

RESEARCH GROUP BACKGROUND AND ACCOMPLISHMENTS

2010-2015

RARE DISEASES

CURRENT MEMBERS OF THE RESEARCH AREA

Research coordinator

Clara Cavero Carbonell: cavero_cla@gva.es (2015-)

Dr. Óscar Zurriaga Llorens: zurriaga_osc@gva.es (2008-2011, 2014-2015)

Dra. Carmen Martos Jiménez: martos_car@gva.es (2011-2014)

Researchers

Dr. Óscar Zurriaga Llorens: zurriaga_osc@gva.es

Clara Cavero Carbonell: cavero_cla@gva.es

Research support assistant

Silvia Gimeno Martos: gimeno_silmar@gva.es

Lucía Páramo Rodríguez: paramo_luc@gva.es

Past members of the research group

Elena Gras Colomer: gras_ele@gva.es

Iris Canet: canet_iri@gva.es

RECORD OF THE RESEARCH AREA (Period 2010-2015)

GROUP ACTIVITIES

The epidemiology programme for rare diseases (EREpi) aims to increase knowledge about the distribution and real situations of diseases and their consequences on the population and uses epidemiological methodology in its analytical design facet as well as the implementation of studies and techniques of spatial epidemiology and the study of quality of life. Compiling records and databases as key elements in the development of research in the field of RD, since they allow sufficient sample sizes to be achieved for clinical or epidemiological research.

LINES OF RESEARCH

- 1. Determination of the prevalence of RD**
- 2. Study of inequalities in RD**
- 3. Analysis of the determinants of RD**

CURRENT COLLABORATIONS WITH OTHER RESEARCH GROUPS

Valencian Community:

National:

CIBERESP

Participación en la acción estratégica proyecto MEDEA: Zurriaga O, Martos Jiménez MC

ORPHANET España:

Miembros del Comité Científico: Zurriaga O, Martos Jiménez MC.

HEMACARE

Editora del Manual for Coding and Reporting Haematological Malignancies” elaborado en el marco del proyecto financiado por la Unión Europea “Cancer Registry based Project on Haematologic Malignancies (HAEMACARE)”, 2010: Martos Jiménez MC.

International:

SCIENTIFIC/TECHNICAL RECORD

■ 1. Research projects funded

2012-2015. *Investigar para prevenir las enfermedades raras pediátricas: Aplicación a las anomalías congénitas cardiacas raras*. Entidad financiadora: Fundació Gent per Gent. Número de proyecto/contrato: 34 ER. Investigador principal: Martos C. Importe: 20.500,00 Euros.

2012-2014. *Cross-Border Patient Registries Initiative PARENT*. Entidad financiadora: Comisión Europea. Número de proyecto/contrato: PR11/096. Investigador principal: Zurriaga O. Importe: 112.945,00 Euros.

2012-2014. *Red Española de registros de Enfermedades Raras para la investigación*. Entidad financiadora: ISCIII. Internacional Rare Diseases Research Consortium (IRDIRC). Número de proyecto/contrato: PR11/122. Investigador principal: Zurriaga O. Importe: 186.600,00 Euros.

2011-2013. *Public Health Adaptation Strategies to Extreme weather events*. Entidad financiadora: EU Second Health Programme 2008-2013. Número de proyecto/contrato (Proposal number): 100.977. Acronym: PHASE. Investigador Principal (del proyecto general): Michelozzi P. Agencia de Salud Pública de la Región del Lazio. Roma, Italia. Colaboradores (CSISP partner): Ballester F (coordinador), Iñiguez C, Zurriaga O, Martos C, Barberá M, Melchor I. Importe de la subvención: pendiente de determinación final.

2011-2013. *European Surveillance on Congenital Anomalies (EUROCAT)*. Entidad financiadora: EU Health Programme 2008-2013. Número de proyecto/contrato (Contract number): 20102204. Acronym EUROCAT. Investigador Principal (del proyecto general): Dolk H (University of Ulster EUROCAT Central Registry, Coleraine, United Kingdom). Colaboradores (CSISP partner): Zurriaga O, Martos C, Ballester F, Martínez-Beneito MA, Iñiguez C, Barona C, López A, Bosch S. Importe de la subvención: 9.940,00 Euros. (CSISP partner).

