da un lato confermano la buona performance del nostro sistema sanitario, dall'altra potrebbero generare, in futuro, situazioni di frizione rispetto al vincolo delle risorse disponibili. Ci sono, tuttavia, alcuni fattori, riconducibili alle stesse dinamiche demografiche, che potrebbero limitare significativamente la crescita della spesa sanitaria rispetto a quanto emergerebbe da un'ipotesi di estrapolazione meccanica degli attuali comportamenti di consumo per età e sesso. In primo luogo, si è dimostrato che una percentuale molto elevata del totale dei consumi sanitari nell'arco della vita di un soggetto si concentra nell'anno antecedente la sua morte. Ciò significa che la componente di spesa sanitaria relativa ai costi sostenuti nella fase terminale della vita (c.d. death-related costs) non risulterà significativamente condizionata dall'aumento degli anni di vita guadagnati. In secondo luogo, come è avvenuto costantemente in passato, l'aumento della speranza di vita sarà verosimilmente accompagnato da un miglioramento delle condizioni di salute e una riduzione dell'incidenza della disabilità a parità di età. Se gli aumenti della speranza di vita si tradurranno in tutto o in parte in anni guadagnati in buona salute (c.d. dynamic equilibrium) una parte importante dell'incremento dei costi, calcolato nell'ipotesi di invarianza della struttura per età e sesso dei bisogni sanitari, non si realizzerebbe. È evidente che per fronteggiare le tendenze espansive della domanda di prestazioni sanitarie indotte dalle dinamiche demografiche, senza compromettere il livello di benessere sanitario raggiunto, sarà necessario recuperare maggiori livelli di efficienza ed efficacia nell'azione di governance del sistema sanitario.

Spesa sanitaria e variazione delle percentuali di cronicità in età evolutiva

Analoghe considerazioni possono essere fatte per la valutazione della spesa sanitaria in rapporto alla variazione delle percentuali di cronicità in età pediatrica e di transizione. I pazienti con malattie croniche sono notevolmente aumentati negli ultimi due decenni. I bambini medicalmente complessi, portatori di malattie rare o con patologia cronica di interesse multidisciplinare, hanno vissuto profonde modifiche nel modo di affrontare la cronicità e con evoluzione dell'approccio terapeutico, che da palliativo diventa proattivo. Questo sta contribuendo sostituire, nella gestione dei bisogni di salute, il ruolo centrale della malattia con quello del malato e della sua famiglia, con umanizzazione delle cure e avanzamento dei livelli qualitativi di welfare

sanitario. Le prospettive di nuove frontiere terapeutiche e modelli di management della salute sempre più adeguati ai livelli crescenti di cronicità stanno tuttavia conducendo ad una crescita del fabbisogno della spesa sanitaria correlata.

Caratteristiche dei Piani di rientro [20]

Il Piano di rientro si presenta come un vero e proprio piano industriale concernente la gestione del SSR nell'ambito della cornice finanziaria programmata garantendo l'erogazione dei LEA.

La consapevolezza della insostenibilità finanziaria e sanitaria di un sistema senza controllo è la prima fase nella stesura del Piano di rientro; questa prima fase è caratterizzata dai seguenti processi:

- analisi del contesto normativo nazionale e regionale in materia sanitaria;
- analisi del contesto sanitario regionale;
- analisi del contesto regionale di controllo del servizio sanitario regionale;
- analisi SWOT (consapevolezza dei propri punti di debolezza, ma anche dei propri punti di forza, delle opportunità e dei rischi delle scelte da compiere);
- elaborazione del modello tendenziale triennale del sistema sia per fattori produttivi che per destinazione assistenziale degli stessi.

La fase seguente che la regione deve affrontare è quella delle scelte da operare, che si sostanzia nel seguente processo:

- individuazione degli interventi necessari a rendere efficiente il sistema e renderlo conforme al Piano sanitario nazionale per l'erogazione dei LEA;
- definizione dei provvedimenti da adottare per attuare gli interventi;
- elaborazione del cronoprogramma degli interventi;
- individuazione degli effetti economici e di sistema correlati agli interventi;
- definizione delle modalità di verifica periodica degli interventi;
- elaborazione del modello programmato triennale sia per fattori produttivi che per destinazione assistenziale degli stessi.

Nel 2007 sono stati sottoscritti gli Accordi per i Piani di rientro delle regioni Lazio, Campania, Liguria, Molise, Abruzzo, Sicilia e Sardegna (Liguria e Sardegna hanno concluso il Piano nell'anno 2009). Nel dicembre 2009 ha predisposto il Piano di rientro la regione Calabria. Nell'anno 2010 si sono aggiunte anche Piemonte e Puglia

sottoscrivendo un Piano di rientro cosiddetto “leggero” e caratterizzato da un minor dettaglio e da modalità di verifica espressamente previste nei rispettivi Accordi; il Piemonte ha terminato il proprio Piano di rientro nell'anno 2017.

Implicazioni economiche sui percorsi assistenziali dei DRS: Costruzione di un modello assistenziale

Si ritiene che sul territorio nazionale vi sia attualmente una grande disomogeneità in termini di risorse diagnostiche disponibili, livelli tecnologici ed impostazione culturale medico-scientifica nei confronti di questa patologia correlata al sonno. Tale disomogeneità potrebbe diventare ancora più evidente in un prossimo futuro con il rapido aumento del numero delle strutture che si occupano di Medicina del Sonno. Tutto questo porta ad una marcata variabilità di comportamento nel procedimento diagnostico dell'OSAS. La variabilità concerne sia la fase dell'inquadramento clinico (definizione del soggetto a rischio) sia quella dell'utilizzo delle tecniche strumentali nella fase diagnostica della patologia. Lo sviluppo tecnologico nell'ultimo decennio ha di fatto aumentato le possibili differenze di comportamento in quanto ha reso disponibili, per la diagnosi strumentale, metodiche alternative alla Polisonnografia tradizionale in laboratorio (PSG-Lab). Tali metodiche sono di tipo poligrafico e non (ossimetria), hanno differente grado di complessità e, rendendo possibile la registrazione anche a domicilio o al letto di degenza, non vincolano il paziente al Laboratorio del sonno e non necessitano della sorveglianza del personale tecnico per tutta la notte; tali metodiche differiscono rispetto alla PSG-Lab e tra loro per sensibilità e specificità oltre che per i costi. È verosimile che l'uso indiscriminato di un solo tipo di metodica non sia un modo razionale di procedere né sul piano della correttezza e adeguatezza della diagnosi né su quello dei suoi costi. Infatti, l'uso di metodiche elementari può comportare una mancata diagnosi o una sottostima della gravità della sindrome, eventualità che espongono il soggetto affetto a rischi per il proprio stato di salute, date le provate relazioni tra OSAS (e sue comorbidità in età evolutiva) e morbilità polmonare, cardiaca, vascolare, neurologica e psichiatrica e l'aumentato rischio di mortalità. L'uso di metodiche complesse laddove potrebbero risultare sufficienti per una diagnosi accurata anche metodiche più semplici (soggetti con profilo clinico indicativo di alto rischio per OSAS), fa inutilmente lievitare i costi della procedura diagnostica.

Non ci sono studi italiani sistematici riguardanti il costo per la diagnosi dei DRS e gli studi disponibili da altre realtà geografiche e socio-culturali non sono ritenuti ancora tali da fornire una analisi economica del tutto attendibile su tale problema. L'incremento di consumo delle risorse sanitarie derivante dalla patologia in oggetto ed il risparmio derivante dalla sua diagnosi e trattamento appaiono tuttavia così ben codificati da indurre la pubblicazione di un position statement dell'American Academy of Sleep Medicine, che definisce giustificabili e remunerativi i costi sostenuti per detta diagnosi e trattamento, ribadendo che la massima efficienza viene raggiunta quando alla valutazione clinica si accompagna l'esame strumentale. È verosimile che stabilire criteri sia per la definizione clinica dei pazienti, stratificandoli secondo il grado di rischio, sia per un uso differenziato delle metodiche strumentali disponibili per la diagnosi, costituisca un passo fondamentale per razionalizzare l'uso delle metodiche diagnostiche e i loro costi.

