

VNIVERSITAT (ò•••)
E VALÈNCIA

Facultat de Fisioteràpia



PROGRAMA DE DOCTORADO:

3165 programa de doctorado en fisioterapia: afecciones musculoesqueléticas

Efectividad de un programa multimodal de ejercicios para el equilibrio en pacientes con hemofilia. Ensayo Clínico

TESIS DOCTORAL

PRESENTADA POR:

Ana Chimeno Hernández

DIRIGIDA POR:

Dra. Sofía Pérez Alenda

Dra. Marta Aguilar Rodríguez

Dr. Juan José Carrasco Fernández

Valencia, septiembre de 2023

Dra. Sofía Pérez Alenda, Profesora Titular de la Universidad de Valencia, adscrita al Departamento de Fisioterapia.

Dra. Marta Aguilar Rodríguez, Profesora Contratada Doctora de la Universitat de Valencia, adscrita al Departamento de Fisioterapia.

Dr. Juan José Carrasco Fernández, Investigador Doctor Senior de la Universidad de Valencia, adscrito al Departamento de Fisioterapia.

CERTIFICAN:

Que el presente trabajo, titulado “Efectividad de un programa multimodal de ejercicios para el equilibrio en pacientes con hemofilia. Ensayo Clínico”, ha sido realizado bajo su dirección en el Departamento de Fisioterapia de la *Universitat de València*, por Dña. Ana Chimenó Hernández, para optar al grado de Doctora por la *Universitat de València* en el programa: 3165 Doctorado en Fisioterapia. Habiéndose concluido y reuniendo a su juicio las condiciones de originalidad y rigor científico necesarias, autorizan su presentación a fin de que pueda ser defendido ante el tribunal correspondiente.

Y para que así conste, expiden y firman la presente comunicación en Valencia, septiembre de 2023.

Dra. Sofía Pérez
Alenda



Dra. Marta Aguilar
Rodríguez



Dr. Juan José
Carrasco Fernández



AGRADECIMIENTOS

Me gustaría destacar en esta sección a todas las personas que me han ido apoyando a lo largo de este doctorado, sin los cuales todo este proceso hubiera sido más difícil.

Primero a mis directoras y director de tesis, los cuales me han otorgado uno de los regalos más preciados a lo largo de este trabajo, su tiempo. Marta Aguilar Rodríguez, Sofía Pérez Alenda y Juanjo Carrasco Fernández, gracias por dedicarme esas horas dentro de vuestras ya complicadas agendas, por vuestra paciencia, constancia y por enseñarme y permitirme crecer en este mundo de la investigación y docencia universitaria. Estos años con vosotros me han enriquecido tanto a nivel profesional como personal.

Del mismo modo, agradecer a todos los compañeros de equipo que me han ayudado con sus conocimientos y experiencia. Entre ellos quiero destacar a Felipe Querol y a los compañeros de la *Facultat de Fisioteràpia de la Universitat de València*. Ha sido un verdadero placer aprender y trabajar con todos vosotros.

También me gustaría agradecer el apoyo de mi familia y amigos, los cuales nunca han dudado de mí y siempre han estado a mi lado durante todos estos años del doctorado. Gracias por esos ánimos infinitos, por vuestra compañía, consejos y trucos de ofimática que han hecho el trabajo más ameno.

Por último, quiero mencionar a todas las personas con hemofilia que se involucraron en esta tesis, sin vosotros hubiera sido imposible llegar aquí. Gracias por esta siempre dispuestos a participar en las investigaciones y por vuestro apoyo en mi doctorado.

ÍNDICE DE CONTENIDOS

1. INTRODUCCIÓN	21
1.1. GENERALIDADES SOBRE LA HEMOFILIA.....	23
1.2. MANIFESTACIONES CLÍNICAS	24
1.3. TRATAMIENTO FARMACOLÓGICO	27
1.4. TRATAMIENTO FISIOTERÁPICO EN PACIENTES CON HEMOFILIA	30
1.5. EL EQUILIBRIO Y EL CONTROL POSTURAL EN PACIENTES CON HEMOFILIA	34
1.6. JUSTIFICACIÓN.....	38
1.7. HIPÓTESIS	39
1.8. OBJETIVOS	39
2.MATERIAL Y MÉTODOS	41
2.1. DISEÑO	43
2.2. SUJETOS.....	43
2.3. PROCEDIMIENTO GENERAL.....	44
2.4. INTERVENCIÓN	47
2.5. VARIABLES DEL ESTUDIO	56
2.5.1. Equilibrio	57
2.5.2. Funcionalidad	63
2.5.3. Riesgo de caídas	68
2.5.4. Fuerza	70
2.5.5. Kinesiofobia.....	74
2.5.6. Calidad de vida	75
2.5.7. Dolor.....	76
2.5.8. Satisfacción con el programa y deseo de hacer ejercicio	76
3.RESULTADOS	79

3.1. RESULTADOS DESCRIPTIVOS	82
3.2. RESULTADOS DEL ANÁLISIS INFERENCIAL	85
3.2.1. Equilibrio	85
3.2.2. Funcionalidad	93
3.2.3. Riesgo de caídas	97
3.2.4. Fuerza	98
3.2.5. Kinesiofobia	98
3.2.6. Calidad de vida	100
3.2.7. Dolor	103
3.2.8. Satisfacción con el programa y deseo de hacer ejercicio	103
4. DISCUSIÓN	105
4.1. EQUILIBRIO	107
4.2. FUNCIONALIDAD	111
4.3. RIESGO DE CAÍDAS	113
4.4. FUERZA	115
4.5. KINESIOFOBIA	116
4.6. CALIDAD DE VIDA	117
4.7. DOLOR	118
4.8. SATISFACCIÓN CON EL PROGRAMA Y DESEO DE HACER EJERCICIO	119
4.9. LÍMITACIONES	120
4.10. FORTALEZAS	121
5. CONCLUSIONES	125
6. REFERENCIAS	129
7. ANEXOS	159

ÍNDICE DE TABLAS

Tabla 1. Beneficios del ejercicio físico generales y específicos para los pacientes con hemofilia. 32

Tabla 2. Progresión número de ejercicios según el tipo de equilibrio y semana. 49

Tabla 3. Progresión en dificultad ejercicios de equilibrio estático, dinámico y tarea dual cognitiva. 51

Tabla 4. Equivalencia bandas elásticas con peso y resistencia. 54

Tabla 5. Dosificación del entrenamiento de fuerza y equilibrio por semanas en función del RPE, series, repeticiones y tiempo. 55

Tabla 6. Pruebas del equilibrio estático y dinámico..... 58

Tabla 7. Variables del equilibrio. 59

Tabla 8. Variables demográficas y clínicas. 83

Tabla 9. Análisis descriptivo de la frecuencia de actividad física, tipo, intensidad y duración..... 84

Tabla 10. Resultados del análisis estadístico del equilibrio con la WBB®..... 87

Tabla 11. Resultado análisis estadístico límites de estabilidad en la NedSVE/IBV. 91

Tabla 12. Resultados análisis estadístico percepción subjetiva del equilibrio. 92

Tabla 13. Resultado análisis estadístico funcionalidad auto-percibida HAL y FISH. 94

Tabla 14. Resultado análisis estadístico pruebas funcionales. 96

Tabla 15. Resultados análisis estadístico del riesgo de caídas..... 97

Tabla 16. Resultados análisis estadístico fuerza de cuádriceps y glúteo medio. 99

Tabla 17. Resultados análisis estadístico de la Kinesiofobia. 100

Tabla 18. Resultado análisis estadístico calidad de vida..... 101

Tabla 19. Resultados análisis estadístico dolor..... 103

Tabla 20. Análisis descriptivo de la satisfacción con el programa y deseo de realizar ejercicio..... 104

ÍNDICE DE FIGURAS

Figura 1. Sinovitis crónica en rodilla izquierda y AH.	26
Figura 2. Esquema de la fisiopatología de la sinovitis y AH.	26
Figura 3. Esquema sobre la actuación de los diferentes sistemas durante el equilibrio.....	35
Figura 4. Cronograma con planificación de evaluaciones y las sesiones de entrenamiento	46
Figura 5. Secuencia de ejercicios de calentamiento.	48
Figura 6. Ejercicios de equilibrio estático y dinámico.	50
Figura 7. Ejercicios de fuerza.....	52
Figura 8. Escala OMNI-GSE esfuerzo percibido para sesiones con objetivos múltiples en personas mayores.....	53
Figura 9. Tabla de estiramientos.	56
Figura 10. Límites de estabilidad en la NedSVE/IBV.	59
Figura 11. Colocación plataformas equilibrio..	62
Figura 12. Pruebas funcionales.	67
Figura 13. Medición fuerza..	71
Figura 14. Posición decúbito lateral evaluación fuerza glúteo medio.74	
Figura 15. Diagrama de flujo del progreso a través de las fases del estudio.....	81

ABREVIATURAS

A36 Hemofilia-QoL	Cuestionario Específico para la Evaluación de la Calidad de Vida Relacionada con la Salud en Adultos con Hemofilia
AH	Artropatía Hemofílica
ANOVA	Análisis de varianza
BBS	<i>Berg Balance scale</i>
BDS	Base de sustentación
CDG	Centro de gravedad
EVA	Escala Visual Analógica
FCD	Fuerza Cuádriceps Derecho
FCI	Fuerza Cuádriceps Izquierdo
FGMD	Fuerza Glúteo Medio Derecho
FGMI	Fuerza Glúteo Medio Izquierdo
FISH	<i>Functional Independence Score Haemophilia</i>
FOA	Foam Ojos Abiertos
FOC	Foam Ojos Cerrados
FVIII	Factor VIII de coagulación
GC	Grupo control
GE	Grupo experimental
HA	Hemofilia A
HAL	<i>Haemophilia Activity List</i>
HB	Hemofilia B
HJHS	<i>Haemophilia Joint Health Score</i>

Abreviaturas

NedSVE/IBV	Instituto de Biomecánica de Valencia, software para la valoración y rehabilitación del equilibrio
mFES	<i>modified Fall Efficacy scale</i>
MD	Monopodal Dominante
MND	Monopodal No Dominante
OA	Ojos abiertos
OC	Ojos cerrados
OMNI-GSE	Escala de percepción subjetiva del esfuerzo físico en personas mayores
PCH	Pacientes con hemofilia
QoL	Calidad de vida
RPE	Índice de esfuerzo percibido
STST	<i>Sit To Stand Test</i>
TCC	Terapia Cognitivo Conductual
TD	Tareas duales
TSK-11SV	<i>Tampa Scale of Kinesiophobia 11 Spanish Version</i>
TUG	<i>Test Timed Up and Go</i>
UHT	Unidad de Hemostasia y Trombosis
WBB	<i>Wii Balance Board</i>
2MWT	<i>Two Minutes Walk Test</i>

RESUMEN

RESUMEN

Las hemorragias intraarticulares en los pacientes con hemofilia (PCH) provocan cambios articulares, afectando así al rango de movimiento, fuerza muscular y equilibrio. Dichas alteraciones podrían perpetuar el círculo vicioso del sedentarismo de esta población, empeorando la afección musculoesquelética y aumentando el riesgo de hemorragias, de caídas y, en consecuencia, los costes sanitarios.

Así pues, el ejercicio físico junto al adecuado tratamiento farmacológico se convierte en un factor vital para detener este círculo negativo, mejorar la salud y la calidad de vida. En esta línea, los protocolos más utilizados en PCH incluyen principalmente ejercicios de fuerza, flexibilidad, movilidad y aeróbicos. Algunos de ellos, incluyen ejercicios de propiocepción y equilibrio, pero lo hacen de forma secundaria. Por lo tanto y, que tengamos constancia, este es el primer estudio que tiene como objetivo evaluar el efecto de un programa multimodal de ejercicios de equilibrio (ejercicios estáticos, dinámicos y tareas duales) y de fuerza, en la mejora de la estabilidad en PCH.

Asimismo, el objetivo secundario era analizar la eficacia del programa sobre la funcionalidad, el riesgo de caídas, la fuerza, la kinesiophobia, la calidad de vida y el dolor, además de evaluar la satisfacción de los pacientes con el programa y el deseo de hacer más ejercicio.

Así pues, se realizó este ensayo clínico, donde 22 PCH se distribuyeron en un grupo experimental (GE=11) y un grupo control (GC=11). Los pacientes del GE realizaron el protocolo de ejercicios durante 3 meses,

2 veces por semana, en los laboratorios de investigación de la Facultat de Fisioteràpia, supervisados por el fisioterapeuta. El GC continuó con su vida diaria. El equilibrio estático, dinámico y con tarea dual (Wii Balance Board®, NedSVE/IBV), la funcionalidad (*Haemophilia Activity List (HAL)*, *Funcional Independent Score of Haemophilia (FISH)*, *Time Up and Go (TUG)*, *Sit To Stand Test (STST)* y *2 Minutes Walk Test (2MWT)*), el riesgo de caídas (*modified Fall Efficacy Scale (mFES)*, *Berg Balance Scale (BBS)*), la fuerza (dinamómetro), la kinesiofobia (*Tampa Scale of Kinesiophobia*), la calidad de vida (*A36 Hemophilia-QoL*) y el dolor (EVA), fueron medidos en dos tiempos: al inicio y al final del programa. La satisfacción con el programa y el deseo de hacer ejercicio solo se midieron al GE a su finalización. Los efectos de la intervención se determinaron con un análisis de varianza (ANOVA) de medidas repetidas de dos factores.