2011-2013. *Variaciones geográficas en la prevalencia de anomalías congénitas: factores ambientales y socioeconómicos*. Entidad financiadora: FIS. Instituto de Salud Carlos III. Número de proyecto/contrato: PI10/01676. Investigador Principal: Martos C. Colaboradores: Abellán C, Aguilar I, Arribas F, Bosh S, Compés ML, Esplugues A, Feja C, Fullana AM, Alcalá JT, López A. Importe de la subvención: 50.820,00 Euros.

2011-2012. *Evaluación de conjunto mínimo básico de datos como fuente de información de las anomalías congénitas en la Comunitat Valenciana*. Entidad financiadora: Conselleria de Sanitat. Número de proyecto/contrato: AP-032/11. Investigador Principal: Martos C. Importe de la subvención: 7.500,00 Euros.

2009-

2011.

Titulo del proyecto: *Evolución de las desigualdades económicas, medioambientales y en mortalidad en áreas pequeñas de grandes ciudades en España: Comunidad Valenciana*. Entidad Financiadora. Ayuda Fondo de Investigación Sanitaria. Instituto de Salud Carlos III. Convocatoria 2008. Número de proyecto/contrato: PI080330. Investigador principal: Nolasco JÁ. Colaboradores: Melchor I, Moncho J, Zurriaga O, García C, Villagrasa F, Pereyra-Zamora P. Importe de la Subvención: 104.302 Euros.

2010. *Análisis de la magnitud y de los determinantes de la mortalidad y morbilidad materna severa en la Comunitat Valenciana (2007-2009)*. Entidad Financiadora: Conselleria de Sanitat. Número de proyecto/contrato: 045/2010. Investigador principal: Barona C. Colaboradores: Zurriaga O, Mas R, López A, Bosch S, Ortiz F, García C. Importe de la Subvención: 2.500 Euros.

2010. *Workshop on Rare Paediatric Tumours*. Entidad financiadora: Conselleria de Educació. Generalitat Valenciana. Número de proyecto/contrato: AORG/2010/059 Investigadora principal: Martos C. Colaboradores: Zurriaga O, Vicente ML, Alberich C. Importe de la Subvención: 6.000,00 Euros.

2010. *Desarrollo de la primera fase del sistema de información de Enfermedades Raras en la Comunitat Valenciana*. Entidad Financiadora: Líneas de financiación de: seguridad del paciente, estrategias en salud y salud perinatal. Según acuerdo del Consejo Interterritorial del SNS de 10.02.10. Investigador principal: Zurriaga O. Colaboradores: Martos C. Importe de la subvención: 49.000 Euros.

2010. *“Desarrollo e implementación de metodología para la estimación de mapas de incidencias de gripe a partir de redes centinela mediante un modelo mixto de regresión de Poison-Bayesiano”*. Entidad Financiadora. Instituto de Salud Carlos III. Convocatoria Programa investigación Nueva Gripe AH1N1. Número de proyecto/contrato: GR09/0020. Investigador principal: Larrauri A. Colaboradores: Martínez MA, Botella P, Zurriaga O, Jiménez S, Lopez A, Miralles MT, Gómez D, Flores V. Importe de la Subvención: 42.000 Euros.

2009-2010. *Grupo emergente reconocido por el Gobierno de Aragón de “Investigación en Servicios Sanitarios”* Entidad Financiadora: Gobierno de Aragón. Número de proyecto/contrato: Ref B-26 (resolución 2008). Investigadora principal: Rabanaque MJ. Colaboradores: Martos C. Importe de la Subvención: 15.434,00 Euros.

2008-2010. *Supervivencia del cáncer de mama en la mujer, variabilidad en la práctica clínica y factores asociados: Estudio en nueve registros de cancer de población españoles*. Entidad financiadora: Ayuda FIS. Número de proyecto/contrato: PI071063. Investigador principal: Martos C. Colaboradores: Rabanaque MJ, Esteban M, Moliner J, Arribas F, Alonso JP, Marco MP, Andrés R y Cazcarra R. Importe de la subvención: 32.172,00 Euros.

11/2008 hasta 09/2010. *Desigualdades socioeconómicas, contaminación industrial y salud en Zaragoza*. Entidad financiadora: Gobierno de Aragón. Número de proyecto/contrato: PI126/08. Investigador principal: Martos C. Colaboradores: Alcalá JT, Arribas F, Esteban M, Compés ML, Aguilar I. Importe de la Subvención: 42.667,00 Euros.

08/2009 hasta 03/2010. *Factores asociados a media y larga estancia hospitalaria de enfermedades raras en la Comunitat Valenciana: Enfermedades mentales y enfermedades del sistema nervioso y de los órganos de los sentidos*. Entidad financiadora: Conselleria de Sanitat. Generalitat Valenciana. Número de

proyecto/contrato: MLE 4/09. Investigadora principal: Martos C. Colaboradores: Zurriaga O, Botella P. Importe de la Subvención: 2.000,00 Euros.