Nel documento del Ministero della salute che fa riferimento all'Organizzazione mondiale della sanità, si afferma che l'OSAS ha i requisiti per essere considerata una malattia cronica. Le prove scientifiche ritengono che la sostenibilità di un sistema sanitario pubblico in termini di cronicità e gestione della patologia, derivi dalla capacità di rendere fattibile la diagnosi precoce attraverso un percorso diagnostico e terapeutico corretto (Intesa della Conferenza Permanente per i rapporti tra lo Stato, le Regioni e le Province Autonome di Trento e Bolzano, ai sensi dell'articolo 8, comma 6, legge 5 giugno 2003 n. 131, sul documento recante "La sindrome delle apnee ostruttive nel sonno (OSAS)" - Rep. Atti n. 87/CSR del 12 maggio 2016).

Come indicato nel documento PDTA OSAS della regione Puglia (Recepimento Atti 87/CSR/2016; Rete Regionale OSA: definizione di PDTA), il costo medio sistematico dei pazienti cronici è di € 1580 mentre in quello non cronico è di € 257 (Bisceglia L et al. 2015, Mappa delle Cronicità in Puglia, in collaborazione con ARES Puglia e IRCCS Mario Negri). Da qui l'importanza di un corretto percorso sanitario e organizzativo, anche in senso economico, al fine di minimizzare e ottimizzare la gestione, lavorando su una strutturazione a tre livelli. Un primo livello di base o filtro territoriale (sentinella del sistema), da cui i pazienti vengono indirizzati partendo dal sospetto clinico di disturbo sonno correlati, su consiglio del Medico curante o del Pediatra di Libera Scelta sul territorio; dopo la prima valutazione, il paziente viene

inviato a osservazione multidisciplinare di competenza, che funge da filtro successivo (livello successivo di competenza). È il livello territoriale, allo stato, il primo punto debole del sistema su cui lavorare, prima di passare ai successivi punti di competenza e di complessità assistenziale.

- La prima analisi che può essere fatta per studiare la capacità del sistema di funzionare, è quella di accertare quanti screening sono necessari utilizzando dispositivi e personale specializzato al fine di arginare il fenomeno attuale delle potenziali diagnosi mancate di OSAS, stimabili in una forbice contenuta tra 15 e 20% della popolazione adulta, con stime approssimativamente sovrapponibili anche in età pediatrica e di transizione.
- In secondo luogo, l'analisi della dimensione ottimale nella macroarea regionale come obiettivo della costruzione di una Rete strutturata su tre livelli organizzati territorialmente come modello Hub and Spoke (I/II).
- Inoltre, i Pediatri di Libera Scelta e i Medici di Medicina Generale (per l'età di transizione), vanno sostenuti per il duplice ruolo di prime sentinelle del sistema (medicina di filtro) e come elemento di test epidemiologico sui dati; un primo livello di filtro va realizzato nell'ambito della medicina di competenza territoriale (Specialistica ambulatoriale) e ospedaliera (UO Pediatria di Presidi Ospedalieri zonali, non dedicati all'età evolutiva, presso ASL o Aziende Ospedaliere); infine, un secondo livello (medicina di competenza e punto di riferimento), costituito da Centri di riferimento aziendale o regionale, ad alta specializzazione pediatrica e in Medicina del sonno, con la possibilità di gestione completa di tipo multiprofessionale e multidisciplinare, realizzando al loro interno una interdisciplinarietà necessaria per condividere esperienze, casi difficili e decisioni oculate, potendosi porre, nel loro complesso, quale punto di riferimento regionale o interregionale; sono i Centri di eccellenza, ad altissima specializzazione multidisciplinare, che tratteranno i casi più complessi.

Questi Centri possono realizzare eccellenze indipendentemente dal contesto aziendale di riferimento, Laboratorio del sonno, presenti in numero esiguo sul territorio nazionale, limitatamente alla gestione della malattia in età evolutiva, che

può essere inserito in AORN (Aziende ospedaliere di rilievo nazionale e di alta specializzazione), AOP (Aziende ospedaliere di riferimento nazionale ad alta specializzazione pediatrica, i cosiddetti Ospedali Pediatrici), IRCCS (Istituti di ricerca e cura a carattere scientifico) o Policlinici universitari (Aziende ospedaliere universitarie). Nella stessa direzione va l'accordo siglato di recente tra regione Campania e regione Liguria nell'ambito della sanità pediatrica per avviare dei programmi di cooperazione fra le strutture di eccellenza presenti nei due territori, l'AORN Santobono Pausilipon di Napoli e l'Istituto "Giannina Gaslini" di Genova, per favorire la creazione di un network dedicato alla condivisione degli aspetti psico-sociali, assistenziali, formativi e di ricerca. Il Protocollo d'Intesa, di durata triennale, alla luce delle positive esperienze di collaborazione professionali consolidate negli anni, intende promuovere forme di cooperazione, attuali e future, finalizzate a realizzare l'integrazione fra strutture sanitarie di eccellenza, che consentano di mettere a disposizione degli utenti del SSN le migliori professionalità in ambito pediatrico, valorizzando le diverse professionalità che operano nei due Enti, riaffermando la centralità del paziente e dando un importante messaggio di quanto le migliori pratiche in sanità possano realizzarsi solo attraverso la sinergia tra Istituzioni regionali, Aziende sanitarie, Società scientifiche e Associazioni di volontariato. Saranno anche sviluppati progetti di formazione e ricerca scientifica in ambito pediatrico, e sperimentazione di modelli organizzativi e gestionali innovativi valorizzando, di volta in volta, le competenze e le eccellenze, in una logica di crescita professionale reciproca e di miglioramento continuo della qualità dell'assistenza e della ricerca in ambito pediatrico.

- Stima delle dimensioni della patologia epidemiologica: in questa ultima fase, analisi di costi e benefici, valutando possibilità e capacità di risposta con costi diversi relativamente all'efficacia (ad esempio implementando la diagnostica domiciliare in regime ambulatoriale per pulsossimetria dinamica e poligrafia notturne nell'ambulatorio specialistico di Medicina del sonno).
- Il percorso si integra con un follow-up attraverso l'accesso ambulatoriale territoriale; è indispensabile attuare a livello regionale i percorsi con il numero adeguato di specialisti esperti, fornendo i requisiti organizzativi strutturali agli

ambienti e agli spazi che devono essere adeguati e dedicati, personale infermieristico e tecnico adeguatamente addestrato (lavoro multiprofessionale).

- L'analisi della capacità è un elemento indispensabile per una corretta strutturazione, equilibrata tra le risorse e la dimensione territoriale sui vari livelli di complessità.

Una stima della capacity di realizzazione di esami polisonnografici per un Centro medico.

La risposta si basa sul numero di dispositivi in dotazione, sul numero di posti letto disponibili per i ricoveri programmati, sul numero di infermieri dedicati, sul numero di tecnici di neurofisiopatologia destinati al Laboratorio del sonno e sul numero di medici esperti. È essenziale riconoscere i casi di reale bisogno dei pazienti che necessitano di ottenere l'accesso alla procedura diagnostica, selezionando i casi e dirottando quelli non essenziali (che possono compromettere la possibilità di accesso all'assistenza sanitaria per i pazienti realmente bisognosi) alla diagnostica domiciliare in regime ambulatoriale o inserendoli in percorsi alternativi (PACC, percorsi ambulatoriali complessi e coordinati; day service).

Per quanto riguarda i casi complessi di DRS, il paziente viene inviato a strutture di riferimento con letti dedicati funzionalmente al livello di Rete nell'ambito delle necessarie indagini diagnostiche; i Centri di eccellenza devono essere dotati di Laboratorio del sonno, non solo per la diagnostica stanziale di terzo livello, ma anche per la titolazione polisonnografica dei ventilatori.

Lo stesso tipo di strategia va utilizzato per i pazienti con comorbidità che richiedono un ambiente organizzativo complesso articolato, necessitando spesso di un livello assistenziale di tipo semintensivo. Appare scontato che per i pazienti medicalmente complessi e, in ogni caso, nei Centri di terzo livello, in termini di requisiti strutturali e organizzativi, è necessaria la congruenza con le caratteristiche di livello, con presenza di personale medico esperto, studi di casi adeguati, numero adeguato di trattati casi e gestione multidisciplinare.

Attualmente si può vedere una carenza organizzativa nelle strutture ospedaliere pubbliche che spesso tendono a confondere, il primo e il secondo livello di assistenza. Sarebbe da valutare una adeguata distinzione tra il livello ambulatoriale, rapido in termini di impegno del personale, tempo e attrezzature, che è spesso sovraccarico e quello dei centri di eccellenza, a cui inviare le esigenze medicali dei pazienti complessi.