Los hallazgos mostraron que el GE presentó mejoras significativas ($p < 0,05$) en las siguientes variables: (a) equilibrio [dinámico: control dirección ($d=0,80$); tiempo confinamiento ($d=0,79$); desplazamiento máximo ($r=0,86$) y valoración ($r=0,88$). Autopercepción: percepción del equilibrio ($d=2,95$) y percepción equilibrio en actividades externas ($d=2,86$)]; (b) funcionalidad [HAL: función piernas ($d=0,32$); actividades complejas piernas ($d=0,30$); TUG ($d=0,81$); STST ($r=0,86$); 2MWT ($d=0,82$)], (c) riesgo de caídas [mFES ($r=0,81$) y BBS ($r=0,77$)] y (d) fuerza [cuádriceps derecho ($d=0,30$) /izquierdo ($d=0,42$); glúteo medio derecho ($d=0,83$) /izquierdo ($d=0,68$)]. En cambio, este programa no ha sido efectivo en la mejora de la kinesiofobia, la calidad de vida o el

dolor. Tampoco hubo cambios tras la intervención en el GC ni entre grupos.

En conclusión, el programa multimodal de ejercicios propuesto mejoró el equilibrio dinámico, la funcionalidad y la fuerza. Así mismo, disminuyó el riesgo de caídas en los PCH. Además, los participantes del GE manifestaron una alta satisfacción con el programa y un aumento en el deseo de hacer ejercicio.

1. INTRODUCCIÓN

1.1. GENERALIDADES SOBRE LA HEMOFILIA

La hemofilia es un trastorno hemorrágico ligado al cromosoma X, causado por la mutación del gen F8 del factor VIII (hemofilia A, HA) o F9 del factor IX (hemofilia B, HB) o por variantes genéticas espontáneas, que provoca la falta de factor de coagulación (FVIII o FIX respectivamente) en la sangre.^{1,2} El fenotipo característico de la hemofilia es la tendencia a las hemorragias, principalmente articulares y/o musculares.³ La gravedad de los síntomas se clasifica como severo, si el nivel de FVIII o FIX en el plasma sanguíneo es <1 (U/dL), moderado entre 1-5 (U/dL) y leve si es >5 y menor de 40 U/dL.⁴

Es una enfermedad rara con una presencia de menos de 5 casos por 10.000 personas en Europa.^{1,5} A pesar de ello, la prevalencia ha ido aumentando en estos últimos años dándose 17,1 casos por 100.000 hombres en todos los niveles de gravedad de HA y 3,8 casos por 100.000 hombres en todos los niveles de gravedad en HB.^{1,6} En España, aproximadamente 1 de cada 7.700 hombres tienen hemofilia, con una proporción entre HA y HB de 6,5:1^{7,8} sin tener en cuenta su forma adquirida o la presente en mujeres, cuya prevalencia en España aún no ha podido ser estimada.⁹

El diagnóstico precoz permite administrar el tratamiento más adecuado y con ello disminuir al máximo posible los sangrados y sus consecuencias. Dicho diagnóstico está basado principalmente en el estudio sanguíneo del tiempo de la tromboplastina parcial activada (>24-37s) y de los factores de coagulación (<40 U/dL).^{4,10,11} Además,

son habituales los estudios familiares y genéticos para valorar el patrón hereditario y ayudar a definir la biología de la enfermedad.^{4,12,13}

1.2. MANIFESTACIONES CLÍNICAS

La primera causa de morbilidad en PCH grave es la presencia de hemorragias recurrentes intraarticulares e intramusculares, ya sea debido a un evento traumático, espontáneo o por una alteración de la biomecánica, que da lugar a un aumento de estrés en el sistema musculoesquelético.¹⁴

La clínica de un sangrado articular o hemartros se manifiesta con un cuadro agudo de dolor intenso/moderado, inflamación, aumento de la temperatura, limitación de la movilidad y pérdida de fuerza.^{15,16}

Alrededor del 85% de los hemartros están localizados en codos, rodillas y tobillos. La hipertrofia sinovial, la degeneración del cartílago, la alteración de la estructura ósea, la disfunción de la articulación y el dolor, son manifestaciones clínicas provocadas por los sangrados recurrentes y tienen como consecuencia el desarrollo de artropatía hemofílica (AH).^{16,17}

En condiciones normales, ante un hemartros los sinoviocitos de la membrana sinovial y los macrófagos presentes en el plasma, captan y eliminan el hierro derivado del metabolismo sanguíneo en forma de hemosiderina, devolviendo la articulación a su estado original.¹⁸ Sin embargo, en PCH con sangrados repetitivos, la capacidad para captar y eliminar el hierro se ve desbordada, provocando una acumulación del mismo. Dicha acumulación induce una respuesta inflamatoria

mayor en la sinovial, liberándose citoquinas inflamatorias (IL-1 y IL-6 y TNF- α) y estimulándose la proliferación de fibroblastos.¹⁹ En consecuencia, la membrana sinovial se engrosa de forma irregular y se hipervasculariza.^{20,21}

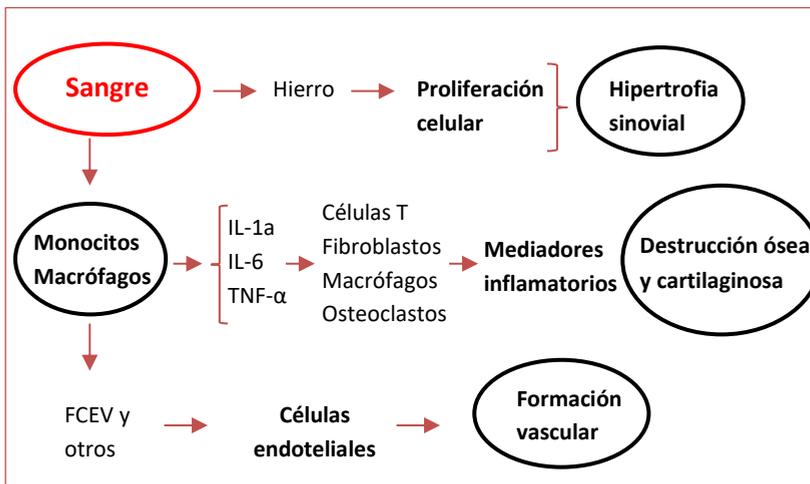
Este proceso tiene lugar por la angiogénesis derivada del aumento de los factores de crecimiento vasculares y de capilares frágiles, situación que persiste durante meses después del hemartros, haciendo la articulación más vulnerable a nuevas hemorragias.²² Dicho proceso desencadena un círculo vicioso, hemartros - hipertrofia sinovial – hemartros, que puede desembocar en una sinovitis crónica.^{23,24}

Por otro lado, recientes estudios confirman que una exposición prolongada del cartílago incluso a bajas concentraciones de sangre (10%) más de 2 días, ocasiona daños irreparables al mismo.^{25,26} Del mismo modo, las alteraciones óseas derivadas de los hemartros dan lugar a deformaciones articulares, limitaciones del rango articular, rigidez, atrofia muscular, inestabilidad y dolor (Figura 1).²⁷⁻²⁹ Todos estos procesos que sufre la articulación tras un sangrado se resumen en la Figura 2.

Las pruebas de imagen que pueden detectar los cambios estructurales mencionados son la resonancia magnética, la radiografía y la ecografía. Para cada una de ellas, existen escalas que ayudan a determinar el grado de AH como, la escala de *Pettersson* (radiografía)³⁰, la escala de *Denver* (resonancia magnética)³¹ y la escala *Haemophilia Early Arthropathy Detection- Ultrasound* (HEAD-US, ecografía)³².



Figura 1. Sinovitis crónica en rodilla izquierda (tomada de Efectos del entrenamiento acuático sobre parámetros de la condición física en pacientes hemofílicos. S. Perez-alenda, 2010) y AH (imagen propia).



FCEV: Factor de crecimiento endotelial vascular. IL: Interleucina. TNF: Factor de necrosis tumoral.

Figura 2. Esquema de la fisiopatología de la sinovitis y AH.

Si bien el estudio mediante pruebas de imagen es importante para el seguimiento de la AH, la principal utilidad de estas pruebas es la posibilidad que brindan al permitir, en el caso de la ecografía y la

resonancia magnética, la detección precoz del daño articular, favoreciendo un ajuste adecuado de los niveles de factor que eviten todo lo posible su desarrollo. También se utilizan escalas de valoración clínica, como la *Haemophilia Joint Health Score* (HJHS) para determinar el estado de la articulación y evaluar su evolución.^{33,34}

El otro 15-20% de los sangrados suelen ser intramusculares, principalmente en grupos musculares grandes y más expuestos, como los de las extremidades.⁴ Sus manifestaciones clínicas dan lugar a tumefacción o hinchazón por acumulación de sangre en los tejidos que, con relativa frecuencia, puede provocar limitaciones de la movilidad, opresión, aumento de la temperatura y cambio de coloración de la piel. Así mismo, puede derivar en un compromiso neurovascular, que es necesario tratar de forma inmediata para evitar pérdida de la función y daños irreversibles.³⁵ Otras complicaciones son la formación de pseudotumores o, en casos muy graves, el desarrollo de un síndrome compartimental.³⁶

1.3. TRATAMIENTO FARMACOLÓGICO

El objetivo terapéutico principal en la hemofilia es la prevención y el tratamiento de los diversos sangrados. En la actualidad, la administración del factor deficitario se realiza por vía intravenosa, bien en régimen de profilaxis o bien a demanda. Se considera a demanda la infusión del factor después de un sangrado con el fin de resolverlo, mientras que la profilaxis hace referencia a la administración del mismo de forma rutinaria, para prevenir los sangrados y sus complicaciones.¹¹

Existen tres modalidades de profilaxis³⁷:

- Profilaxis primaria: hace referencia al tratamiento iniciado antes de los 3 años y de la segunda hemorragia articular clínicamente evidente, con ausencia de daño articular.³⁸
- Profilaxis secundaria: el inicio del tratamiento tiene lugar después de dos o más sangrados intraarticulares, en pacientes mayores de 3 años, pero antes de la aparición de daño articular, determinado por exámenes físicos o pruebas de imagen.^{39,40}
- Profilaxis terciaria: comienza después de la confirmación de daño articular mediante examen físico y radiológico de las articulaciones afectadas. En esta modalidad se incluyen adolescentes o adultos que no iniciaron la profilaxis en edades tempranas.⁴

La dosificación, frecuencia y modo de administración del fármaco es específico para cada paciente, teniendo en cuenta el tipo de hemofilia, la severidad, el peso, la presencia de inhibidores, la actividad física y la farmacocinética.⁴¹ Esta última permite conocer la vida media del factor administrado, para ajustar su dosificación de forma efectiva y con menor coste económico.^{42,43}

Actualmente se han desarrollado y se están investigando nuevos tipos de tratamientos como:

- Tratamientos sustitutivos de vida larga media extendida de FVIII y FIX, donde las moléculas pueden tener una vida media plasmática de 1 a 3 veces mayor que los tratamientos

estándar. Esto ha supuesto un paso más en la optimización de la profilaxis, mejorando la protección y reduciendo las inyecciones intravenosas.^{44,45}

- Nuevas terapias no sustitutivas de administración subcutánea, que reducen el riesgo de padecer hemorragias tras la administración y favorecen una mayor adherencia al tratamiento. Este tipo de fármacos no contiene proteínas de FVIII o FIX, por lo que no provocan una respuesta inmunitaria específica. Así pues, tienen un efecto muy similar en pacientes con y sin inhibidores. Otra de sus características clave es que su acción es sustancialmente más larga y produce un efecto hemostático más estable.^{44,46-48}
- Terapia génica: tanto la HA como la HB son enfermedades monogénicas que pueden ser tratadas eficazmente mediante la administración de una copia sustitutiva de los genes F8 y F9. Actualmente se están estudiando los beneficios de este tipo de terapia.^{47,49,50}

No obstante, hoy en día el desarrollo de inhibidores al tratamiento es una de las complicaciones más serias en PCH. Tiene una prevalencia del 20-30% en los PCH A severa, del 5% en hemofilia B severa y porcentajes muy bajos en casos de hemofilia moderada.^{51,52} Se produce por el uso continuado del tratamiento, que da lugar a la aparición de anticuerpos (inhibidores), dificultando la función del factor inyectado y, por tanto, requiriendo dosis más elevadas.^{53,54} Esta respuesta inmune compleja y multifactorial tiene un mayor riesgo de desarrollo durante los primeros 20 días de exposición al tratamiento.⁵⁵

Como consecuencia, el riesgo de padecer sangrados graves y de desarrollar artropatía de forma precoz es mayor.⁵¹ Aun así, este problema con los inhibidores se está minimizando gracias a los nuevos tratamientos con anticuerpos monoclonales.⁵⁶

En general, los sangrados, sus repercusiones musculoesqueléticas, las asistencias al hospital, las ausencias laborales o escolares y la presencia de inhibidores u otras comorbilidades, tienen un impacto negativo en la calidad de vida y la funcionalidad de los PCH.⁵⁷

En estos casos, el tratamiento farmacológico con una buena dosificación y adecuada adherencia permite mejorar esta situación. Es por eso que, en los últimos años ha habido un incremento en el uso del tratamiento en su modalidad de profilaxis y se está iniciando en edades más tempranas.⁵⁸

1.4. TRATAMIENTO FISIOTERÁPICO EN PACIENTES CON HEMOFILIA

La fisioterapia desempeña un papel fundamental en la prevención y rehabilitación de las hemorragias articulares y musculares, además de ser un componente clave en la atención integral de la salud de los PCH.⁵⁹ En general, la actuación de los fisioterapeutas está encaminada a prevenir y mitigar el impacto de la enfermedad sobre su funcionalidad en las actividades de la vida diaria y mantener una óptima calidad de vida.⁵⁹