2. Participation in research contracts with companies or administrators.

3. Publications

YEAR 2015

1. Cavero-Carbonell C, Gras-Colomer E, Guaita-Calatrava R, Lopez-Briones C, Amoros R, Abaitua I, et al. Consensus on the criteria needed for creating a rare-disease patient registry. A Delphi study. *J Public Health (Oxf)*. 2015 Aug 19.
2. Hruskova Z, Stel VS, Jayne D, Aasarod K, De Meester J, Ekstrand A, et al. Characteristics and Outcomes of Granulomatosis With Polyangiitis (Wegener) and Microscopic Polyangiitis Requiring Renal Replacement Therapy: Results From the European Renal Association-European Dialysis and Transplant Association Registry. *American journal of kidney diseases : the official journal of the National Kidney Foundation*. 2015 May 12.
3. McGivern MR, Best KE, Rankin J, Wellesley D, Greenlees R, Addor MC, et al. Epidemiology of congenital diaphragmatic hernia in Europe: a register-based study. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 2015 Mar;100(2):F137-44.
4. Nolasco A, Moncho J, Quesada JA, Melchor I, Pereyra-Zamora P, Tamayo-Fonseca N, et al. Trends in socioeconomic inequalities in preventable mortality in urban areas of 33 Spanish cities, 1996–2007 (MEDEA project). *International Journal for Equity in Health* 2015;14(1):33.
5. Paramo-Rodriguez L, Mas Pons R, Cavero-Carbonell C, Martos-Jimenez C, Zurriaga O, Barona Vilar C. [An open heart: experiences of the parents of children with congenital heart disease]. *Gac Sanit*. 2015 Aug 25.
6. Zoni AC, Dominguez Berjon MF, Barcelo E, Esteban Vasallo MD, Abaitua I, Jimenez Villa J, et al. Identifying data sources for a national population-based registry: the experience of the Spanish Rare Diseases Registry. *Public Health*. 2015 Mar;129(3):271-5.

YEAR 2014

7. Best KE, Addor M-C, Arriola L, Balku E, Barisic I, Bianchi F, et al. Hirschsprung's disease prevalence in Europe: A register based study. *Birth Defects Research Part A: Clinical and Molecular Teratology*. 2014 Sep;100(9):695-702
8. Marí-Dell'olmo M, Gotsens M, Borrell C, Martínez-Beneito MA, Palència L, Pérez G, Cirera L, Daponte A, Domínguez-Berjón F, Esnaola S, Gandarillas A,

Lorenzo P, Martos C, Nolasco A, Rodríguez-Sanz M. Trends in socioeconomic inequalities in ischemic heart disease mortality in small areas of nine Spanish cities from 1996 to 2007 using smoothed ANOVA. *J Urban Health*. 2014 Feb;91(1):46-61.