Secondo stime del Centro di Ricerca di Economia e Management della Sanità (CREMS), riuscire a intercettare, diagnosticare e trattare correttamente il 75% di tutti i pazienti adulti con OSAS, consentirebbe di risparmiare fino al 50% della spesa sanitaria e sociale attualmente sostenuta per gli stessi (> 1.5 miliardi di euro/anno).

In un lavoro del 2016, a cura dell'American Academy of Sleep Medicine (AASM), con riferimento agli USA, si evidenzia che i pazienti non diagnosticati, che rappresentano l'80%, hanno un costo superiore, intorno al 68%, rispetto ai pazienti diagnosticati e dall'analisi dei vari capitoli di spesa si evidenzia che i costi maggiori, pari al 55% del totale, sono dovuti a riduzione della produttività, termine quanto mai aspecifico e difficilmente evidenziabile se non ricorrendo a uno studio per la misurazione dei deficit delle funzioni esecutive, dell'attenzione, della memoria e della coordinazione motoria fine. Sempre lo stesso lavoro ha stimato che un paziente non diagnosticato ha un costo medio annuo di 5500 dollari, mentre nei pazienti diagnosticati e trattati il costo scende a 2100 dollari.

Secondo uno studio statunitense (Gozal D.), una APP per dispositivi mobili potrebbe essere utilizzata come primo livello di screening, ma solo per identificare i casi in cui è utile o non, continuare a essere coinvolti nel percorso. Applicando questo screening a tutta la popolazione in età evolutiva attraverso il coinvolgimento indispensabile dei Pediatri di libera scelta (PLS) e dei Medici di medicina generale (MMG), si potrebbe stimare un costo di 5 euro per 100 bambini, per un totale di 500 euro ogni 100 pazienti.

Costi Diretti e Indiretti dei pazienti OSAS non diagnosticati

Dalla regione Puglia (PDTA OSAS nella popolazione adulta) e dalle stime di D.Gozal, si può presumere che il costo di un anno per un paziente non diagnosticato sia di 1580 euro per il sistema pubblico regionale.

Volendo utilizzare un parametro per il raccordo tra i dati e una stima dei valori economici, si possono ottenere risultati approssimativi con le linee guida ministeriali, le valutazioni del PDTA della regione Puglia ed il caso USA. La stima del sistema sanitario statunitense delinea la differenza in oltre 5 mila dollari, contro meno di 500, per paziente all'anno (Gozal et al. 2016).

Una stima per i potenziali risparmi dal punto di vista dei costi in presenza di una ipotetica strategia su tre livelli come proposta

Selezionando il 16% da quanto sopra, che potrebbe essere la vera percentuale di pazienti critici (oggi non diagnosticati) da coinvolgere nel primo livello assistenziale, utilizziamo per loro lo strumento meno costoso della poligrafia notturna (60 euro), che potrebbe essere eseguita a casa, senza la necessità di un tecnico di neurofisiopatologia o di assistenza infermieristica; di questi solo un quarto (4% vs 16%) andrebbe potenzialmente indagato attraverso polisonnografia stanziale (170 euro), significando che il restante 12% inciderebbe sull'intero sistema per un costo di 720 euro per ogni 100 bambini residenti. Il costo del restante 4% da indirizzare verso la polisonnografia stanziale inciderebbe nella misura di 680 euro per ogni 100 bambini residenti. Approssimativamente, per ogni 100 bambini della popolazione residente, si andrebbe a incidere per un costo totale di 1400 euro, a fronte di 2720 euro, supponendo che il 12% della popolazione avrebbe eseguito una polisonnografia stanziale, in assenza di un governo del sistema ovvero in assenza di un sistema correttamente strutturato su tre livelli assistenziali coordinati e integrati.

L'unica ragione per cui al momento anche questa spesa non va ad incidere sul sistema, è la scarsa capacità dell'assistenza sanitaria pubblica di soddisfare un numero così elevato di richieste di esami diagnostici (tab.). Infatti, la finalità di una buona prevenzione non è rincorrere la crescente domanda di spesa pubblica, ma (ri)organizzare il sistema al fine di fornire le migliori soluzioni possibili ed

economicamente sostenibili ed erogarle al fine di ottenere processi ed esiti che realizzino il benessere globale (fisico e psichico) della popolazione, indipendentemente da variabili o fattori intercorrenti. Ma il vero problema è legato a una perdita inconsapevole di risorse, in termini di costi diretti (sanitari) e indiretti (sociali), non calcolati nelle stime di competenza, ma che incidono in forma occulta e subdola sul sistema sanitario e sull'intero sistema Paese, relativi ai costi dei pazienti non diagnosticati (e dunque non trattati), che rappresentano l'epidemia sommersa di OSAS in età pediatrica e di transizione, che incidono in modo consistente sul tessuto socio-economico nazionale, con particolare riguardo per la macroarea meridionale, senza considerare che la mancanza di diagnosi e terapia adeguate per la popolazione di riferimento, grava come fallimento nella garanzia del diritto costituzionale di salute per tutti.

Da una stima preliminare che tiene conto del costo delle prestazioni e della differenza di costo tra gestione di un paziente correttamente diagnosticato e costo complessivo (come da stima di costo pro capite nel SSR), si può desumere che se da un lato esiste attualmente un costo sommerso di almeno 90 milioni di euro per milione di residenti, successivamente a seconda di come è strutturato il percorso di diagnosi e conseguente inserimento terapeutico ci potrebbero essere uscite eccessive in caso di accesso non regolamentato alla diagnostica, supponendo che questa sia sufficientemente disponibile nel sistema sanitario pubblico. Dal punto di vista di strategia ottimale basterebbe un investimento di pochi milioni di euro per milione di abitanti per investire in una medicina di filtro, che inserita in un sistema strutturato su livelli successivi di complessità diagnostica, possa essere rendere disponibile, a seconda delle categorie di bisogno assistenziale, le indagini diagnostiche di livello superiore.

Tale funzione potrebbe essere svolta tramite i pediatri di famiglia.

Evidentemente ci deve essere dal punto di vista organizzativo un corretto circolo virtuoso tra la medicina di base e la medicina ambulatoriale, da un lato, e le medicine di competenza multidisciplinare nel livello di complessità successiva, con network Hub and spoke che riesca programmare, regolare e revisionare correttamente il

flusso assistenziale, con un contenimento della spesa attuale, rappresentata dal costo, per milione di residenti nella popolazione di riferimento, di inefficacia e inefficienza in assenza di un sistema strutturato su percorsi e profili coordinati e integrati. In definitiva, anche in età evolutiva appare auspicabile un investimento di circa un sesto come da stime dei costi della diagnostica, che concordano, peraltro, con il 6% dei costi diretti sanitari stimati dal Ministero della salute nella popolazione adulta sul territorio nazionale (CSR/87/2016). Ad esempio per la regione Campania, in considerazione della popolazione residente in età pediatrica e di transizione, di poco superiore al milione di abitanti, le stime potrebbero riguardare una spesa, per quanto del tutto approssimativa in assenza di riscontri ufficiali nella popolazione di riferimento, di circa a 5 milioni di euro, a fronte di uscite stimabili, per i soli costi diretti sanitari, di circa venti volte superiori, senza considerare anche le stime riconducibili ai costi indiretti sociali.