Así pues, la Federación Mundial de Hemofilia recomienda, para reducir la frecuencia de sangrados, una terapia sustitutiva regular en combinación con una fisioterapia destinada a preservar la fuerza

muscular y la capacidad funcional, con el objetivo de prevenir y tratar la AH.⁴

Entre las técnicas de fisioterapia empleadas para la prevención y tratamiento de la AH que han demostrado ser efectivas son la electroterapia, la terapia manual, la crioterapia, la terapia miofascial, los estiramientos pasivos y la cinesiterapia. Aunque, entre ellas, destaca el ejercicio físico terapéutico, individualizado y pautado por el fisioterapeuta, por tener un mayor efecto positivo en su salud.⁶⁰⁻⁶⁵

El ejercicio físico se empezó a recomendar en los PCH para evitar la inactividad y todas sus consecuencias como el sedentarismo, la obesidad, la disfunción muscular, el aumento del daño articular, de los sangrados y de los cambios biomecánicos de la marcha y del equilibrio.^{4,60,64-66} Gracias a las investigaciones científicas, se ha demostrado que el ejercicio físico, junto con un buen tratamiento farmacológico, es esencial para mejorar la salud y calidad de vida de los PCH.^{60,64,65,67} Además, se ha demostrado en la población general que actúa como una polipíldora gracias a todos los efectos positivos que desarrolla a nivel multisistémico (sistema cardiovascular, circulatorio, respiratorio, musculoesquelético, metabólico, psicológico, etc.), con mínimas consecuencias adversas y un bajo coste.^{68,69} Así pues, los PCH obtienen las ventajas generales y específicas del ejercicio físico, como se muestra en la Tabla 1.^{60,65,66}

Es de suma importancia que los PCH realicen el ejercicio físico con seguridad. Para ello, es fundamental que cumplan adecuadamente con el tratamiento farmacológico pautado por el hematólogo, así como hacer coincidir los días de profilaxis o, hasta 24 horas después

Introducción

de la infusión⁶⁵, la práctica del mismo. Otro punto importante es adecuar el tipo de ejercicio, la intensidad y la frecuencia, de manera individualizada a cada paciente.⁷⁰ De este modo, la adherencia al ejercicio será mayor y, por tanto, podrán beneficiarse de todos sus efectos positivos.^{4,71}

Tabla 1. Beneficios generales y específicos del ejercicio físico para los pacientes con hemofilia.

Beneficios generales
Protección contra enfermedades cardiovasculares y contra enfermedades crónicas.
Reducción del riesgo de trombosis con o sin historia de accidente cerebro vascular.
Previene la obesidad y otras enfermedades metabólicas.
Promueve la salud de los tejidos y disminuye el riesgo de padecer osteoporosis.
Es un normo regulador hormonal.
Ayuda a mejorar la salud mental en patologías como la depresión, la ansiedad o la fatiga.
Disminuye la morbilidad y mortalidad

Beneficios específicos
Previene la atrofia, mejorando la fuerza muscular y aumentando la protección articular disminuyendo el riesgo de sangrados.
Previene la rigidez articular.
Ayuda a mantener el rango articular.
Disminuye el dolor.
Reduce el riesgo de caídas.
Ayuda a mejorar el equilibrio y la coordinación.

Los estudios en el ámbito de la fisioterapia han proporcionado grandes avances con respecto al ejercicio y la hemofilia. Así pues, se recomienda en PCH la realización de ejercicio físico en el agua, ya que el efecto de flotabilidad provoca una disminución del dolor y de cargas en las articulaciones, posibilitando una mayor movilidad de estas y un aumento de la actividad.^{72,73} Del mismo modo, los ejercicios aeróbicos de bajo impacto, como el ciclismo, la bicicleta estática, la elíptica o caminar, son aconsejables de realizar por la baja probabilidad de sangrado que tienen y los beneficios cardiovasculares y músculo-esqueléticos que les aportan.⁷⁴ Por otro lado, se ha demostrado que los ejercicios de fuerza son altamente beneficiosos para los PCH tanto si se hacen con lastres o gomas elásticas.^{75,76} Además, el trabajo de la fuerza, combinado con ejercicios de resistencia y equilibrio ayuda a mejorar la estabilidad articular en los PCH, reduciendo así el riesgo de lesión, caídas y sangrados.⁷⁷

En la revisión sistemática de Kennedy *et al.*⁷⁸, se observa cómo a lo largo de los últimos años, gracias a los avances en los tratamientos farmacológicos, ha ido aumentando el nivel de actividad física de los PCH, sobre todo de aquellos con hemofilia grave. También se describe un aumento de la actividad física y la participación en distintos deportes entre los jóvenes.⁷⁸ Sin embargo, según Goto *et al.*⁷⁹ el 80% de los participantes adultos no realizan de forma rutinaria actividad física de intensidad moderada o vigorosa, además de que el tiempo medio de aquellos que sí practican este tipo de actividad física, está por debajo del nivel recomendado por la OMS (ejercicio aeróbico moderado 150 min/semana y ejercicio aeróbico intenso 75

min/semana).^{79,80} Resultados similares se observan en el artículo de Putz *et al.*⁸¹ donde se compara la cantidad de actividad física moderada o vigorosa realizada por pacientes adultos con hemofilia y pacientes sanos. En sus resultados, la media de sesiones de actividad física (de al menos 10 minutos de duración) de los PCH, es de unos 35 minutos a la semana con una intensidad moderada, lo que resulta significativamente más bajo que en pacientes sanos, además de no llegar al nivel mínimo recomendado por la OMS para este tipo de actividad.^{80,81}

Así pues, a pesar de que en los últimos años se está consiguiendo un aumento de la realización de ejercicio físico en esta población gracias a la mejora del tratamiento, tanto farmacológico como de fisioterapia,^{78,82-84} en general los pacientes no cumplen con los mínimos recomendados de actividad física.

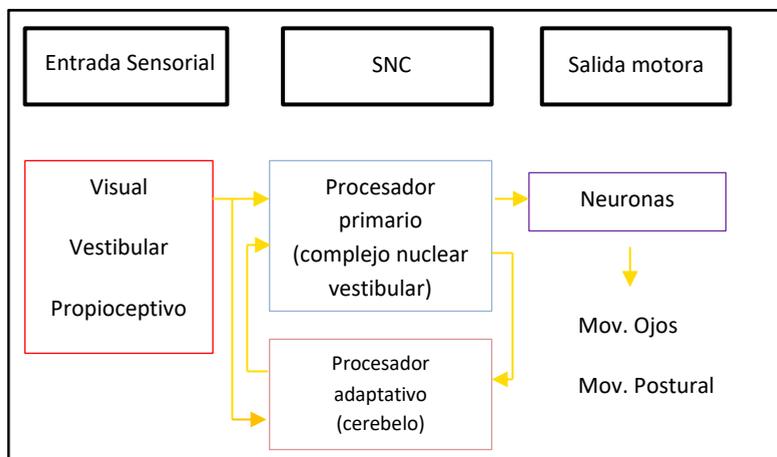
1.5. EL EQUILIBRIO Y EL CONTROL POSTURAL EN PACIENTES CON HEMOFILIA

La facultad de mantener el equilibrio, tanto estático como dinámico, precisa de la actuación coordinada de diferentes sistemas sensoriales (*i.e.* vestibular, visual, somatosensorial), en conjunto con el sistema nervioso central y los arcos reflejos musculoesqueléticos implicados (Figura 3).⁸⁵

El desarrollo y activación de los sistemas sensoriales para mantener el equilibrio, se produce con la percepción del movimiento externo, es decir, de los objetos del entorno (sistema visual) y la percepción del

movimiento interno, que hace referencia al movimiento de los ojos, cabeza o cuerpo (sistema vestibular, visual y somatosensorial).⁸⁶

Así pues, la capacidad de mantener el equilibrio está relacionada con la posición del centro de gravedad (CDG) y el área de la base de sustentación (BDS).⁸⁷ Los mecanismos que utiliza el cuerpo para mantener el equilibrio pueden ser compensatorios, anticipatorios o una combinación de ambos.^{85,87-88} Estas respuestas se pueden dar tanto en el equilibrio estático como en el dinámico.



SNC: sistema nervioso central. Mov: movimiento.

Figura 3. Esquema sobre la actuación de los diferentes sistemas durante el equilibrio. Adaptada de P. Yim Chiplus⁸⁵

Las estrategias del cuerpo para recuperar el equilibrio estático son: i) la estrategia de tobillo, donde el cuerpo se mueve sobre el tobillo como un péndulo invertido flexible. Este movimiento ayuda a mantener el equilibrio en el caso de pequeñas oscilaciones cuando se está de pie en una superficie firme y ii) la estrategia de la cadera, donde el cuerpo ejerce un movimiento de flexión en las caderas para

mover rápidamente el CDG del cuerpo. Se utiliza cuando las personas están de pie en superficies estrechas o que no permiten una adecuada torsión de tobillo, o cuando el CDG debe moverse rápidamente.^{88,89}

Por otro lado, para el equilibrio dinámico se utiliza la estrategia del paso, la cual implica un cambio en la BDS. Es bastante habitual recuperar el equilibrio dando un paso, sobre todo durante la marcha. Sin embargo, incluso cuando las personas dan un paso en respuesta a una perturbación externa, primero intentan volver a la posición inicial con la estrategia de tobillo.⁹⁰

Dentro de los tres sistemas sensoriales, el somatosensorial es el que recibe los estímulos generados para mantener el equilibrio mediante los propioceptores, los cuales se sitúan en los músculos y las articulaciones. Los propioceptores suministran información acerca de la posición de las articulaciones, de la actividad muscular y de la orientación del cuerpo en el espacio. Los receptores más importantes son los husos musculares y los receptores tendinosos de Golgi.⁹¹⁻⁹³

Los estímulos propioceptivos desempeñan un papel fundamental en el control postural, debido al menor umbral propioceptivo que tienen en la percepción del balanceo del cuerpo durante la bipedestación en comparación con los sistemas visual y vestibular. Además, al principio de una caída, las personas se preparan para el impacto, basándose en la información sensorial, que sería principalmente de origen propioceptivo. Esto quiere decir, que las alteraciones de las señales propioceptivas, probablemente aumenten el riesgo de caídas e impidan la capacidad de reducir las lesiones relacionadas.^{94,95}

En la investigación de Lephart *et al.*⁹⁶, se percibió que las personas con lesiones en la cápsula articular, ligamentos o estructura ósea, desarrollaban una degeneración articular que daba lugar a una alteración de la propiocepción y en consecuencia del equilibrio. Asimismo, Kim *et al.*⁹⁷ afirmaron que el rango articular del tobillo y la fuerza de miembros inferiores estaban directamente relacionados con el equilibrio estático y el control postural. Así pues, en los PCH que, tras diversos hemartros en tobillos y rodillas padecen alteraciones musculoesqueléticas, es lógico pensar que su propiocepción, equilibrio y control postural estén afectados.

Actualmente, esto se puede confirmar en distintas investigaciones, entre ellas la de Hilberg *et al.*⁹⁸, en la cual se observó cómo los pacientes adultos con hemofilia presentaban una alteración de la propiocepción estática en comparación con personas sanas. Del mismo modo, Fearn *et al.*⁹⁹ determinaron que los PCH tienen un deterioro moderado del equilibrio, así como una mayor tasa de caídas en comparación con personas sanas. Investigaciones más recientes, han demostrado como en los PCH la alteración de la propiocepción afectaba a la automaticidad del control postural^{100,101}, además de que presentan un menor rendimiento para controlar su postura durante las tareas duales en comparación con personas sanas.¹⁰²

Por otro lado, la alteración en los tobillos es uno de los aspectos que provoca este aumento de inestabilidad y riesgo de caídas en los PCH. La artropatía en los tobillos provoca que durante la marcha o equilibrio sea necesario un trabajo adicional de otras articulaciones y estrategias para estabilizarse y mantener el control postural ante una

perturbación externa.¹⁰³ De forma similar, la falta de fuerza en los músculos de los miembros inferiores y de la zona del tronco afectan al control del equilibrio y a la estabilidad.¹⁰⁴ Por todo ello, trabajar la fuerza muscular junto al trabajo del equilibrio es de suma importancia en los PCH.^{64,105}

También es importante señalar que una reciente revisión sistemática sobre el efecto del ejercicio físico en el equilibrio de los PCH¹⁰⁶ pone de manifiesto que los resultados de los estudios realizados en adultos no muestran datos consistentes. Las investigaciones de Hilberg *et al.*¹⁰⁷ y Goto *et al.*¹⁰⁸ en los que se valora el efecto de un programa de ejercicios que incluyen el equilibrio estático en adultos con hemofilia, muestran mejoras estadísticamente significativas en el equilibrio estático. Sin embargo, en estudios como el de Hill *et al.*¹⁰⁹, Czepa *et al.*¹¹⁰ y Boccalandro *et al.*¹¹¹ en los cuales también se trabaja el equilibrio estático mediante un programa de ejercicios, no se observa ningún cambio estadísticamente significativo.

1.6. JUSTIFICACIÓN

Así pues, a la vista de los resultados obtenidos en investigaciones previas, todavía no hay una clara evidencia sobre cuál es el tipo de programa y los ejercicios más adecuados para mejorar el equilibrio en esta población. Además, los estudios mencionados anteriormente se han centrado solamente en el trabajo y la valoración del equilibrio estático, pero no han investigado sobre el equilibrio dinámico ni sobre ejercicios de equilibrio con tareas duales asociadas, así como tampoco en su evaluación, dada su importante repercusión en el riesgo de

caídas. Por otro lado, también son muy escasos los estudios que realizan una descripción precisa del protocolo de ejercicios utilizado. Y tampoco nos consta que se hayan investigado protocolos de ejercicio de equilibrio combinados con ejercicios de fortalecimiento de la musculatura de miembros inferiores.