YEAR 2013

1. Aguilar-Palacio I, Martínez-Beneito MA, Martos C, Ranaque MJ, group. M. Diabetes Mellitus mortality and health inequalities in Spain (MEDEA project). *Eur J Public Health*. 2013;23
2. Cavero Carbonell C, Zurriaga O, Pérez Panadés J, Barona Vilar C, Martos Jiménez C. [Temporal variation and geographical distribution: congenital heart defects in the Comunitat Valenciana.]. *An Pediatr (Barc)*. 2013 Sep;79(3):149-56 Spanish.
3. Estarlich M, Iñiguez C, Esplugues A, Mantilla E, Zurriaga O, Nolasco A, et al. [The spatial distribution of population exposure to outdoor air Pollution in Valencia (Spain) and its association with a privation index]. *Gac Sanit*. 2013 Mar-Apr;27(2):143-8. Spanish
4. Martínez-Beneito MA, Zurriaga O, Botella-Rocamora P, Marí-Dell'olmo M, Nolasco A, Moncho J, et al. Do socioeconomic inequalities in mortality vary between different Spanish cities? a pooled cross-sectional analysis. *BMC Public Health*. 2013 May 16;13(1):480.
5. Martos C, Cavero C, Gimeno S, Guaita R, Páramo L. Anomalías congénitas. *Conocer para avanzar. Viure en Salut*. 2013;9:6-7.
6. Maynadié M, De Angelis R, Marcos-Gragera R, Visser O, Allemani C, Tereanu C, et al. Survival of European patients diagnosed with myeloid malignancies: a HAEMACARE study. *Haematologica*. 2013 Feb;98(2):230-8.
7. Puig-Vives M, Sánchez MJ, Sánchez-Cantalejo J, Torrella-Ramos A, Martos C, Ardanaz E, et al. Distribution and prognosis of molecular breast cancer subtypes defined by immunohistochemical biomarkers in a Spanish population-based study. *Gynecol Oncol*. 2013 Sep;130(3):609-14
8. Renart G, Saez M, Saurina C, Marcos-Gragera R, Ocaña-Riola R, Martos C, et al. A common error in the ecological regression of cancer incidence on the deprivation index. *Rev Panam Salud Publica*. 2013;34(2):83-91
9. Rodríguez-Bernal C, Rebagliato M, Chatzi L, Carbonell C, Martos C, Ballester F. Maternal Diet Quality and Pregnancy Outcomes. In: Preedy VR, Hunter L-A, Patel VB, editors. *Diet Quality*: Springer New York; 2013. p. 65-79.
10. Satge D, Stiller CA, Rutkowski S, von Bueren AO, Lacour B, Sommelet D, et al. A very rare cancer in Down syndrome: medulloblastoma. Epidemiological data from 13 countries. *J Neurooncol*. 2013 Mar;112(1):107-14.
11. Wühl E, van Stralen KJ, Verrina E, Bjerre A, Wanner C, Heaf JG, et al. Timing and outcome of renal replacement therapy in patients with congenital

malformations of the kidney and urinary tract. Clin J Am Soc Nephrol. 2013 Jan;8(1):67-74.

12. Zurriaga O, Posada M. Malalties rares, informació freqüent. Viure en Salut. 2013;97:4-5.

YEAR 2012

1. Koivisto-Korander R, Scélo G, Ferro G, Mellemkjaer L, Hemminki K, Weiderpass E, et al. Second primary malignancies among women with uterine sarcoma. Gynecol Oncol. 2012 Jul;126(1):30-5.
2. Saez M, Barceló MA, Martos C, Saurina C, Marcos-Gragera R, Renart G, et al. Spatial variability in relative survival from female breast cancer. J R Stat Soc Ser A Stat Soc. 2012;175(1):107-34.

YEAR 2011

1. Aguilar I, Feja C, Compes MA, Rabanaque MA, Esteban M, Alcalá T, et al. [Men inequalities and liver cirrhosis mortality (Zaragoza, Spain, 1996-2003)]. Gac Sanit. 2011 Mar-Apr;25(2):139-45.
2. Bosetti C, Scelo G, Chuang SC, Tonita JM, Tamaro S, Jonasson JG, et al. High constant incidence rates of second primary cancers of the head and neck: a pooled analysis of 13 cancer registries. Int J Cancer. 2011 Jul 1;129(1):173-9
3. Gascón Pérez E, Martos Jiménez C, G. BF. Epidemiología y prevención de lesiones por accidentes. In: Hernández-Aguado I, Gil de Miguel A, Delgado Rodríguez M, [et.al.], editors. Manual de Epidemiología y Salud Pública: para grados en ciencias de la salud. 2ª ed. Madrid: Médica Panamericana; 2011. p. 181-4.
4. Gotsens M, Marí-Dell'Olmo M, Martínez-Beneito Mn, Pérez K, Pasarín MI, Daponte A, et al. Socio-economic inequalities in mortality due to injuries in small areas of ten cities in Spain (MEDEA Project). Accident Analysis & Prevention. 2011 Sep;43(5):1802-10.
5. Marcos-Gragera R, Allemani C, Tereanu C, de Angelis R, Capocaccia R, Maynadie M, et al. Survival of European patients diagnosed with lymphoid neoplasms in 2000-2002: results of the HAEMACARE project. Haematologica. 2011 May;96(5):720-8.
6. Martínez-Beneito MA, Botella-Rocamora P, Zurriaga O. A kernel-based spatio-temporal surveillance system for monitoring influenza-like illness incidence. Stat Methods Med Res. 2011 Apr;20(2):103-18.

7. Maule M, Scelo G, Pastore G, Brennan P, Hemminki K, Olsen JH, et al. Second malignancies after childhood noncentral nervous system solid cancer: Results from 13 cancer registries. *Int J Cancer*. 2011 Oct 15;129(8):1940-52.
8. Puigpinos-Riera R, Mari-Dell'Olmo M, Gotsens M, Borrell C, Serral G, Ascaso C, et al. Cancer mortality inequalities in urban areas: a Bayesian small area analysis in Spanish cities. *Int J Health Geogr*. 2011;10(1):6-.