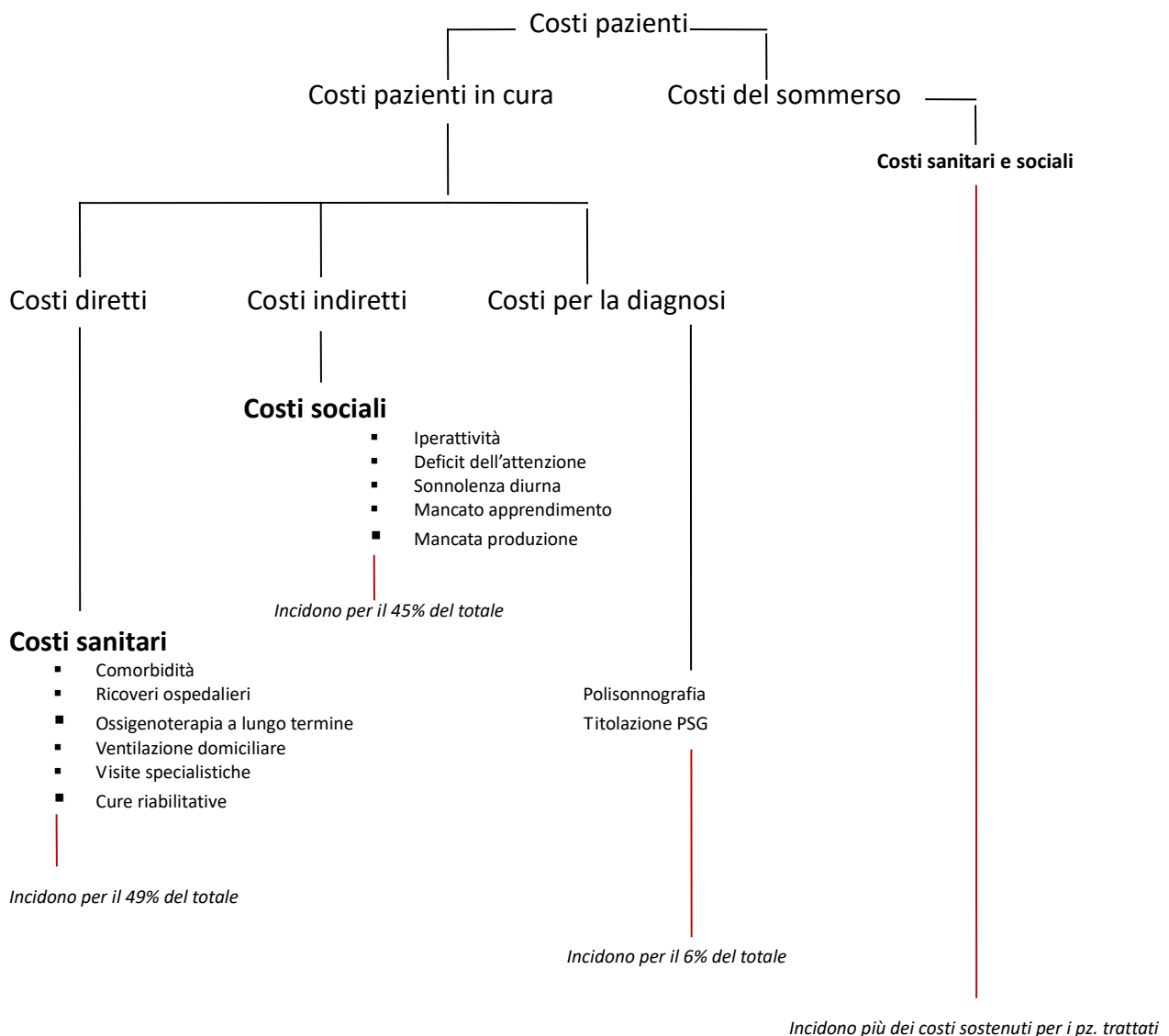
Il Documento del Ministero della Salute su “La Sindrome delle Apnee ostruttive nel sonno (OSA)” (di cui all’Intesa Stato-Regioni CSR/87/2016), affronta, tra le altre cose, il problema dei costi diretti e indiretti dei pazienti OSA non diagnosticati evidenziando come, dai dati della letteratura e da studi caso-controllo, si apprende che i pazienti adulti con OSA, già negli anni precedenti la diagnosi (mediamente la diagnosi viene posta dopo 10 anni dall’inizio della patologia) utilizzano maggiormente i Servizi sanitari rispetto alla popolazione generale.

I costi di questa malattia cronica possono essere suddivisi in due grosse categorie (schema 2, Popolazione OSAS e costi sanitari e sociali):

- Costi Diretti (Sanitari) legati alla cura delle comorbidità, ai ricoveri ospedalieri, a visite specialistiche ambulatoriali, alle cure riabilitative, ai costi dei farmaci (secondo molte fonti della letteratura tali costi si potrebbero attestare intorno al 49% del totale);
- Costi Indiretti (Sociali) dovuti a ridotta produttività, per una riduzione delle funzioni cognitive dovute a una riduzione dei livelli di attenzione e capacità decisionale (in età di transizione e adulta) o di attenzione e capacità di apprendimento (in età pediatrica e di transizione), oltre danni materiali (questi costi si attesterebbero intorno al 45% del totale);

- Per giungere al 100% dei costi bisogna sommare un 6% che rappresenta il costo medio sanitario sostenuto per giungere a una diagnosi della patologia (vedi schema della popolazione OSAS in età evolutiva in rapporto ai costi sostenuti);
- A questi costi vanno aggiunti quelli sanitari e sociali sostenuti dal sistema per i pazienti OSAS non diagnosticati, che incidono in misura molto più rilevante (> 200%).
- I costi relativi al paziente pediatrico possono essere assimilabili a quelli per il paziente adulto.

Schema 1 - Popolazione OSAS in età evolutiva e costi sostenuti dal Servizio sanitario



Razionale di interventi per la costruzione di percorsi assistenziali sui DRS

Come si rileva dall'analisi del documento pubblicato sul Bollettino Ufficiale della Regione Puglia - n. 101 del 28/8/2017 (prima regione italiana a recepire l'Intesa Stato-Regioni CSR/87/2016 e a pubblicare un PDTA OSAS nella popolazione adulta), attualmente in Italia, si stima che circa 5 milioni di soggetti con DRS (oltre il 12% della popolazione generale adulta) siano ancora in attesa di una diagnosi (e quindi di trattamento); e solo 20.000 risultano le vendite/anno in Italia di dispositivi che erogano pressione positiva per l'avvio di terapia domiciliare notturna (dato ricavato dalle dichiarazioni dei produttori). Nel documento sulla Prevenzione e PDTA dell'OSA del Ministero della Salute, in accordo con l'Organizzazione Mondiale della Sanità, si sostiene che l'OSAS ha tutti i requisiti per essere considerata una malattia cronica e come tale dovrebbe essere trattata.

Con buona probabilità, le cifre di questa epidemia sommersa sono sovrapponibili anche in età pediatrica e di transizione. Le più recenti indagini epidemiologiche indicano una prevalenza di OSAS (eventi respiratori patologici durante il sonno associati a sintomi notturni, al risveglio e diurni) pari ad almeno il 5% dei maschi adulti e circa al 3% delle donne adulte, con una differenza tra i due sessi che tende a ridursi in modo significativo se si considerano le donne dopo la menopausa. Al contrario, se si considerano i disturbi respiratori durante il sonno indipendentemente dalla presenza di sintomi, la prevalenza della condizione aumenta fino al 24%.

In età evolutiva, la sleep apnea interessa tutte le fasce di età, con un picco in epoca prescolare. Sovente si può accompagnare a comorbidità, come nel paziente pediatrico affetto da obesità. In letteratura, la prevalenza dei DRS in età prescolare e scolare varia ampiamente in base alla popolazione studiata, ai metodi utilizzati per rilevare il respiro durante il sonno e alle definizioni usate per la diagnosi, raggiungendo percentuali massime del 27.6% per il russamento abituale (HS, Habitual Snoring) e del 5.7% per l'OSAS (Marcus et al. 2012). Ed è propria la forchetta tra OSAS e DRS, che inquadra una percentuale di popolazione residente quantizzabile tra 12 e 16%, a rappresentare la sacca di epidemia sommersa che sfugge alla diagnosi, con gravi conseguenze per i soggetti, le famiglie e il tessuto sociale tutto. Ed è proprio su questa forchetta sommersa che bisogna agire, pensando a percorsi che si muovano in una sanità che deve ragionare su queste

percentuali di malattia, che pongono l'OSAS, indipendentemente dall'età di incidenza, non solo quale patologia "cronica", ma anche quale malattia "sociale".

Per la regione Campania, esistono alcune stime effettuate, considerando:

- a) che la popolazione totale residente è di circa 5.800.000 persone;
- b) che la popolazione in età evolutiva è di poco superiore a 1.000.000 di soggetti: di questi circa 800.000 rappresentano i soggetti in età pediatrica (0-14 anni) e circa 200.000 quelli in età di transizione (14-18 anni);
- c) che la popolazione complessiva in età evolutiva da prendere in considerazione è pari a circa un sesto del totale;
- d) valutando una prevalenza dell'OSAS in età adulta al 12% della popolazione, in accordo con il lavoro AASM 2016;
- e) valutando che la stessa prevalenza può essere riscontrabile in età evolutiva, in accordo ai concetti già ampiamente sviluppati sul problema dell'epidemia sommersa di OSAS, oltre agli studi epidemiologici sui DRS (Marcus et al. 2012);

i soggetti che necessitano di una diagnosi in età pediatrica e di transizione sono circa 120.000. Il numero ipotizzato è di gran lunga superiore ai riscontri attuali, per quanto stime aggiornate e attendibili non sono ancora disponibili nella regione Campania, sia per il fenomeno della migrazione sanitaria extraregionale (ancora presente), sia per le diagnosi sottostimate (russamento primario molte volte nemmeno indagato), sia ancora per il numero di pazienti che effettuano un trattamento terapeutico ventilatorio (sovente riportato come collegato alla patologia di base, indipendentemente se ventilato solo in sonno).