Por todo ello, se propone el presente estudio, que ofrece un protocolo detallado de intervención basado en la combinación de un protocolo individualizado de ejercicios para el equilibrio, en el que se trabaja tanto el equilibrio estático, como dinámico y con tareas duales, unido a un entrenamiento de fuerza muscular, con el objetivo principal de mejorar el equilibrio en los PCH y con ello su funcionalidad, calidad de vida o riesgo de caídas.

1.7. HIPÓTESIS

En base a todo lo expuesto anteriormente, la hipótesis de la presente tesis doctoral es que, la aplicación de un programa multimodal de ejercicios de equilibrio que combina equilibrio estático, dinámico y tareas duales, unido al entrenamiento de la fuerza de miembros inferiores en PCH, mejorará el equilibrio, la funcionalidad, la calidad de vida y la fuerza, además de que, disminuirá el riesgo de caídas, la kinesiophobia y el dolor. Para comprobar la veracidad de esta hipótesis se han planteado los objetivos expuestos a continuación.

1.8. OBJETIVOS

El objetivo principal en el presente estudio es evaluar la efectividad de un programa multimodal de ejercicios de equilibrio que combina

equilibrio estático, dinámico y tareas duales, unido al entrenamiento de la fuerza de miembros inferiores, en la mejora del equilibrio, en PCH.

Los objetivos secundarios son:

1. Examinar la efectividad del programa multimodal de ejercicios de equilibrio y fuerza sobre la funcionalidad en PCH.
2. Conocer la efectividad del programa multimodal de ejercicios de equilibrio y fuerza sobre el riesgo de caídas en PCH.
3. Estudiar la efectividad del programa multimodal de ejercicios de equilibrio y fuerza sobre la fuerza de los PCH.
4. Examinar la efectividad del programa multimodal de ejercicios de equilibrio y fuerza sobre la kinesiofobia de los PCH.
5. Determinar la efectividad del programa multimodal de ejercicios de equilibrio y fuerza sobre la calidad de vida de PCH.
6. Analizar la efectividad del programa multimodal de ejercicios de equilibrio y fuerza sobre el dolor de los PCH.
7. Analizar la satisfacción del programa multimodal de ejercicios de equilibrio y fuerza, así como el deseo de hacer ejercicio.

2.MATERIAL Y MÉTODOS

2.1. DISEÑO

El presente estudio es un ensayo clínico controlado y simple ciego, con un grupo control (GC) y un grupo experimental (GE). La fase experimental del estudio tuvo lugar desde septiembre de 2019 hasta abril de 2021 en la Facultat de Fisioteràpia de la Universitat de València, Valencia (España).

El estudio recibió la aprobación del Comité de Ética de Investigación en Humanos de la Universitat de València con el número de registro H20190326180948 (Anexo 1) y fue registrado prospectivamente en www.ClinicalTrials.gov (NCT04122014). Todos los participantes fueron informados del estudio, así como de que podían abandonarlo en cualquier momento y sin necesidad de dar explicaciones. Todos firmaron el consentimiento por escrito el mismo día que se hizo la evaluación inicial (Anexo 2). Para garantizar la confidencialidad de los participantes los datos fueron seudonimizados.

2.2. SUJETOS

Se realizó un análisis de potencia *a priori* en el programa informático G*Power (versión 3.1.9.2) para calcular el tamaño de la muestra necesario. Con el diseño del presente estudio, aceptando un riesgo alfa del 5% ($\alpha=0,05$), un riesgo beta del 20% ($\beta=0,2$) y asumiendo al menos un tamaño del efecto medio ($f=0,35$, $d=0,7$) para las variables de equilibrio, se estimó un mínimo de 20 sujetos.

Los criterios de inclusión fueron los siguientes: i) pacientes diagnosticados de hemofilia A o B, ii) edad entre 18 y 60 años, iii) con

cobertura hemostática supervisada por el hematólogo, iv) disponibilidad para realizar ejercicio dos veces por semana durante el programa y completar las evaluaciones previas y posteriores al mismo, v) aprobación por parte del hematólogo para la participación en el programa de ejercicios, vi) no comenzar un programa nuevo de ejercicio o practicar un nuevo deporte durante el estudio y vii) consentimiento informado firmado.

Los criterios de exclusión que se tuvieron en cuenta fueron: i) alteraciones cognitivas que dificultaran la realización de los ejercicios, ii) cirugías realizadas 6 meses antes o durante el programa de ejercicios, iii) un episodio de sangrado en miembros inferiores en los tres últimos meses, iv) un episodio de sangrado mayor que representara un riesgo o impidiera el ejercicio durante el programa, v) necesidad de una cirugía mayor, vi) sufrir de mareos y vértigos y vii) que la hemofilia fuera adquirida.

2.3. PROCEDIMIENTO GENERAL

Todos los participantes de este estudio procedían de la Unidad de Hemostasia y Trombosis (UHT) del Hospital Universitario y Politécnico La Fe de Valencia, Valencia, España. De los 32 sujetos con los que se contactó, 23 accedieron a participar. Una vez se les informó de los objetivos, la metodología del estudio, los beneficios y los posibles riesgos, firmaron el documento de consentimiento informado.

Teniendo en cuenta su disponibilidad, se les dividió en un GC y GE logrando la participación de los 23 (muestreo por conveniencia). Los sujetos del GE realizaron un programa de ejercicios de equilibrio y

fuerza, mientras que los del GC continuaron con sus actividades del día a día.

La estructura del estudio se muestra en el cronograma que se presenta en la Figura 4. El protocolo tuvo una duración de 12 semanas. Las mediciones se llevaron a cabo en dos momentos temporales: al inicio del estudio y al final del estudio (semana 12). Las dos sesiones de entrenamiento semanal se hicieron coincidir con los días de infusión de la profilaxis, o máximo tras 24 horas desde la última administración del factor, a los participantes con tratamiento sustitutivo. En el caso de que sucediera un episodio hemorrágico, se acordó que se detendría el entrenamiento y se retomaría tras la recuperación total del sangrado y el alta por parte del hematólogo.

Se repartió a los participantes del GE en 4 grupos de entre 2 a 4 personas, de forma que las sesiones fueran grupales. Los entrenamientos se hicieron en los laboratorios de la *Facultat de Fisioteràpia* de la *Universitat de València*. Debido a la cuarentena acontecida por la pandemia por COVID-19 en marzo de 2020, se suspendieron los entrenamientos que se estaban realizando en aquel momento. Para poder retomarlos en septiembre de 2020, se tuvieron que reducir los grupos de entrenamiento a máximo dos personas, siguiendo todas las normas de seguridad durante la realización del mismo: llevar puesta una mascarilla FFP2 o quirúrgica, utilizar gel hidroalcohólico en las manos antes de entrar al laboratorio, respetar distancias de 2 metros, mantener las ventanas abiertas, usar material individualizado, así como la desinfección del material y de la sala.

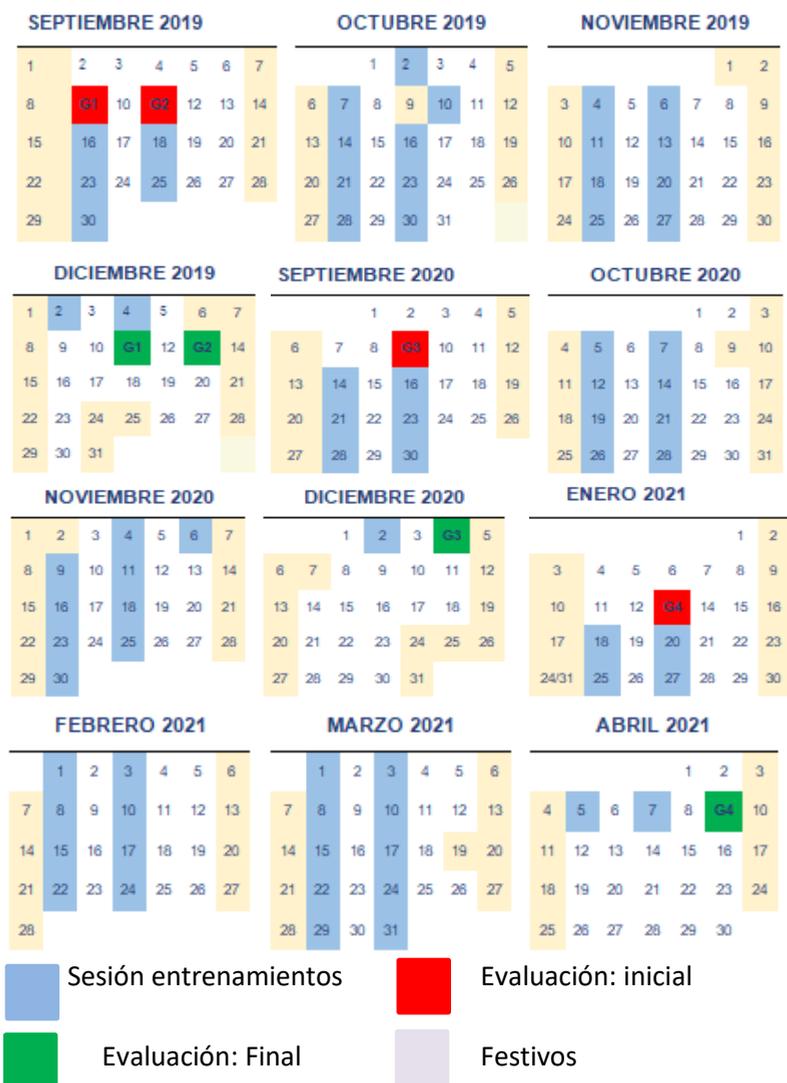


Figura 4. Cronograma con planificación de evaluaciones y las sesiones de entrenamiento (G1-G4: Grupos de entrenamiento).

2.4. INTERVENCIÓN

El programa de ejercicios consistió en dos sesiones de entrenamiento semanales de 60-90 min de duración, todas ellas supervisadas por un fisioterapeuta y durante 12 semanas.

En los entrenamientos la fisioterapeuta enseñaba los ejercicios, corregía los posibles errores, los adaptaba según las limitaciones de los pacientes y revisaba la intensidad del entrenamiento, aumentándola o disminuyéndola en función de la escala de percepción subjetiva del esfuerzo OMNI.¹¹² Además, la fisioterapeuta utilizaba una hoja de registro con cada uno de los sujetos, donde apuntaba los días que venían a entrenar, los ejercicios que realizaban con el volumen de trabajo de cada día, el índice de esfuerzo percibido (RPE, de sus siglas en inglés) de cada sesión y observaciones.

El programa de ejercicios constó de tres partes: el calentamiento, una parte principal y una parte final de estiramientos.

La fase de calentamiento duraba unos 10 minutos y consistía en realizar una serie de ejercicios de movilidad articular de miembros inferiores, columna y miembros superiores como se muestra en la Figura 5. Se realizaron 10 repeticiones de movilidad articular en ambas direcciones excepto en la movilidad del cuello, que consistió en 4 repeticiones de cada ejercicio.

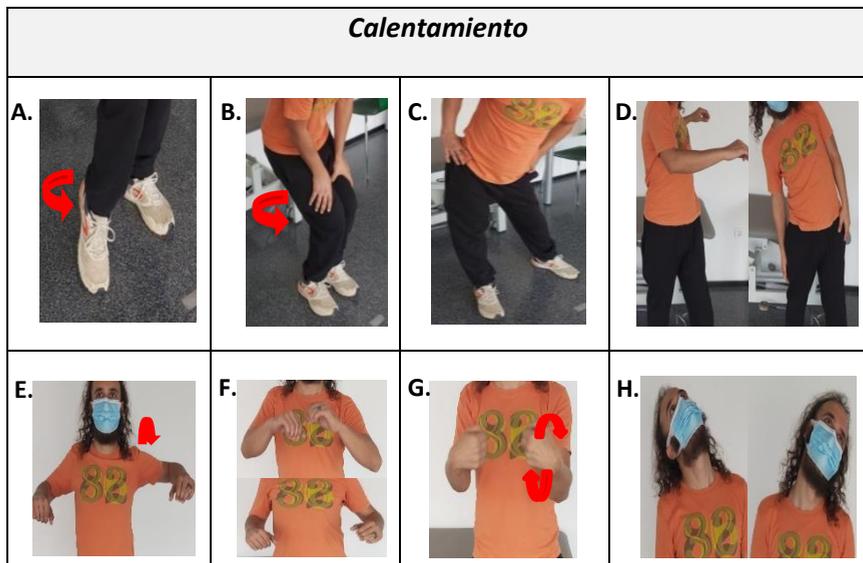


Figura 5. Secuencia de ejercicios de calentamiento. A) círculo tobillos, B) círculo rodillas, C) círculo caderas, D) giro tronco e inclinaciones, E) círculos de hombros, F) Flexión/extensión codos, G) círculos muñecas y H) círculos cuello.

La parte principal de la sesión constaba de un bloque de ejercicios de equilibrio y un bloque de ejercicios de fortalecimiento. Los ejercicios de equilibrio eran de tres tipos: equilibrio estático, equilibrio dinámico y con tarea dual cognitiva. Este bloque lo formaban 6 ejercicios que se realizaban durante 35 minutos aproximadamente. El bloque de fortalecimiento lo formaban 4 ejercicios con una duración aproximada de 20 minutos.

Para los ejercicios de equilibrio se realizaban 3 series de 30 segundos, con descansos de un minuto entre cada ejercicio y de 30 segundos entre series.

De forma progresiva, la cantidad de ejercicios de equilibrio de cada uno de estos tres tipos (estático, dinámico y con tarea dual) iba variando según avanzaban las semanas, tal y como se observa en la Tabla 2. Los ejercicios de equilibrio estáticos y dinámicos que se realizaron durante el programa se explican en la Figura 6.