YEAR 2010

1. Bernal-Delgado E, Martos C, Martinez N, Chirlaque MD, Marquez M, Navarro C, et al. Is hospital discharge administrative data an appropriate source of information for cancer registries purposes? Some insights from four Spanish registries. *BMC Health Serv Res*. 2010 Jan 8; 10(1):9. doi: 10.1186/1472-6963-10-9.
2. Chuang SC, Scélo G, Lee YC, Friis S, Pukkala E, Brewster DH, et al. Risks of second primary cancer among patients with major histological types of lung cancers in both men and women. *Br J Cancer*. 2010; 102: 1190-5.
3. de la Paz MP, Villaverde-Hueso A, Alonso V, János S, Zurriaga O, Pollán M, et al. Rare diseases epidemiology research. *Adv Exp Med Biol*. 2010; 686:17-39.
4. Feja Solana C, Alcalá Nalvaiz JT, Rabanaque Hernández MJ, Saez Zafra M, Marcos-Gragera R, Martos Jiménez MC. [Geographical inequalities in mortality and incidence in larynx cancer in men: socioeconomic and environmental factors]. *Rev Esp Salud Publica*. 2010 Nov-Dec;84(6):745-56.
5. Llompарт G, Marin GH, Silberman M, Merlo I, Zurriaga O; GIS (Grupo Interdisciplinario para Salud). Oral health in 6-year-old schoolchildren from Berisso, Argentina: falling far short of WHO goals. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2010 Jan 1;15(1):e101-5.
6. Marcos-Gragera R, Cervantes M, Vicente ML, de Sanjosé S, Guallar E, Vilardell L, et al. Incidence of childhood haematological malignancies in Spain, 1993-2002. *Eur J Cancer Prev* 2010; 19: 247-55.
7. Marin GH, Urdampilleta P, Zurriaga O. Determinants of dental care utilization by the adult population in Buenos Aires. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2010 Mar 1;15(2):e316-21.
8. Navarro C, Martos C, Ardanaz E, Galceran J, Izarzugaza I, Peris-Bonet R, et al. Population-based cancer registries in Spain and their role in cancer control. *Ann Oncol*. 2010; 21 Suppl 3:iii3-13.
9. Río I, Castelló A, Jané M, Prats R, Barona C, Más R, et al. [Reproductive and perinatal health indicators in immigrant and Spanish-born women in Catalonia and Valencia (2005-2006)]. *Gac Sanit*. 2010 Mar-Apr;24(2):123-7.
10. Río I, Castelló A, Jané M, Prats R, Barona C, Más R, et al. [Quality of data used to calculate reproductive and perinatal health indicators in native and migrant populations.]. *Gac Sanit*. 2010 Mar-Apr;24(2):172-7.

11. Saurina C, Saez M, Marcos-Gragera R, Barceló MA, Renart G, Martos C. Effects of deprivation on the geographical variability of larynx cancer incidence in men, Girona (Spain) 1994–2004. *Cancer Epidemiol.* 2010; 34:109-15
12. Stel VS, Tomson C, Ansell D, Casino FG, Collart F, Finne P, et al. Level of renal function in patients starting dialysis: an ERA-EDTA Registry study. *Nephrol Dial Transplant.* 2010; 25 (10): 3315-25.

4. Participation in education and training programs

Dr. Óscar Zurriaga, profesor Asociado en el Departamento de Medicina Preventiva y Salud Pública, Ciencias de la Alimentación, Toxicología y Medicina Legal. Universitat de València

Dra. Carmen Martos Jiménez, profesora Asociada en el Departamento de Enfermería de la Universitat de València.

Dra. Carmen Martos Jiménez y Dr. Óscar Zurriaga, profesores en el Máster en Salud Pública y Gestión Sanitaria (Universitat de València-ADEIT-Conselleria de Sanitat)

Dra. Carmen Martos Jiménez, profesora en el Master Oficial Inter-Universitario de Ciencias de la Enfermería –MICCE.

Dra. Carmen Martos Jiménez, coordinadora y profesora del curso “La encuesta como técnica de investigación en ciencias de la salud. Elaboración de cuestionarios y tratamiento estadístico de los datos”. Escuela Universitaria de Ciencias de la Salud de Zaragoza, 27/09/2010 – 05/10/2010.

5. Doctoral theses