Su tali basi, possiamo inferire a livello nazionale che:

- a) che la popolazione totale residente è di circa 60 milioni persone;
- b) che la popolazione in età evolutiva è di poco superiore a 9.000.000 di soggetti: di questi circa 4.800.000 rappresentano i soggetti in età pediatrica (0-14 anni) e circa 1.200.000 quelli in età di transizione (14-18 anni);
- c) valutando una prevalenza dell'OSAS in età adulta al 12% della popolazione, in accordo con il lavoro AASM 2016; i soggetti che necessitano di una diagnosi in età pediatrica e di transizione sono circa 720.000. Appare evidente come la maggior parte dei residenti in età evolutiva, potenziale

portatore di malattia cronica a forte impatto sociale e con implicazioni socio-economiche non trascurabili, rimanga esclusa da programmi di trattamento utile ed efficace.

Ideare e realizzare un percorso assistenziale integrato per i pazienti in età pediatrica e di transizione con disturbi respiratori nel sonno, tenuto conto delle caratteristiche del paziente non diagnosticato e non trattato, rappresenta una risposta al gravoso problema dei costi sia diretti (sanitari) che indiretti (sociali). L'investimento da parte del SSR (finalizzato da un lato a contenere la migrazione extraregionale, dall'altro a intercettare il sommerso non diagnosticato), appare veramente irrisorio quando comparato con le uscite imputabili ai costi sostenuti dal sistema per i pazienti non trattati. Un sistema strutturato su livelli coordinati e integrati di complessità assistenziale, importante concausa della dilagante epidemia sommersa di OSAS.

5. DISCUSSIONE

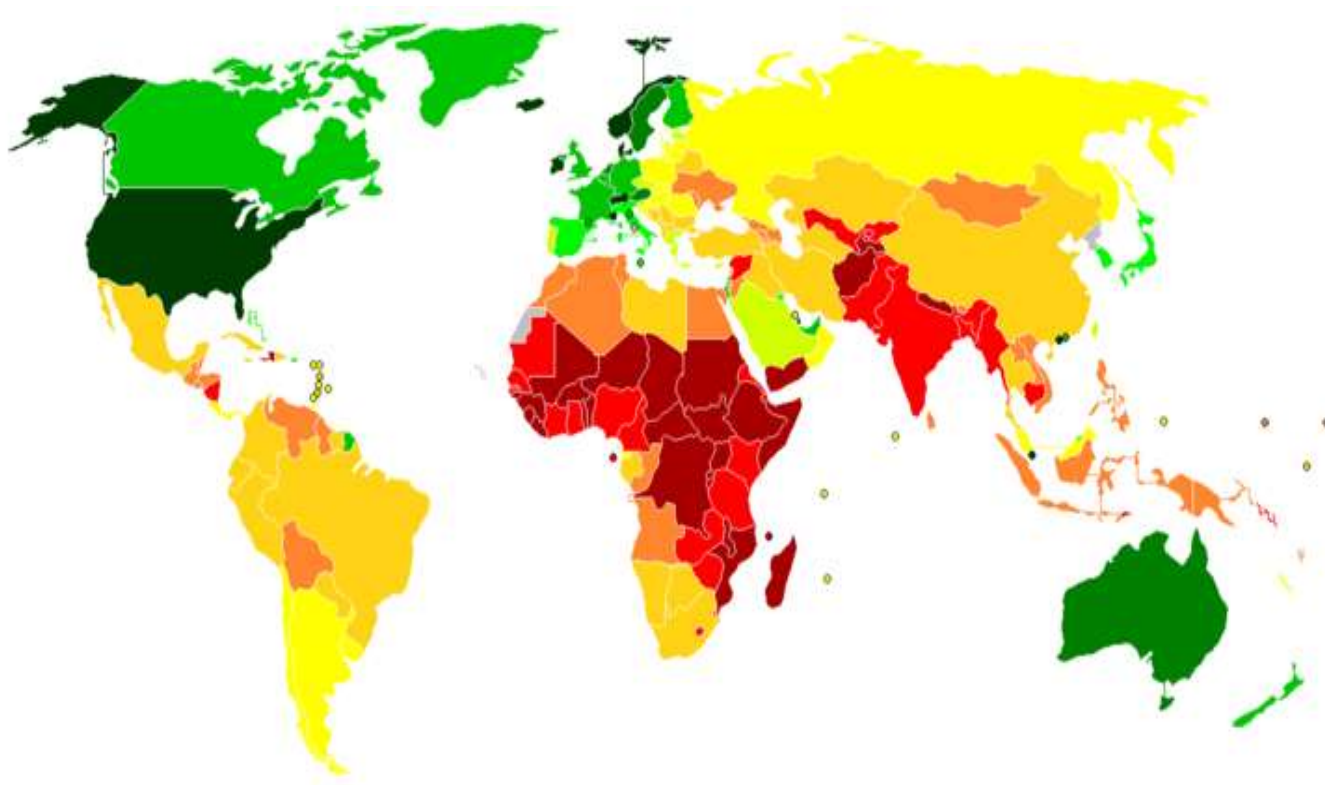
I risultati dell'analisi dei questionari SIMRI, in cui emergono fattori critici di successo e soddisfazione, sono stati utilizzati per strutturare la costruzione del modello diagnostico e terapeutico per la gestione dei DRS pediatrici.. Questo modello è stato realizzato su tre diversi livelli assistenziali che coinvolgono il pediatra di famiglia, centri di primo livello e centri di eccellenza di secondo livello. Per valutare l'efficacia del modello organizzativo si è voluto confrontarlo con altri modelli organizzativi utilizzati per la gestione a livello sanitario internazionale.

I paesi europei hanno in larga misura sistemi sanitari pubblici, pur essendo economie "capitalistiche di mercato", e pertanto vivono la compresenza di pubblico e privato, dove lo scopo del pubblico è però quanto indicato, mentre i paesi a sanità privata tendono ad avere norme di tutela dell'igiene, della salute pubblica di ultima istanza e rimandano anche nelle forme finanziate dallo stato (come il Medicare) alla copertura di spese sanitarie richieste individualmente.

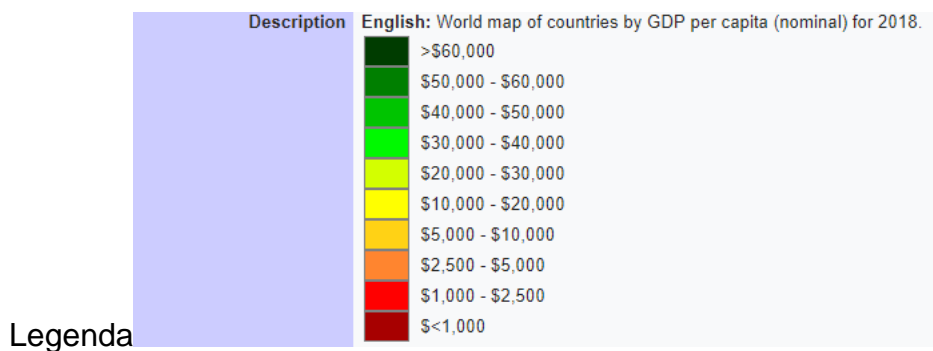
Il caso svizzero meriterebbe invece varie riflessioni a parte, rappresentando un'eccezione del tutto particolare, quasi un unicum a livello mondiale, essendo un sistema totalmente privato, ma coperto tramite assicurazioni (casse malati) individuali, improntate ai principi di solidarietà e mutualità (sani e malati pagano ugual premio) e rimandando ad una questione puramente redistributiva (sussidi cantonali) l'aiuto alle famiglie per coprire il costo di tali assicurazioni sociali. La popolazione svizzera è tra le più sane e longeve al mondo, pur non essendoci un sistema pianificato, ma una gestione molto rigidamente normata della sanità, basata su criteri finanziari, ma pure etici e di etica clinica, in base ai quali avviene presumibilmente un raccordo virtuoso tra la domanda individuale di prestazioni sanitarie e l'effettiva necessità delle stesse. Si tratta di un livello di spesa sanitaria non confrontabile con quello dei paesi dell'Unione Europea, in quanto sostenuto tramite soggetti privati (casse malati, dagli individui personalmente, enti cantonali...)