Tabla 2. Progresión número de ejercicios según el tipo de equilibrio y semana.

Progresión de los ejercicios de equilibrio			
Semana	Equilibrio estático	Equilibrio dinámico	Tareas duales
1-2	4 ejercicios	2 ejercicios	
3-6	3 ejercicios	2 ejercicios	1 ejercicio
7-10	2 ejercicios	3 ejercicios	1 ejercicio
10-12	1 ejercicios	3 ejercicios	2 ejercicios

La tarea dual cognitiva consistía en restar, desde un número alto al azar, de tres en tres en voz alta mientras mantenían el equilibrio. En este caso para aumentar la dificultad podíamos o cambiar la regresión (ej. En lugar de tres en tres, de cinco en cinco) o bien cambiar la posición en la que hacía la tarea dual cognitiva (Tabla 3).

La progresión en dificultad de los ejercicios de equilibrio en cada una de sus modalidades era distinta según los ejercicios, los sujetos y su RPE. Además, dependiendo de los sujetos, se podían combinar dos progresiones a la vez en un ejercicio (ej. posición en tándem con ojos cerrados y moviendo brazos, monopodal con foam y movimiento de la pierna elevada, etc.) (Tabla 3).



Figura 6. Ejercicios de equilibrio estático y dinámico. A) cambios de peso AP, ML y diagonales, B) pierna adelante y atrás o semi-tándem, C) tándem, D) monopodal aguantando la posición, E) puntillas y talones, F) tándem en el sitio moviendo un pie adelante y atrás G) caminar, H) caminar en tándem y I) step subir y bajar por el mismo lado o lado contrario.

Tabla 3. Progresión en dificultad ejercicios de equilibrio estático, dinámico y tarea dual cognitiva.

Equilibrio estático y dinámico
<ul style="list-style-type: none"> - Con/sin apoyos físicos (mesa/silla) o visuales (espejo). - Cambiar la anchura entre los pies. - Cambios de peso. - Cambiar la distancia (punta-talón) entre los pies (semi-tándem/tándem). - Cambiar posición brazos: abiertos, a lo largo del tronco, cruzados en el pecho. - Rotación de cabeza y/o tronco. <ul style="list-style-type: none"> • Cambiar el tiempo que mantiene la rotación de cabeza y/o rotación de tronco en cada lado. - Movimientos de brazos. <ul style="list-style-type: none"> • Cambiar la amplitud del movimiento. • Pedir seguimiento visual del movimiento. • Con pelota. • Lanzar pelota. - Con ojos cerrados. - Con suelo inestable (foam). - Con empujes. - Monopodal: moviendo la pierna que está elevada (A-P, M-L).
Equilibrio Dinámico
<ul style="list-style-type: none"> - Caminar con curvas y cambios de dirección. - Caminar con obstáculos. - Cambiar la altura del step.
Tarea dual cognitiva
<ul style="list-style-type: none"> - Cambiar la regresión. - Posición tándem o semi-tándem. - Monopodal. - Con ojos cerrados. - Con suelo inestable.

A-P: anterior-posterior; M-L: medial-lateral.

En el bloque de entrenamiento de la fuerza se trabajó principalmente la musculatura de los miembros inferiores (glúteo mayor y medio, cuádriceps, isquiotibiales, aductores, tríceps sural, tibial anterior y

músculos peroneos) y los abdominales, ya que son músculos que influyen en la estabilidad¹⁰⁴ (Figura 7).

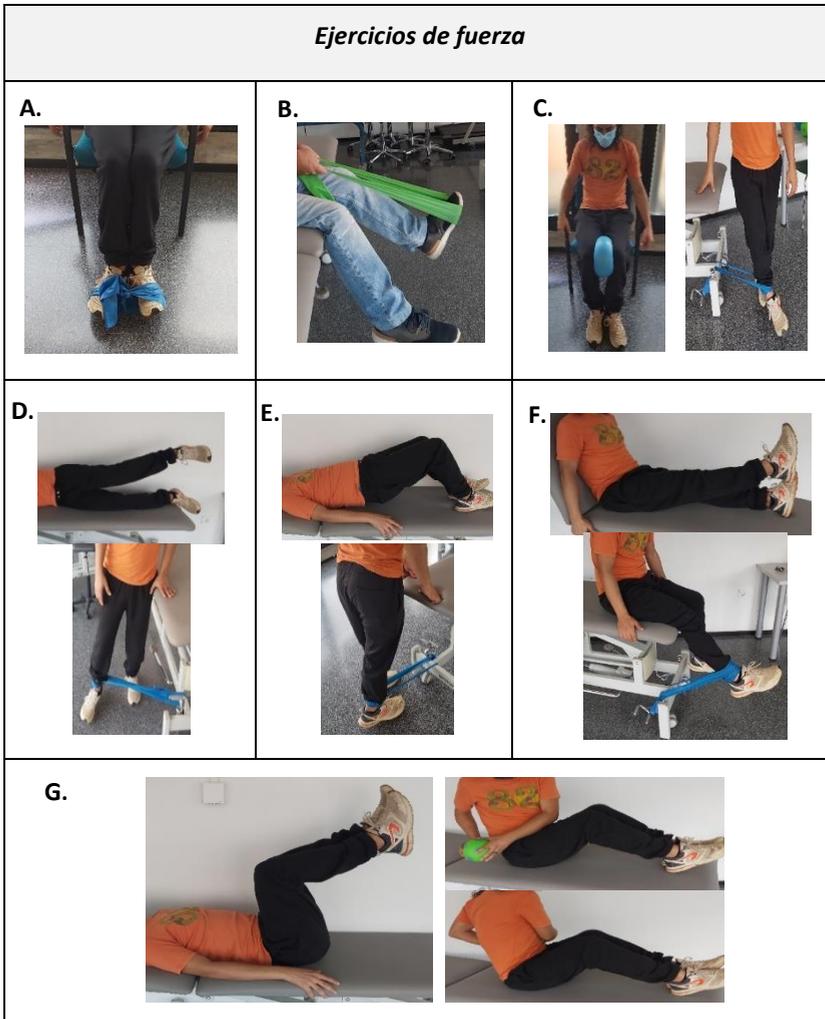


Figura 7. Ejercicios de fuerza. A) Eversión de tobillos isométricos, B) flexión-extensión tobillo: isométrico o con banda elástica (BE), C) aducción de piernas: isométrico o con BE, D) abducción pierna: decúbito lateral o con BE, E) glúteo: puente glúteo o de pie con BE, F) cuádriceps: isométrico o con BE y G) abdominales: isométrico con posición en caja y oblicuos.

Los ejercicios de fuerza comenzaron con 3 series de entre 8 y 10 repeticiones, con un descanso de un minuto entre cada ejercicio y 30 segundos entre series. La progresión de los ejercicios de fuerza se estableció en base a si los ejercicios eran isométricos, concéntricos contra gravedad o con bandas elásticas de diferentes resistencias (*TheraBand® Resistance Bands*).

En cuanto a la progresión en la intensidad en el bloque de fuerza, a medida los sujetos podían realizar más repeticiones de las requeridas durante tres sesiones seguidas se aumentaban las repeticiones o la dificultad del ejercicio según el RPE.

El nivel de esfuerzo se dosificó en función de la puntuación en la escala RPE obtenida mediante la escala OMNI para el control de la intensidad global en sesiones de objetivos múltiple en personas mayores (OMNI-GSE) (Figura 8). Esta escala también se puede aplicar en personas con fibromialgia, sedentarias o con poca experiencia haciendo ejercicio físico.¹¹³

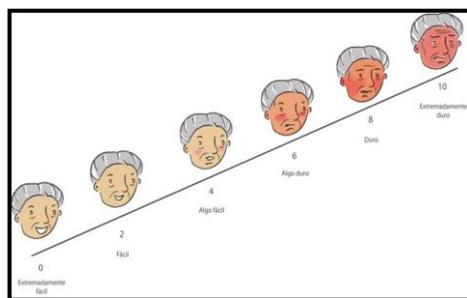


Figura 8. Escala OMNI-GSE esfuerzo percibido para sesiones con objetivos múltiples en personas mayores.

La escala OMNI se compone de una gráfica en la que se observan unos pictogramas de una persona mostrando la expresión que podrían

tener cuando realizan esfuerzos físicos a diferentes intensidades, con valores del 0 al 10. Siendo 0 una ausencia del esfuerzo durante el ejercicio permitiendo su realización de forma continua y 10 un nivel de esfuerzo extremadamente duro que apenas permite terminar el ejercicio.

La escala también incluye explicaciones escritas de la sensación de esfuerzo asociada a cada cara y número (i.e. extremadamente fácil para el 0, fácil para el 2, algo fácil para el 4, algo duro para el 6, duro para el 8 y extremadamente duro para el 10).

En el caso de aparecer algún problema muscular o articular en miembros inferiores, la intensidad se restablecía en valores de 3-4 RPE y se comenzaba de nuevo con la progresión. En el momento en que, según su RPE era necesario utilizar las bandas elásticas, estas se incorporaban de forma aislada con la siguiente progresión: banda amarilla, verde y azul (Tabla 4).

Tabla 4. Equivalencia bandas elásticas con peso y resistencia.

Color banda elástica	Nivel de resistencia	Peso
Amarillo	Extra suaves	0,5-3kg
Verde	Ligera-Media	1-4,5kg
Azul	Media	1,5-6kg

A modo de resumen, en la Tabla 5, se muestra la dosificación de la carga del entrenamiento de fuerza junto con la dosificación del entrenamiento de equilibrio por semanas en función de la RPE, series, repeticiones y tiempo.

Tabla 5. Dosificación del entrenamiento de fuerza y equilibrio por semanas en función del RPE, series, repeticiones y tiempo.

TRABAJO DE FUERZA			TRABAJO EQUILIBRIO	
Sem.	Nivel de intensidad (OMNI-GSE)	Series x nº de repeticiones/descanso	Nivel de intensidad (OMNI-GSE)	Series x duración/descanso
1	3-4	3x10/1'	3-4	3x30''/1'
2	3-4	3x10/1'	3-4	3x30''/1'
3	4-5	3x10/1'	4-5	3x30''/1'
4	4-5	3x10/1'	4-5	3x30''/1'
5	4-5	3x12/1'	4-5	3x30''/1'
6	4-5	3x12/1'	4-5	3x30''/1'
7	5-6	3x12/1'	5-6	3x30''/1'
8	5-6	3x12/1'	5-6	3x30''/1'
9	5-6	3x12/1'	5-6	3x30''/1'
10	5-6	3x12/1'	5-6	3x30''/1'
11	6-7	3x15/1'	6-7	3x30''/1'
12	6-7	3x15/1'	6-7	3x30''/1'

Sem.: Semana; ‘: minuto; ‘’: segundo; Nº; Número; OMNI-GSE: Escala de esfuerzo percibido para sesiones con objetivos múltiples en personas mayores.

La fase de enfriamiento se compuso de estiramientos de los miembros inferiores principalmente (isquiotibiales, glúteo mayor, lumbares, aductores, tríceps sural y cuello) y duraba unos 5 minutos. La secuencia de estiramientos se muestra en la Figura 9. Cada uno de ellos se mantuvo 15 segundos y se repitió dos veces.

Si tras la finalización del entrenamiento completo aparecía alguna molestia musculoesquelética que perduraba durante el día, en la siguiente jornada se reducía la intensidad de los ejercicios.

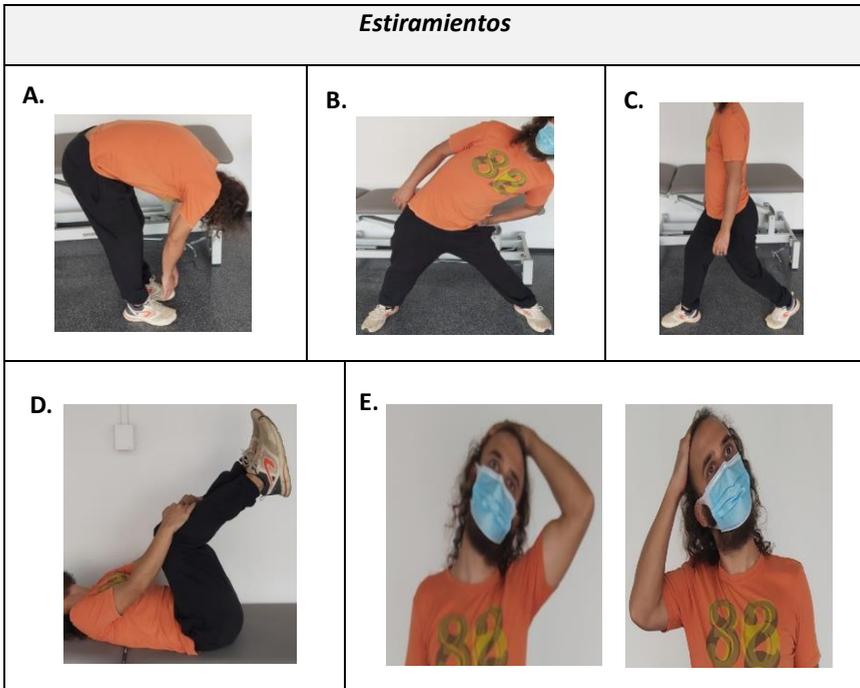


Figura 9. Tabla de estiramientos. A) parte posterior piernas, B) aductores, C) psoas y tríceps sural, D) glúteo mayor y lumbar y E) cuello.