Parliamo di un livello di spesa sanitaria che tuttavia non è esagerato in rapporto al pil pro capite di uno dei paesi più ricchi del mondo.

Fig.5



Ranking pil procapite (fonte:World Bank)



Il caso americano è del tutto differente, con quasi un sesto della piu' grande economia del mondo che transita attraverso il settore sanitario. La spesa per paziente è quasi 10 volte quella del piu' povero paese dell'UE. Permane la questione di milioni di cittadini, relativamente sani, che si espongono al rischio di rimanere senza assicurazione, in quanto l'ingente costo è di difficile copertura individuale in assenza di un datore di lavoro che la fornisca.

Queste persone non sono povere, ma nemmeno particolarmente ricche, e soprattutto il rischio sanitario nella vita di una persona è potenzialmente enorme (un'operazione

potrebbe costare facilmente 250,000 dollari) e sarebbe peraltro proprio in un momento in cui al costo della salute si somma il rischio di perdita del posto di lavoro (e l'assicurazione).

L'organizzazione non è a livello di sistema. Ogni stato dei 52 costituenti ha leggi e imposte autonome, e pure all'interno dei singoli stati permangono situazioni molto differenti.

Ogni ospedale di fatto costituisce potenzialmente un mondo a sé, essendo molto complessa la commistione tra interessi degli assicuratori, di profitto degli enti sanitari, le case farmaceutiche, i produttori di strumenti diagnostici, elementi etici e il criterio individualistico di soddisfazione del paziente (più che una customer satisfaction di un utente in seguito ad un suo percorso clinico di cura ed assistenza medica).

In ogni caso, gli USA sono gli innovatori mondiali in tema di tecnologie e brevetti sanitari. Inoltre, paradossalmente, la struttura del sistema di copertura tramite assicurazione, fa sì che le compagnie assicurative tendano su base sovraindividuale ad organizzare il sistema in modo tale da avere interesse a coprire costi di prevenzione di base al fine di mantenere inferiori i costi futuri e di comorbidità, facendo sì che finanziare alcune cure o diagnostiche di base come abbiamo evidenziato per il caso italiano potrebbe portare a risparmi sia di efficienza che di efficacia medica a medio termine del sistema, potrebbe aiutare anche nel caso di realtà locali ben organizzate a mantenere basso il costo per patologia (perché prevenuta e diagnosticata).

Il limite in questo caso ancora risiede nell'aspetto del tutto legato alle comunità locali singole che pervadono la situazione americana. [12] [13]

A livello Italiano a livello legislativo è stato effettuato un percorso di progressivo riconoscimento dei DRS nell'adulto e nel bambino.

Nel 2014, il Ministero della salute ha prodotto le «Linee guida nazionali per la prevenzione ed il trattamento odontoiatrico della sindrome delle apnee ostruttive nel sonno (Osas)»; il medesimo Ministero, ha poi approvato il documento «Linee guida nazionali per la prevenzione ed il trattamento odontoiatrico del russamento e della sindrome delle apnee ostruttive nel sonno in età evolutiva»; il 3 febbraio 2016, il Ministero della salute ha decretato «gli indirizzi medico-legali da osservare per l'accertamento dell'idoneità alla guida dei soggetti affetti da disturbi del sonno da apnee ostruttive notturne, o sospettati di

essere affetti da tale malattia. Il 12 maggio 2016 la Conferenza permanente per i rapporti tra lo Stato, le regioni e le province autonome di Trento e Bolzano ha sancito l'intesa sul documento «Sindrome apnee ostruttive del sonno (Osas)» del Ministero della salute, nel quale si afferma che l'Osas è una malattia cronica e si indica come realizzare la prevenzione e la diagnosi precoce dell'Osas, secondo criteri di sostenibilità, su tutto territorio nazionale. L'accordo Stato-regioni del 12 maggio 2016, per la definizione di un percorso diagnostico terapeutico assistenziale (PDTA) in materia di Osas, è stato recepito dalla regione Puglia (2017), dalla Regione Abruzzo (novembre 2019), dalla Regione Toscana (maggio 2020); la relativa delibera è in bozza nella Regione Sicilia. La direttiva 2014/85/UE della Commissione del 1° luglio 2014, recante modifica della direttiva 2006/126/CE del Parlamento europeo e del Consiglio concernente la patente di guida, indica che «la patente di guida può essere rilasciata ai richiedenti o conducenti con sindrome da apnea ostruttiva notturna moderata o grave che dimostrano un adeguato controllo della propria condizione, il rispetto delle cure adeguate e il miglioramento della sonnolenza, se del caso, confermato dal parere di un medico autorizzato»; tale direttiva è stata recepita con il decreto del Ministro delle infrastrutture e dei trasporti del 22 dicembre 2015; il Ministero delle infrastrutture e dei trasporti ha finanziato un'attività di ricerca finalizzata ad accertare l'incidenza della sindrome da apnea ostruttiva del sonno tra gli operatori del settore dell'autotrasporto di cose.

Il 18 novembre 2017 è nato il «Tavolo tecnico intersocietario - prevenzione, salute e sicurezza per il paziente Osas» che ha lo scopo di promuovere e diffondere, perseguendo un approccio interdisciplinare, la gestione del paziente Osas, con particolare attenzione agli aspetti della prevenzione, salute e della sicurezza nei trasporti e sul lavoro;

L'Automobile Club d'Italia (Aci) e la Fondazione italiana salute ambiente e respiro (Fisar), ente di ricerca riconosciuto dalla Presidenza del Consiglio dei ministri, il 29 maggio 2018 hanno dato inizio alla campagna «Dormi meglio, Guida sveglio» sui rischi per la sicurezza stradale della sindrome delle apnee ostruttive nel sonno con l'obiettivo di migliorare la conoscenza, la diagnosi e la cura dei molti casi di Osas ancora sommersi.

In data 25 luglio 2019 è stato adottato, con un Accordo Stato-regioni, il Documento strategico di indirizzo per la gestione integrata dell'insufficienza respiratoria, redatto da un Gruppo di lavoro di Gard-Italia, che comprende istituzioni, società scientifiche ed associazioni di pazienti che lavorano per il comune obiettivo di sviluppare una strategia di

prevenzione e di assistenza alle malattie respiratorie, costituita in coerenza con la Global Alliance against Chronic Respiratory Diseases (Gard) internazionale, creata nel 2004 dall'Organizzazione mondiale della sanità;

il documento definisce una proposta di percorso clinico-assistenziale di presa in carico del paziente con insufficienza respiratoria cronica (IRC), secondo la logica di un modello di gestione multiprofessionale e multidisciplinare integrata ospedale-territorio, con l'obiettivo generale di ottimizzare i percorsi diagnostici e terapeutici, per mettere il paziente e non il sistema al centro dell'organizzazione assistenziale attraverso la realizzazione di un modello che garantisca interventi efficaci e tempestivi di prevenzione primaria, secondaria e terziaria.

L'Osas quindi è una malattia di interesse multidisciplinare, che necessita di azioni diagnostiche e terapeutiche coordinate tra diversi specialisti come pneumologi, neurologi, otorinolaringoiatri, odontoiatri, cardiologi, psicologi e nutrizionisti, allo scopo di garantire un intervento ottimale e completo per le persone di tutte le età; l'obiettivo finale deve essere quello di rendere la missione di screening e diagnosi più capillare sul territorio, costruendo una rete tra medici di medicina generale, pediatri, medici del lavoro, servizi diagnostici territoriali del Servizio sanitario nazionale e servizi ospedalieri e tutti gli specialisti, pubblici o privati, coinvolti nella diagnosi e nella cura di questa patologia, per garantire la qualità degli interventi, la riduzione delle liste d'attesa e favorire la presa in carico dei pazienti.

Il Servizio sanitario nazionale prevede, al momento, solo trattamenti attraverso dispositivi ventilatori, escludendo i presidi terapeutici di tipo odontoiatrico.