2.5. VARIABLES DEL ESTUDIO

La variable principal fue el equilibrio. Las variables secundarias fueron la funcionalidad, el riesgo de caídas, la fuerza, la kinesiofobia, la calidad de vida y el dolor. Además, como variable secundaria solo para el GE, se evaluó la satisfacción con el programa multimodal de ejercicios y el deseo de hacer ejercicio.

Las medidas de resultados se llevaron a cabo en dos tiempos: a nivel basal (semana 0) y al final del programa de ejercicios (semana 12), excepto la satisfacción y motivación del programa que solo fueron evaluadas al final. Las mediciones fueron realizadas por un evaluador ciego entrenado en este tipo de valoraciones.

En la evaluación basal se tomaron datos demográficos y clínicos como la edad, altura, peso, IMC, tipo de hemofilia, severidad, tipo de tratamiento, así como el régimen de profilaxis y la salud articular. Esta última se evaluó con la escala *Hemophilia Joint Health Score 2.1* (HJHS). El HJHS es una escala que mide el estado de la salud estructural de las articulaciones que más frecuentemente sufren sangrados (tobillos, rodillas y codos), especialmente utilizada para detectar de forma precoz el daño articular y para monitorizar su evolución a lo largo del tiempo.^{34,114} La puntuación va de 0-20 por cada articulación, donde una mayor puntuación refleja una mayor afectación articular. La HJHS ha demostrado tener una buena repetibilidad y reproducibilidad interna.

A continuación, se describen las variables del estudio, así como las escalas y test empleados para su medición.

2.5.1. Equilibrio

El equilibrio fue evaluado mediante la plataforma WBB® (Nintendo, Kyoto, Japan) y la NedSVE/IBV, las cuales registraban los resultados de cada prueba en un ordenador. La WBB® tiene una buena fiabilidad (ICC= 0,70-0,99) para evaluar el equilibrio en personas mayores sanas o con una patología¹¹⁵⁻¹¹⁹ y se caracteriza por ser portátil, económica y

de fácil uso.¹²⁰ La NedSVE/IBV es una plataforma en la cual se valora y se efectúa la rehabilitación de patologías de equilibrio mediante el software Instituto de Biomecánica de Valencia (IBV).¹²¹

Las pruebas que se realizaron se explican en la Tabla 6.

Tabla 6. Pruebas del equilibrio estático y dinámico.

WBB®	NedSVE/IBV
Bipodal	Bipodal
Ojos abiertos (OA)	Límites de estabilidad
Ojos cerrados (OC)	
Foam/suelo inestable OA (FOA)	
Foam/suelo inestable OC (FOC)	
Tareas duales	
Monopodal	
Monopodal dominante (MD)	
Monopodal no dominante (MND)	

Las pruebas con la WBB® se realizaron de forma aleatorizada en cada participante y tenían una duración de 30 segundos, en los cuales debían de mantener el equilibrio. Hacían un descanso de 20 segundos entre cada prueba, a no ser que se fatigaran mucho; entonces, el descanso se ampliaba a un minuto. La prueba de límites de estabilidad consistía en llevar el CDG, reflejado en la pantalla que tenían en frente, a diferentes puntos que va señalizando el programa y aguantar 8 segundos en cada posición, sin caerse, levantar brazos ni mover los pies del suelo. En total hay 8 posiciones distintas en esta prueba (Figura 10).

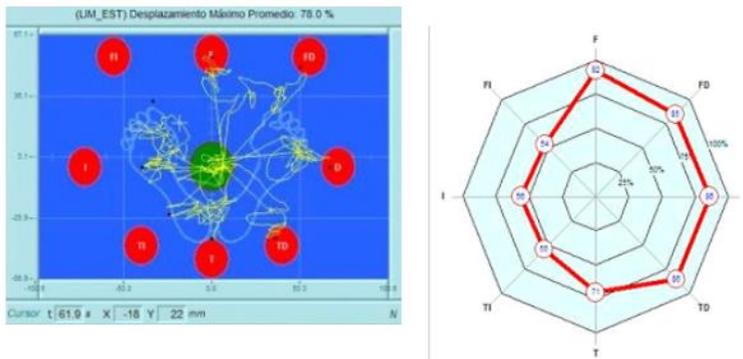


Figura 10. Límites de estabilidad en la NedSVE/IBV.

Las variables obtenidas en las pruebas con la WBB® (equilibrio estático) y la NedSVE/IBV (equilibrio dinámico) se detallan en la Tabla 7.

Tabla 7. Variables del equilibrio.

Estático	Dinámico
Desviación estándar amplitud antero-posterior (DE amplitud AP)	Control de dirección (%)
Desviación estándar amplitud medio-lateral (DE amplitud ML)	Tiempo de confinamiento (s)
Velocidad total media (s)	Desplazamiento máximo (%)
Área de barrido (mm ²)	Tiempo de reacción (s)
	Éxito (%)
	Valoración final (%)

En todas las variables de equilibrio estático evaluado con la WBB®, un menor valor implica mejor equilibrio.

A continuación, vamos a describir las variables estudiadas para la prueba de los límites de estabilidad:

- Control de dirección: estimador de la linealidad de la trayectoria seguida por el sujeto en estudio para alcanzar cada uno de los límites de estabilidad. Este estimador se calcula como porcentaje de los puntos de la trayectoria que quedan dentro del rectángulo formado por la diana objetivo con el punto de partida respecto a los totales de la trayectoria (a mayor puntuación, mejor resultado se obtendrá).
- Tiempo de confinamiento: estimador de la velocidad de respuesta del sujeto en estudio en iniciar el movimiento hacia cada uno de los límites de estabilidad. Expresado en segundos, refleja el tiempo transcurrido desde el inicio de la prueba hasta que la proyección de su CDG abandona la diana central (a menor puntuación mejor resultado se obtendrá).
- Desplazamiento máximo: porcentaje respecto al patrón de normalidad (segmentado por sexo, edad y altura) del desplazamiento alcanzado en cada una de las direcciones. Un valor del 100% expresa que la distancia alcanzada en la dirección del límite, obtenida como proyección sobre la recta que une el origen con el límite, es igual a la del patrón de normalidad (a mayor puntuación mejor resultado se obtendrá).
- Tiempo de reacción: tiempo empleado por el sujeto en estudio, expresado en segundos, para alcanzar cada uno de los límites de estabilidad (a menor puntuación mejor resultado se obtendrá).
- Éxito: estimador de la estabilidad del sujeto en estudio una vez alcanzada la diana objetivo de cada uno de los límites de estabilidad. Se calcula como porcentaje de puntos que caen

dentro de la diana objetivo respecto a los posibles (a mayor puntuación mejor resultado se obtendrá).

- Valoración total: porcentaje obtenido del conjunto de los resultados de las variables anteriores, respecto al patrón de normalidad. Un valor del 100% expresa que el equilibrio en esta prueba es igual a la del patrón de normalidad (a mayor puntuación mejor resultado se obtendrá).

En la WBB[®] se utilizó el programa BrainBrox de la Universidad de Colorado¹²² para sincronizar y registrar los datos de cada prueba. Igualmente, para procesar las señales registradas del centro de presiones y calcular los índices de estabilidad se empleó el programa MATLAB (The MathWorks Inc., Natick, Massachusetts, USA, versión R2018b).

El procedimiento a seguir con la WBB[®] fue el siguiente: primero, tras sincronizar la WBB[®] con el ordenador mediante Bluetooth, se colocó la plataforma a una distancia de 2,5 metros de una pared. Se puso una diana a la altura de los ojos de cada paciente para que tuvieran la mirada fija en un punto. Así pues, antes de empezar con las pruebas, se les preguntó cual era el pie dominante de cada participante y se les explicó la postura que tenían que mantener durante las pruebas: i) Tenían que quitarse el calzado antes de subir a la plataforma, ii) mantener el cuerpo recto y mirando al frente y iii) manos colgadas a los laterales, no pudiendo estar metidas en los bolsillos, cruzadas en el pecho, ni cogidas en la espalda (Figura 11). Para una mayor concentración y para evitar distracciones durante las pruebas no se

Material y métodos

permitió hablar a nadie ni poner música, además cerramos las puertas del laboratorio para minimizar ruidos externos.

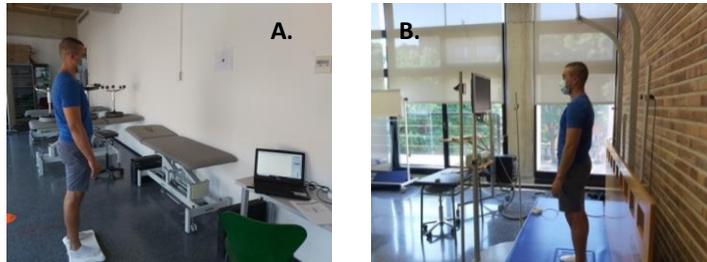


Figura 11. Colocación plataformas equilibrio. A) WBB® y B) NedSVE/IBV.

El procedimiento a seguir con la NedSVE/IBV se explica a continuación: primero fue necesario introducir en el ordenador la información básica del paciente a evaluar (número del sujeto, altura y fecha de nacimiento) para crear una ficha donde trabajar. Posteriormente, se pesó y midió la altura a los participantes, pidiéndoles primero que se descalzaran.

Antes de empezar la prueba de límites de estabilidad se le explicó al paciente la postura que debía tener: i) el sujeto debía fijar su vista en un punto situado en la pantalla de la NedSVE/IBV justo a la altura de sus ojos con una "X", ii) se le pidió que colocara los pies siguiendo el dibujo marcado en la plataforma de la NedSVE/IBV y por último iii) tenía que mantener los brazos estirados a lo largo del cuerpo y evitar moverlos durante las pruebas.

En todas las pruebas de equilibrio realizadas se daban como nulas si los sujetos:

- Movían los pies de la plataforma.

- Se caían fuera de la plataforma.
- Utilizaban los brazos para estabilizarse.
- Abrían los ojos en una prueba de ojos cerrados.
- Hablaban o estaban mirando a otros lados durante la prueba.

Por otro lado, en el equilibrio también se valoró la percepción subjetiva del equilibrio de cada paciente antes y después del programa de ejercicios. Más específicamente, se les preguntó sobre la percepción que tenían para el equilibrio en general y el equilibrio en actividades externas, haciendo referencia a actividades que no realizan en su vida diaria (ej. Senderismo, paseo por la playa, etc.). Para ello, se les administró una escala del 0 al 10, siendo 0 “nada de equilibrio” y 10 “equilibrio completo”.

2.5.2. Funcionalidad

En la medición de la funcionalidad auto-percibida se empleó la *Haemophilia Activity List* (HAL) y el *Functional Independent Score in Haemophilia* (FISH), como cuestionarios de autoevaluación específicos para PCH. Además, se completó la medición con tres pruebas funcionales: el test *Time Up and Go* (TUG), el *Sit to Stand Test* (STST) y el *2 Minutes Walk Test* (2MWT). Cada una de las pruebas funcionales se realizó dos veces y se calculó el valor medio.

En primer lugar, el HAL tiene una carga de administración de entre 5-10 minutos, más los restantes 5 minutos necesarios para obtener la puntuación total. El cuestionario cuenta con actividades que se dividen en 7 dominios y cada uno de ellos tiene diferentes ítems, que son: acostarse / sentarse / arrodillarse / estar de pie (8 ítems), funciones de

las piernas (9 ítems), funciones de los brazos (4 ítems), uso de transporte (3 ítems), mi cuidado (5 ítems), tareas del hogar (6 ítems) y ocio y deporte (7 ítems).

Los pacientes tienen que responder en cada ítem a la siguiente pregunta “¿En el mes anterior, encontraste alguna dificultad debido a la hemofilia con...?”. Para ello se utiliza una escala Likert con 5 puntos/opciones, complementada por la opción “imposible” para aquellas personas que no pueden realizar dicha actividad y la opción N/A solo para aquellas actividades que el paciente no realiza nunca.^{123,124,125}

Así pues, para cada dominio se calculó un rango de puntuación, en el cual, a medida que se obtienen más puntos, implica que hay una mayor dificultad auto-percibida para realizar la actividad por parte del PCH.^{123,124} Además de las puntuaciones de estos 7 dominios se generan cuatro puntuaciones resumen de: extremidades superiores, extremidades inferiores, extremidades inferiores funcionalidad compleja y sumatorio de puntos.

Para determinar la validez del HAL, se han realizado comparaciones con otras escalas como la *Arthritis Impact Measurement Scale (AIMS)* o el *Impact in Participation and Autonomy questionnaire (IPA)* dando lugar a una buena correlación entre ellas ($r=0,47-0,84$).^{123,124,126} Además, la consistencia interna de sus siete dominios, es alta ($\alpha=0,61-0,96$), al igual que la consistencia de sus tres componentes (*Cronbach's alpha*: 0,93-0,95) lo que representa que los elementos dentro de las sub-escalas miden funciones similares.^{123,124,126} Por lo tanto, la escala HAL muestra una buena fiabilidad y validez.

En segundo lugar, el FISH fue desarrollado para valorar el rendimiento de los PCH, basado en su independencia para realizar actividades de autocuidado, transferencia y locomoción. Las 8 actividades, que se clasifican dentro de los tres grupos anteriormente mencionados, son: comer y asearse, bañarse, vestirse, sentarse y levantarse de la silla, hacer cuclillas, caminar, subir y bajar escaleras y correr. Esta última actividad (correr) se incluyó a posteriori, con el objetivo de mejorar la capacidad de detección de la funcionalidad e independencia del FISH, principalmente en pacientes con un menor daño en las articulaciones.

La puntuación del FISH oscila entre 1 – 4, siendo el 1 la mayor dependencia y el 4 la mayor independencia para realizar los ejercicios. Por lo tanto, el rango de puntuación irá del 8 (dependencia funcional) al 32 (independencia funcional).^{127,128} El tiempo de administración oscila entre 5-10 minutos.

El FISH tiene un alto grado de fiabilidad ICC=0,98¹²⁷ y se puede emplear como un test complementario a otras escalas, de las cuales, tiene una buena correlación con *Hemophilia Activity Lsit* (HAL) ($r=-0,66$), *Western Ontario and McMaster Universities Arthritis Index* (WOMAC) ($r=-0,66$) y *Health Assessment Questionnaire* (HAQ) ($r=-0,75$).¹²⁷⁻¹²⁹

En tercer lugar, el TUG es un test sencillo, de fácil administración y con tiempos cortos, que valora la movilidad funcional de miembros inferiores y el equilibrio dinámico. Se emplea principalmente en personas mayores (ICC=0,94)¹³⁰, pero a lo largo de los últimos años ha sido aplicada como una herramienta de alta fiabilidad para pacientes con diferentes patologías [problemas de corazón (ICC=0,93), ictus (ICC=0,97), Parkinson (ICC=0,90)].¹³¹⁻¹³³ Igualmente, ha demostrado

tener una buena validez, ya que presenta una correlación significativa con la escala STST ($r= 0,64$)¹³⁴ y con la escala de Berg ($r=-0,76$).¹³⁵ También, el TUG se ha utilizado en PCH para valorar la movilidad funcional y el equilibrio dinámico en diversas investigaciones.^{75,99,109,136-141} Sin embargo, tiene una capacidad limitada para predecir caídas en personas mayores y no debe ser utilizado de forma aislada para identificar a personas con alto riesgo de caídas.¹⁴²

Para completar este test hay que: levantarse de una silla con respaldo y reposabrazos, caminar 3 metros, volver a la silla y sentarse lo más rápido posible. Se le cronometró desde que se le dio la señal de “comienzo” hasta que se volvió a sentar y tuvo un intento de práctica para familiarizarse con la prueba. Si el tiempo es menor de 10 segundos, es un resultado normal, pero si es mayor de 14 segundos se asocia con un incremento del riesgo de caídas.¹³⁶

En cuarto lugar, el STST actúa como indicador global de la fuerza y funcionalidad de los miembros inferiores. Además, es una herramienta empleada principalmente como predictor de una discapacidad, del aumento del riesgo de caídas y de mortalidad en personas mayores.⁷⁵ La realización del STST consiste en levantarse y sentarse de una silla (de unos 45 cm) tres veces lo más rápido posible (Figura 12).

Este ejercicio fue cronometrado, obteniendo así los resultados en base al tiempo que tardaron (a menor tiempo, mayor funcionalidad y menor discapacidad). El STST ha demostrado una alta fiabilidad intra-evaluador ($ICC=0,89$)⁷⁵, además de tener una correlación buena con TUG ($r=0,64$).¹³⁴



Figura 12. Pruebas funcionales. A) TUG y B) STST.

Tanto el STST como el TUG son dos herramientas complementarias muy utilizadas por los profesionales sanitarios para poder identificar a los pacientes con riesgo de padecer discapacidad y riesgo de caídas.¹³⁷ En atención a lo cual, el uso de ambas pruebas a la vez aumenta la sensibilidad de los resultados.^{99,109,140,143}

Por último, el 2MWT consiste en caminar durante dos minutos una distancia predeterminada sin parar obteniendo el resultado de los metros recorridos en ese periodo de tiempo.¹⁴⁴

En nuestro caso, se colocaron dos conos señalizando los extremos de un recorrido de 20 metros que debían seguir durante la prueba. Se les indicó: i) que vinieran con ropa cómoda, ii) que durante los dos minutos de prueba podían cambiar el ritmo de la marcha si lo necesitaban, pero no parar y iii) que debían de recorrer la mayor distancia posible en ese tiempo. Si venían con una ayuda (bastón o muleta) podían usarla durante la realización de la prueba, pero en nuestro caso, ningún paciente lo requirió.

Tras colocar al participante en uno de los extremos, se le dio la señal verbal de empezar a caminar. Tuvo un incentivo verbal al minuto de la prueba con “lo estás haciendo muy bien, queda solo 1 minuto para acabar” y al final de la misma “por favor, párese ahí”. En ese momento, el fisioterapeuta midió la distancia andada en el último tramo desde el cono que había pasado hasta donde se encontraba el paciente y luego calculaba la distancia total recorrida en los dos minutos.

Este test ha demostrado una buena validez al correlacionarse de forma significativa con la escala 6MWT ($r=0,94$), TUG ($r=-0,91$), Berg ($r=0,75$) y el STST ($r=-0,65$).¹⁴⁵ Asimismo, presenta un índice de fiabilidad test-retest de $ICC=0,82$.¹⁴⁴

2.5.3. Riesgo de caídas

La medición del riesgo de caídas auto percibida se valoró mediante la escala *modified Fall Efficacy scale* (mFES). Además, se completó la valoración del riesgo de caídas con la *Berg Balance scale* (BBS).

La mFES evalúa la tendencia a las caídas o el miedo a ellas mediante 14 preguntas sobre actividades diarias. El paciente tiene que indicar su nivel de confianza/seguridad, (siendo 0 nada de confianza y 10 mucha confianza) al realizar las actividades sin caerse. Por lo tanto, a mayor puntuación, mayor confianza tendrá y a menor puntuación (entre 0-10), menor seguridad poseerá al efectuar ciertas actividades y por tanto habrá un mayor riesgo de caídas.¹⁴⁶

Las actividades que se valoran son: vestirse y desvestirse, preparar la comida, tomar una ducha o baño, sentarse/levantarse de la silla,

tumbarse/levantarse de la cama, ir a abrir la puerta o contestar al teléfono, caminar por el interior de la casa, llegar a los armarios o estanterías altas, limpiar la casa, ir de compras, utilizar el transporte público, cruzar la calle, jardinería o colgar la ropa y usar escalones delanteros o traseros en casa. Los últimos cuatro puntos son las actividades que se realizan fuera del hogar y que se han añadido al test original, ya que en este no se contemplaban dichos ejercicios.

La cumplimentación del mFES es muy breve, de unos 5-6 minutos, al igual que la recopilación de la puntuación total. El mFES está validado con un alto grado de fiabilidad (ICC=0,93) y con una consistencia interna elevada (Cronbach's alpha= 0,95).¹⁴⁶ Se usa principalmente para valorar a personas mayores, pero en este estudio se aplicará en personas con hemofilia, como ya hicieron en la investigación de Hill *et al.*¹⁰⁹ y Fearn *et al.*⁹⁹

Por otro lado, el BBS valora el equilibrio y el riesgo a caerse mediante 14 actividades estáticas y dinámicas, a través de la observación directa del sujeto por parte del profesional sanitario. Las actividades a realizar requieren poco equipamiento y varían en el grado de dificultad: estar de pie sin apoyo, sentarse sin ayuda, sentarse y levantarse, transferencias, bipedestación ojos cerrados, bipedestación pies juntos, llevar el brazo extendido hacia adelante en bipedestación, recoger un objeto del suelo, girar hacia los lados para mirar atrás, girar 360 grados, subir alternativamente un escalón, aguantar la posición en tándem y aguantar la posición sobre un pie.

La puntuación viene dada por una sencilla escala de 5 puntos, en el cual 0 indicaría "una incapacidad de realizar el ejercicio" y el 4

“completa independencia para realizar el ejercicio”. La máxima puntuación de la escala, indicando un buen equilibrio y bajo riesgo de caídas es de 56 puntos.^{147,148}

Los tiempos para cumplimentar esta escala son largos de unos 10-20 minutos. El BBS tiene una buena consistencia interna (Cronbach's alpha= 0,93) con una alta fiabilidad test-retest de ICC=0,92 y una fiabilidad entre evaluadores de ICC=0,97.¹⁴⁷ Al mismo tiempo, tiene una sensibilidad de 77 (65-89) y una especificidad de 97 (92-100).¹⁴⁷ Además, posee una buena correlación con el test TUG (Pearson $r = -0,76$).¹⁴⁸

2.5.4. Fuerza

Para evaluar la fuerza se utilizó el dinamómetro de mano Lafayette (*Nicholas Manual Muscle Tester, Lafayette Instruments, Lafayette, IN*), dispositivo electrónico diseñado para medir la fuerza máxima voluntaria isométrica del músculo (en kilogramos). Gracias al fácil manejo, su tamaño reducido y el bajo coste, es una herramienta muy utilizada en personas mayores o con patologías asociadas (Figura 13).

Los tiempos de la prueba pueden oscilar entre 1 a 10 segundos, un pitido audible indica el inicio y el final del tiempo establecido para la prueba. Es necesario acompañar la prueba con un apoyo verbal indicando lo que tiene que hacer el sujeto durante esos segundos.

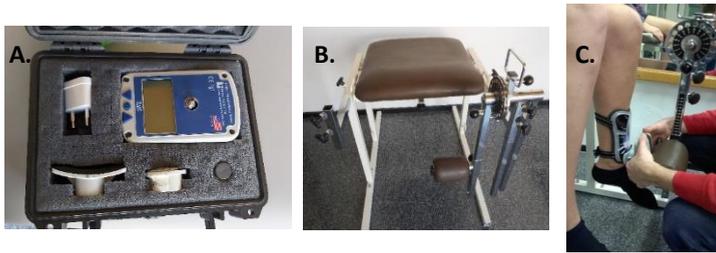


Figura 13. Medición fuerza. A) dinamómetro de mano Lafayette, B) banco de cuádriceps y C) posición dinamómetro.

El dinamómetro de mano Lafayette tiene una fiabilidad alta ($ICC > 0,70$) para la valoración de la fuerza isométrica de los miembros inferiores (Abductores cadera: $ICC = 0,84-0,96$; Flexores de cadera: $ICC = 0,74-0,95$; Extensores rodilla: $ICC = 0,77-0,95$; Flexores rodilla: $ICC = 0,83-0,97$), exceptuando los músculos de dorsiflexión del tobillo.^{149,150} También podemos observar resultados muy similares en cuanto a la fiabilidad en la extensión de rodilla en personas mayores ($ICC = 0,97$)¹⁵¹ y en prótesis totales de rodilla ($ICC = 0,92-0,97$).¹⁵²

Para obtener unos resultados más fiables es muy importante la posición del paciente y del dinamómetro y el protocolo que se lleva a cabo. Del mismo modo, si es necesario, se debe cinchar al paciente para evitar que utilice de forma compensatoria otros músculos que no nos interesen evaluar. Por ello, a continuación, se va a describir el procedimiento seguido para valorar la fuerza de los cuádriceps y de los abductores de cadera.

Fuerza de cuádriceps

Para la medición de la fuerza de cuádriceps se utilizó un protocolo modificado donde la colocación del dinamómetro se hace mediante

una fijación en un banco de cuádriceps (Figura 13). Este diseño busca ayudar a mantener el dinamómetro para eliminar factores tales como una insuficiente resistencia del examinador o una excesiva fuerza del paciente, que han demostrado ser limitaciones en estudios anteriores.¹⁵³

Primero, se les pidió a los pacientes que se sentaran en un banco de cuádriceps manteniendo un ángulo de flexión de rodilla y cadera de 90° si era posible.¹⁵⁴ Posteriormente, se colocó una cincha a nivel del muslo para fijarla y se puso una espinillera en la cara anterior de la tibia, para evitar provocar hematomas y dolor durante la prueba.¹⁵⁴⁻¹⁵⁶ Después, se colocó el dinamómetro en la parte distal de la pierna de forma que el pistón quedará perpendicular al eje de la tibia y proximal al tobillo, a 5 cm del maléolo medial.

Para evitar un exceso de fuerza por parte del fisioterapeuta o del paciente, se utilizó uno de los brazos oscilantes del banco de cuádriceps como tope fijo donde se apoyó el dinamómetro. Además, el fisioterapeuta sostuvo manualmente la posición del dinamómetro (Figura 13). Normalmente el brazo oscilante permanecía fijo a 90°, pero se modificó este ángulo si era necesario según la movilidad de la pierna.

Se les informó de que la prueba duraba 5 segundos marcada por un pitido de salida y tres pitidos al final. Para desarrollar la fuerza máxima y facilitar que el evaluador pueda mantener estático el dinamómetro, el esfuerzo debía aumentar progresivamente hasta alcanzar el máximo nivel de fuerza posible en cada repetición. De este modo, la fase de aumento de la fuerza duró 2 segundos, y la de mantenimiento de la

fuerza máxima 3 segundos.^{157,158} Un esfuerzo mantenido aproximadamente 5 segundos es un período de tiempo suficiente para generar la fuerza máxima.^{154,159}

Para obtener el máximo esfuerzo, durante la prueba el fisioterapeuta daba un apoyo verbal que les guiaba y animaba diciendo “vamos, vamos” y “fuerte, fuerte, fuerte”. El fisioterapeuta era quien supervisaba al paciente para que mantuviera el tronco estable e hiciera una fuerza progresiva durante la prueba, si no era así, se debía repetir.¹⁶⁰

Para poder sacar el promedio de la fuerza máxima, se realizó la prueba tres veces, dejando siempre 30 segundos de descanso entre cada repetición y el intento inicial de práctica para evitar la fatiga.

Fuerza de los abductores de cadera

Debido a las artropatías hemofílicas que tenían algunos de los pacientes en rodillas y tobillos, se decidió en este caso, que la mejor forma para valorar la fuerza de los abductores de cadera era tumbado en decúbito lateral en una camilla.¹⁶¹ Las piernas tenían que estar estiradas (si tenían dolor en las rodillas se les ponía una toalla enrollada entre ellas) y la cabeza apoyada en su brazo o con una almohada si no podía flexionar el codo. Luego, se utilizó una cincha y se colocó en la zona lateral distal del fémur, a unos 5 centímetros de la articulación de la rodilla. Con esa cincha se puso el dinamómetro fijo con el pistón perpendicular al eje del fémur (Figura 14). Además, el fisioterapeuta sostuvo manualmente el dinamómetro.