Il Testo unificato in materia di "Prevenzione, Diagnosi e Cura della Sindrome della Apnee Ostruttive del Sonno" della Commissione XII della Camera dei Deputati (2020) ha stabilito di **promuovere ed avviare una campagna informativa** per la prevenzione, la diagnosi e la cura della sindrome delle apnee ostruttive del sonno (Osas), sia in età pediatrica che in età adulta, al fine di rendere i cittadini maggiormente consapevoli sia sulle conseguenze che tale patologia comporta, quale fattore di rischio per lo sviluppo di altre patologie, che sulla capacità di successo delle terapie esistenti, nonché a promuovere screening nazionali nei confronti di quelle categorie di soggetti che possono essere più facilmente colpite da tale patologia. In particolare, ed in particolare di sensibilizzare adulti, famiglie e adolescenti circa l'adozione di corretti stili di vita, soprattutto rispetto alle abitudini

alimentari, che sembrano influenzare in modo importante la manifestazione e l'evoluzione della patologia. Sempre nel Testo unificato sopracitato, si è deciso di adottare iniziative per **inserire l'Osas nell'elenco delle patologie croniche** e invalidanti esenti dalla partecipazione al costo delle prestazioni di cui all'allegato 8 del decreto del Presidente del Consiglio dei Ministri sui nuovi livelli essenziali di assistenza del 12 gennaio 2017, con l'obiettivo di renderli uniformi in tutte le regioni italiane, rendendo superfluo l'adempimento della richiesta per invalidità civile e semplificando, quindi, le procedure medico-amministrative in capo al paziente.

Si è, nello stesso documento della Commissione XII della Camera dei Deputati, deciso di adottare ogni iniziativa di competenza affinché, quanto prima, tutte le regioni diano attuazione all'intesa Stato-regioni del 12 maggio 2016 in materia di Osas e rendano fruibili per il cittadino **percorsi diagnostico-terapeutici assistenziali (Pdta) dedicati all'Osas**, facilitando l'accesso alla diagnosi e cura e al follow-up. Si sono decise di adottare iniziative di tipo normativo volte a promuovere e **a sostenere la ricerca** inerente i disturbi respiratori specifici, con particolare riferimento alle Osas e alle modalità attraverso cui espleta le sue comorbidità, al fine di potenziare e migliorare i protocolli diagnostici e terapeutici preventivi e curativi. Si impegna a valutare iniziative per adeguare il sistema del Diagnosis Related Groups (DRG) alle procedure diagnostiche e terapeutiche specifiche della patologia, in particolare provvedendo alla creazione di un DRG nei nuovi Lea per la titolazione dei dispositivi con pressione positiva automatica (APAP), per la procedura diagnostica endoscopica in sonno indotto DISE (drug induced sleep endoscopy), anche per ciò che riguarda la telemedicina e il telemonitoraggio per i pazienti in terapia con apparecchi per pressione positiva (PAP), favorendo la terapia e il follow-up, con riduzione degli accessi e delle lunghe liste di attesa e per una maggiore omogeneità su tutto il territorio nazionale. Si impegna a modificare l'allegato 5, elenco 2b, del decreto del Presidente del Consiglio dei Ministri sui nuovi livelli essenziali di assistenza del 12 gennaio 2017, che prevede un utilizzo minimo del ventilatore di otto ore al giorno a fronte delle indicazioni della comunità scientifica che ne preveda l'uso per almeno quattro ore di sonno. Favorisce l'**apertura di Centri multispecialistici qualificati** e accreditati di primo e secondo livello con integrazione ospedale-territorio per lo screening, la diagnosi, la terapia e il follow-up dell'Osas, in cui operino in maniera interdisciplinare gli specialisti pneumologi, neurologi, otorinolaringoiatri e odontoiatri, con il coinvolgimento attivo di Mmg e pediatri di libera scelta affiancati da personale tecnico formato alla preparazione dei

montaggi e all'eventuale monitoraggio delle registrazioni dei parametri del sonno, prevedendo per i medesimi centri territoriali alcune specificità organizzative riguardanti gli orari notturni delle indagini diagnostiche e degli interventi terapeutici, che potrebbero richiedere la presenza di personale dedicato al monitoraggio continuo del paziente in laboratorio. Inoltre, è da prevedere per tali centri la possibilità di ricorrere a specialisti di supporto quali psicologi, nutrizionisti, cardiologi e nei casi selezionati chirurghi maxillo-facciali.

Viene prevista una modalità di **coordinamento tra i servizi territoriali di diagnosi e cura con i servizi di prevenzione** e sicurezza in ambito lavorativo e di tenere conto delle necessità connesse all'Osas nei futuri aggiornamenti del «Regolamento recante definizione degli standard qualitativi, strutturali, tecnologici e quantitativi relativi all'assistenza ospedaliera» di cui al decreto del Ministro della salute del 2 aprile 2015.

Viene assicurata **nelle facoltà di medicina e chirurgia e garantita a tutti gli studenti un'adeguata formazione sulle patologie relative ai disturbi del sonno**, al fine di fornire la competenza clinica necessaria per una corretta gestione diagnostica e terapeutica del paziente nonché a favorire l'istituzione di master universitari sui disturbi respiratori del sonno relativamente alle competenze mediche e a quelle tecnico-infermieristiche, Viene previsto che il Servizio Sanitario Nazionale includa tra i trattamenti per l'Osas anche i presidi terapeutici odontoiatrici .

Questo recente percorso legislativo, è stato raggiunto dopo un'udienza alla Camera dei Deputati dei componenti del Tavolo Tecnico Intersocietario (TTI). Tra gli atti presentati dai diversi esperti vi sono stati i risultati ottenuti dalla Survey Nazionale SIMRI sui DRS che costituisce la prima parte di questo studio. I risultati ottenuti a livello legislativo hanno un grande significato perché consentono di mettere in atto quanto prospettato con la costruzione di un modello gestionale che costituisce la seconda parte dello studio.

6. CONCLUSIONI

I risultati ottenuti dall'analisi dei questionari inviati ai responsabili delle Pediatrie Italiane ed ai Pediatri di famiglia, hanno fatto emergere fattori critici e motivi di soddisfazione nella gestione dei DRS pediatrici. E' emersa, a livello nazionale, una realtà "a macchia di leopardo", per la diversa composizione delle risposte e per l'eterogeneità nei modi di approcciarsi al problema con importanti differenze geografiche sia dal punto di vista diagnostico/terapeutico che per la possibilità di attuare un gestione multidisciplinare.

Fattori di soddisfazione sono risultati essere: la possibilità di disporre di strumenti per poter fare diagnosi, la possibilità di seguire un maggior numero di pazienti e il poter disporre di una gestione multidisciplinare. Condiviso da tutti è stato il desiderio di poter approfondire le proprie conoscenze al riguardo.

I risultati ottenuti si sono utilizzati per costruire un modello gestionale diagnostico e terapeutico in grado di ridurre le differenze nella gestione dei DRS nelle diverse aree geografiche e di consentire un risparmio economico a lungo termine.

Il modello si avvale di una struttura a rete in cui il livello iniziale è costituito dai Pediatri di Famiglia che devono intercettare precocemente i pazienti con DRS. Il passaggio successivo è di inviarli in strutture ambulatoriali di I livello ove sia possibile effettuare semplici e poco costosi esami strumentali domiciliari notturni (Saturimetria, Poligrafia) montati da personale infermieristico addestrato, al fine di realizzare uno screening a costi più bassi. A questo livello sarà possibile collaborare con Specialisti Otorinolaringoiatri ed Odontoiatri in tempi brevi e con indicazioni condivise. Solo i casi più gravi o con comorbidità o poco responsivi alla terapia devono accedere a centri di secondo livello in cui è possibile effettuare una polisonnografia completa, con ricovero ospedaliero, effettuata con la presenza di tecnici di neurofisiopatologia. L'attività dei centri specializzati di secondo livello è caratterizzata dal poter beneficiare di economie di scala, finalità e apprendimento (know-how), collegati al maggior numero di pazienti trattati e al livello di gravità (learning by doing), al fine di aumentare l'efficienza, creare efficacia terapeutica attraverso la pratica e la specializzazione degli operatori sanitari coinvolti. Ogni centro deve disporre per ogni paziente di un team multidisciplinare che effettuerà una valutazione completa degli aspetti otorinolaringoiatrici, odontoiatrici, cardiologici,

neurologici, maxillofacciali, pneumologici e logopedici. Il primo livello si completa con un follow-up tramite accesso ambulatoriale territoriale, per poterlo realizzare è indispensabile implementare a livello regionale i percorsi con un numero adeguato di esperti specialisti. I requisiti strutturali organizzativi sono rappresentati dal:

- poter disporre di ambienti e spazi adeguati e dedicati,
- poter avere personale medico, infermieristico e tecnico adeguatamente formato ed abituato al lavoro multidisciplinare,
- poter avere un tempo adeguato per svolgere queste prestazioni.

Pertanto, l'analisi di capacity è elemento indispensabile per una corretta strutturazione equilibrata tra risorse e dimensione territoriale delle strutture, di primo e di secondo livello. Per i casi complessi il paziente viene avviato presso strutture di riferimento, di secondo livello, con letti dedicati funzionalmente a questa patologia, i centri di eccellenza dovranno essere forniti di diagnostica polisonnografica completa oltre che di tutte le apparecchiature per la ventilazione. Lo stesso tipo di strategia può essere usato per i pazienti che con esordio acuto o per comorbidità che necessitano di un setting organizzativo complesso e articolato. Nei pazienti che necessitano di struttura con terapia sub intensiva, benché l'OSA dovrebbe essere prevenuta e non trattata in acuto, in quanto patologia di natura fondamentalmente cronica, dal punto di vista dei requisiti strutturali e organizzativi occorre presenza di personale medico esperto, casistica adeguata e numero adeguato di casi trattati.

Attualmente si vede una carenza organizzativa nelle strutture pubbliche ospedaliere che spesso tendono a confondere, primo e secondo livello assistenziale, non dedicando adeguata distinzione tra un livello ambulatoriale attivamente rapido in termini di tempistiche, ridotto impegno di personale e strumentazioni, che viene spesso sovraccaricato di esigenze che invece sarebbero proprie di un secondo livello. E' fondamentale identificare alcuni marcatori come il tempo per il medico necessario per fare diagnosi, il numero di strumenti ed il numero di personale adibito al montaggio delle Polisonnografie per stabilire le necessità minime al fine di garantire degli standard diagnostici e terapeutici adeguati ai bisogni del territorio. E' imprescindibile dover effettuare un investimento in termini di risorse umane e tecnologiche e logistiche per ottenere un risultato. Ove necessario, andranno impiegate più risorse compatibilmente con

i vincoli di bilancio pubblico sempre più cogenti, tenendo conto che una organizzazione di struttura più efficiente conduce a risultati sia dal punto di vista economico che da un punto di vista medico più efficaci. [16] [17] [18]

La recente approvazione (2020) del “ Testo unificato in materia di Prevenzione, Diagnosi e Cura della Sindrome della Apnee Ostruttive del Sonno” della Commissione XII della Camera dei Deputati (2020) ha stabilito di promuovere un’attività coordinata tra servizi territoriali e di prevenzione, inserire l’OSAS tra le patologia croniche, organizzare l’apertura di Centri Specialistici multiisciplinari, organizzare percorsi diagnostico-terapeutici assistenziali (Pdta) dedicati all’Osas, facilitando l’accesso alla diagnosi e cura e al follow-up. Si sono decise di adottare iniziative di tipo normativo volte a sostenere la ricerca inerente i DRS, con particolare riferimento alle Osas e alle sue comorbidità, al fine di potenziare e migliorare i protocolli diagnostici e terapeutici preventivi e curativi e di garantire un’ adeguata formazione sui DRS nel corso di Laurea di Medicina e Chirurgia.

Questo progetto legislativo italiano è fondamentale perché apre importanti prospettive nella gestione dei DRS anche in età pediatrica. Lo studio effettuato dal Gruppo di Studio DRS SIMRI realizzando la Survey pediatrica nazionale e la successiva realizzazione del Modello gestionale hanno costituito una parte fondamentale per la realizzazione della parte pediatrica del Testo Unificato della XII Commissione della Camera dei Deputati che riconosce all’OSAS Pediatrica un ruolo importante nel percorso di cronicità della patologia e pone le basi per realizzare un percorso diagnostico/terapeutico e di formazione omogeneo a livello nazionale.

BIBLIOGRAFIA

- [1] Kaditis A, Alonso Alvarez ML, Boudewyns A et al. Obstructive sleep disordered breathing in 2- to 18-year-old children: diagnosis and management. *The European Respiratory Journal*, 2016; 47 (1): 69-94
- [2] Marcus C, Brooks L, Davidson Ward S et al. Diagnosis and Management of Childhood Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Pediatrics*, 2012; 130 (3): 714-755
- [3] Katz E e D'Ambrosio C. Pathophysiology of Pediatric Obstructive Sleep Apnea. *Proceedings of the American Thoracic Society*, 2008; 5: 253-262
- [4] Nespoli L, Caprioglio A, Brunetti L et al. Obstructive sleep apnea syndrome in childhood. *Early Human Development*, 2013; 89: 33-37
- [5] Kheirandish-Gozal L e Gozal D. *Sleep Disordered Breathing in Children: A Comprehensive Clinical Guide to Evaluation and Treatment*. 2012
- [6] Brouillette R, Manoukian J, Ducharme F, et al. Efficacy of fluticasone nasal spray for pediatric obstructive sleep apnea. *The Journal of Pediatrics*, 2001; 138 (6): 838-844
- [7] Kheirandish L, Goldbart A e Gozal D. Intranasal Steroids and Oral Leukotriene Modifier Therapy in Residual Sleep-Disordered Breathing After Tonsillectomy and Adenoidectomy in Children. *Pediatrics*, 2006; 117 (1): e61-e66
- [8] Zozula R, Bodow M, Yacilla D, Cody R, Rosen RC. Sviluppo di un breve strumento auto-somministrato per valutare la conoscenza del sonno nell'educazione medica: "l'indagine ASKME". *Sonno* 2001; 24: 227-233.
- [9] BaHamam AS. Conoscenza e attitudine dei medici di base per i disturbi del sonno. *Saudi Medical Journal* 2000; 21 (12): 1164-1167.
- [10] Sateia MJ, Reed VA, Christian Jernstedt G. La ricerca sul sonno e l'attitudine al sonno a Dartmouth: sviluppo e validazione. *Sonno Med*. 2005; 6 (1): 47-54.
- [11] Kaditis A, Kheirandish-Gozal L, Gozal D. Algorithm for the diagnosis and treatment of pediatric OSA: a proposal of two pediatric sleep centers. *Sleep Med* 2012; 13: 217–227.

- [12] R.Artoni, Scienza delle Finanze, capitolo sul Sistema Sanitario Pubblico, IL MULINO, 2004]
- [13] J.E.Stiglitz, Economics of the public sector, versione italiana a cura di Hoepli, 2° edizione 07/2003]
- [14] L.Nosetti, M.G. Paglietti, L.Brunetti, L.Masini, S.La Grutta, G.Cilluffo, M.Zaffanello, E.Verrillo, M.Pavone, A.C. Niespolo, G.Broggi, R.Cutrera e SIMRI DRS Working Group, A survey around the Italian Pediatrics Units on Current Clinical Practice for Sleep Disordered Breathing (DRS), Italian Journal of Pediatrics, 2019 Sept; online, 13052_2019_658
- [15] L.Nosetti, M.G. Paglietti, L.Brunetti, L.Masini, S.La Grutta, G.Cilluffo, G.Ferrante, M.Zaffanello, E.Verrillo, M.Pavone, A.C. Niespolo, G.Broggi, R.Cutrera e SIMRI SDB-TF, Application of latent class analysis in assessing the awareness, attitude, practice and satisfaction of paediatricians on sleep disorder management in children in Italy, PloS one, 2020 Feb; 15.2 (2020): e0228377
- [16] Carroll J.L., Loughlin G.M., Diagnostic criteria for obstructive sleep apnea syndrome in children. *Pediatr Pulmonol.* 1992;14(2):71-74.
- [17] Kheirandish-Gozal L, Gozal D. Pediatric OSA Syndrome Morbidity Biomarkers: The Hunt Is Finally On! *Chest.* 2017 Feb;151(2):500-506
- [18] Smith DL, Gozal D, Hunter SJ, Kheirandish-Gozal L. Parent-Reported Behavioral and Psychiatric Problems Mediate the Relationship between Sleep-Disordered Breathing and Cognitive Deficits in School-Aged Children. *Front Neurol.* 2017 Aug 11;8:410.
- [19] Organization of Cooperation and Development, www.oecd.org, grafici vari
- [20] Ragioneria Generale dello Stato, www.rgs.mef.gov.it, IMDSS-RS2018