Antes de empezar, se les explicó el movimiento de abducción de cadera que tenían que efectuar en decúbito lateral. Se les dio indicaciones de cómo realizar correctamente el gesto, evitando rotar la pierna hacia afuera o inclinar el tronco y la cadera hacia adelante o atrás. Tenían que mantenerse de lateral lo más neutro posible durante la evaluación de la fuerza. La prueba también duraba 5 segundos, acompañada con apoyo verbal y se repitió tres veces teniendo 30 segundos para recuperarse entre repeticiones para evitar la fatiga.¹⁵⁴



Figura 14. Posición decúbito lateral evaluación fuerza glúteo medio.

2.5.5. Kinesiofobia

La variable de kinesiofobia se valoró mediante la versión corta española de la *Tampa Scale of Kinesiophobia* (TSK-11SV). Esta escala permite valorar el miedo al movimiento o el miedo a volver a lesionarse durante algún movimiento. Es un cuestionario auto administrado, con un corto tiempo de realización (5 minutos), que consta de 11 ítems en los cuales el sujeto debe indicar “si ocurren en su caso”. Para ello, se utiliza una escala Likert en el que el 1 significa “totalmente en desacuerdo” y el 4 “totalmente de acuerdo”. El rango de puntuación total se obtiene del sumatorio de las preguntas y oscila entre el 11 al 44, reflejando un mayor miedo al movimiento contra más puntuación obtenga.^{162,163}

El TSK-11SV ha demostrado tener una buena consistencia interna (Cronbach's $\alpha= 0,79$) con una alta fiabilidad test-retest (ICC=0,81).^{162,163} Para evaluar la validez del TSK-11SV se ha estudiado la correlación con otras escalas como el cuestionario de discapacidad de Roland ($r=0,51$), la Escala Visual Analógica del dolor (EVA) ($r=0,27$) y el *Tampa Scale of Kinesiophobia* de 17 ítems ($r=0,93$).

2.5.6. Calidad de vida

La calidad de vida se valoró mediante el cuestionario subjetivo específico para la Evaluación de la Calidad de Vida Relacionada con la Salud en Adultos con Hemofilia (A36 Hemofilia-QoL). Consta de 36 ítems divididos de forma desigual en 9 dominios: Salud física (8 ítems), Actividades diarias (4 ítems), Articulaciones (3 ítems), Dolor (2 ítems), Satisfacción con el tratamiento (2 ítems), Dificultades con el tratamiento (4 ítems), Funcionamiento emocional (5 ítems), Salud mental (3 ítems) y Relaciones y Actividad social (5 ítems). Las respuestas vienen dadas en un formato Likert que va del 0 (mucho) al 4 (nada). La puntuación total se obtiene del sumatorio de la puntuación por dominio, siendo la puntuación máxima 144. A mayor puntuación, menor es la interferencia de la hemofilia, mientras que, a menor puntuación, mayor influencia tendrá la hemofilia en su calidad de vida.¹⁶⁴

En cuanto a las características psicométricas, ha demostrado una buena consistencia interna (ICC=0,95) con una sensibilidad test-retest superior a $r=0,80$ en todas las escalas y una $r=0,92$ en la puntuación total. Con respecto a la validez, tiene una correlación estadísticamente

significativa con la *ShortForm-36 Healthy Survey Questionnaire* (SF-36) (Rango correlación= 0,17-0,77).¹⁶⁵

2.5.7. Dolor

El dolor fue medido mediante la Escala Visual Analógica (EVA) de 11 puntos (0 al 10), donde 0 indica una ausencia del dolor y el 10 el dolor más intenso imaginable. Los pacientes señalaron la puntuación que mejor representaba su intensidad de dolor 24 horas antes y una semana antes. La validez de la escala EVA se ha obtenido mediante el estudio de la correlación con la escala *Numerical Rate Scale* (NRS), *Faces Pain Scale-Revised* (FPS-R) y la *Verbal Rating Scale* (VRS) obteniendo una correlación de Pearson significativa y positiva en todos los cuestionarios ($r=0,93$; $r=0,75$ y $r=0,77$ respectivamente).¹⁶⁶ Asimismo, la escala EVA tiene una fiabilidad test-retest de $ICC=0,97$ (error estándar (SEM)=0,03).¹⁶⁷

2.5.8. Satisfacción con el programa y deseo de hacer ejercicio

En este caso, se evaluó la satisfacción con el programa al GE al finalizarlo. Más específicamente, se les preguntó si estaban “muy satisfechos”, “algo satisfechos” o “insatisfechos”. De la misma forma, se evaluó la motivación o el deseo de hacer ejercicio, preguntándoles si este estaba “igual”, había “mejorado” o estaba “peor”.

2.6. ANÁLISIS ESTADÍSTICO

El análisis estadístico se realizó mediante el paquete estadístico IBM SPSS (versión 26.0 para Windows; IBM Corp, Armonk, NY, USA), bajo la licencia de la *Universitat de València*. También se utilizaron algoritmos desarrollados mediante MATLAB (The MathWorks Inc., Natick, Massachusetts, USA, versión R2018b) para procesar los datos del equilibrio con la WBB®.

En primer lugar, se comprobó el cumplimiento del supuesto de normalidad mediante el estadístico Shapiro-Wilk en todas las variables. Los resultados descriptivos se muestran con la media (desviación estándar) o la mediana (intercuartil 25-75) según la normalidad. Para el análisis de los datos demográficos se utilizó las pruebas de T para muestras independientes o la prueba de U de Mann-Whitney según la normalidad.

El análisis de los resultados de la intervención se realizó mediante un ANOVA de dos factores (grupo x tiempo) de medidas repetidas en el factor tiempo para cada variable. Cuando el análisis ANOVA indicaba diferencias significativas, se aplicó la corrección de Bonferroni en las comparaciones múltiples para evitar el error de tipo I. Se aceptaron como significativas aquellas diferencias cuya probabilidad de ser debidas al azar fueran inferiores al 5% ($p < 0,05$). En caso de que no se cumpliera la normalidad, se realizó un análisis mediante la prueba de Wilcoxon para 2 muestras dependientes (grupo) y la U de Mann-Whitney para muestras independientes (tiempo). A diferencia de la ANOVA, donde SPSS ajusta los intervalos de confianza para mantener como significativo aquellas diferencias con una $p < 0,05$, en el caso de

las pruebas no paramétricas se aplicó Bonferroni dividiendo el valor de la p por el número de comparaciones. Por tanto, en este caso se aceptan como significativos aquellas diferencias con una $p < 0,0125$ ($0,05/4$).

Los tamaños del efecto se calcularon utilizando el programa Pysichometrica

[http://www.psychometrica.de/effect_size.html. Dettelbach (Germany)]. Para las muestras paramétricas, el tamaño del efecto se calculó mediante la d de Cohen y para las muestras no paramétricas, mediante la r de Rosenthal.

3.RESULTADOS

3. RESULTADOS

De los 32 PCH a los que se les informó sobre el estudio, 23 aceptaron participar en el programa y cumplían los criterios de inclusión. Solo un participante del GC, tras la primera evaluación, no pudo acabar el estudio debido a su fallecimiento (por motivos ajenos al estudio). Por tanto, 22 participantes, 11 en el GE y 11 en el GC formaron la muestra final (Figura 15).

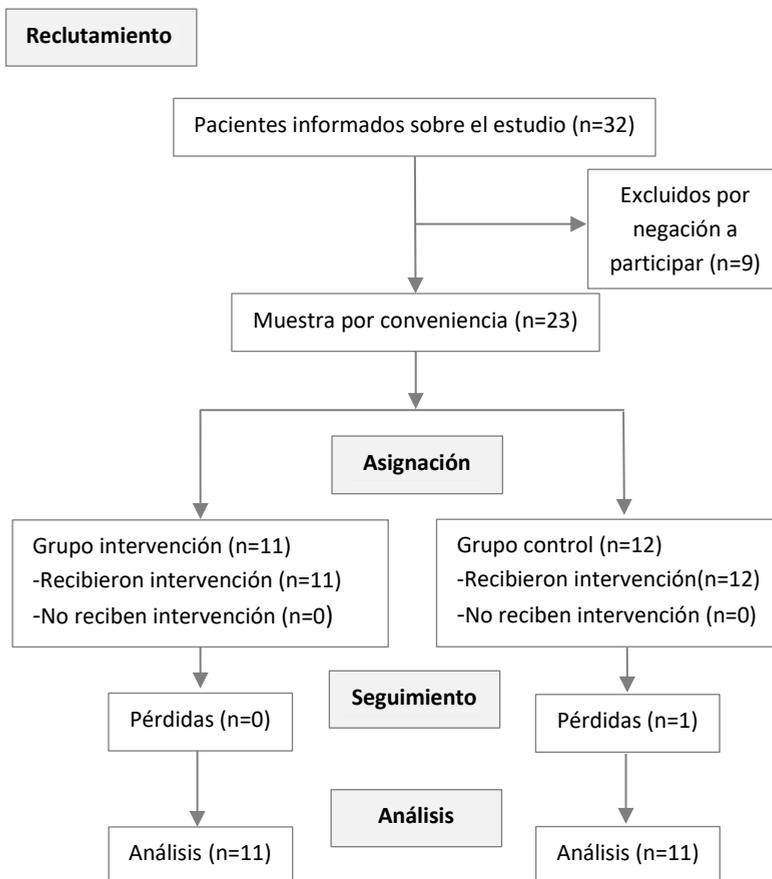


Figura 15. Diagrama de flujo del progreso a través de las fases del estudio.

En este estudio se obtuvo una gran adherencia porque hubo un 100% de cumplimiento de las sesiones. Además, no se registró ningún sangrado durante el periodo de intervención, ni por el entrenamiento ni por motivos externo.

3.1. RESULTADOS DESCRIPTIVOS

Las variables demográficas y clínicas se describen en la Tabla 8. Los grupos son comparables debido a que no hay diferencias estadísticas en las variables demográficas y clínicas. Todos los participantes padecían HA, excepto un sujeto del GC. Con respecto a la severidad de la hemofilia, todos presentaban una hemofilia grave a excepción de dos sujetos que presentaban una hemofilia moderada, situados cada uno en un grupo. Con relación al tratamiento, 21 participantes estaban en profilaxis (95,45%) y uno a demanda (4,55%). De los que estaban en profilaxis, 19 tenían un tratamiento sustitutivo de factor VIII o IX (86,36%) y dos tenían un tratamiento subcutáneo con anticuerpos monoclonales (9,09%). Con respecto a la dosis del factor sustitutivo administrado, no se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre los grupos. En cuanto a la frecuencia de administración del tratamiento sustitutivo, un 59,09% tenían pauta la dosis tres veces por semana y un 27,27% bisemanal. En la salud articular, se observa que no hay diferencias estadísticamente significativas entre los grupos en el HJHS. También se puede notar que existe una mayor alteración articular en los tobillos en ambos grupos y en el codo izquierdo en el GE.

Tabla 8. Variables demográficas y clínicas.

	GE (n=11)	GC (n=11)	Análisis entre grupos
Edad	37,55 (12,03)	38,18 (10,42)	0,90 [-9,38:10,65]
Talla	1,74 (0,09)	1,73 (0,06)	0,66 [-0,08:0,05]
Peso	78,00 [66,53-98]	76,00 [71,60-85]	0,92; z=0,10
IMC	26,89 [23,63-28,31]	25,31 [24,28-27,76]	0,72; z=0,36
Tipo hemofilia (A/B)	11/0	10/1	-
Severidad hemofilia (moderado/grave)	1/10	1/10	-
Tratamiento (profilaxis/a demanda)	11/0	10/1	-
Dosis de factor/día	1.728 (1.101,84)	1.388 (916,21)	0,44 [-1.241,72:560,82]
Dosis/kg/semana	55,65 (41,70)	49,50 (35,11)	0,71 [-40,43:28,14]
Frecuencia del factor	3 [2-3]	3 [2,50-3]	0,54; z=0,61
Total HJHS	24,73 (14,82)	20 (14,54)	0,46 [-17,79:8,33]
HJHS-Codo D	1 [0-8]	2 [0-9]	0,68; z=0,41
HJHS-Codo I	5 [0-10]	0 [0-5]	0,14; z=1,47
HJHS-Rodilla D	1 [0-8]	0 [0-1]	0,26; z=1,12
HJHS-Rodilla I	0 [0-3]	1 [0-1]	0,97; z=0,04
HJHS-Tobillo D	4,18 (2,93)	4,27 (3,07)	0,94 [-2,58:2,76]
HJHS-Tobillo I	3 [2-8]	3 [1-8]	0,79; z=0,27
HJHS-MARCHA	2 [2-4]	2 [0-4]	0,97; z=0,03

Los datos se muestran con la media (desviación estándar) o con la mediana [rango intercuartil: 25-75 percentil]. Los resultados de los análisis se muestran con p [95% CI] o con p; z test. La p se considera estadísticamente significativa cuando $p < 0,05$. GE: grupo experimental; GC: grupo control; IMC: índice de masa corporal; HJHS: *Haemophilia Joint Health Score*; D: derecha; I: izquierda.

Resultados

La Tabla 9 muestra los resultados en relación con la práctica de actividad física previa a la participación en el estudio. No se observan diferencias estadísticamente significativas entre los grupos en la frecuencia, intensidad y duración de la actividad física de cada uno de ellos.

Tabla 9. Análisis descriptivo de la frecuencia de actividad física, tipo, intensidad y duración.

	GE (n=11)	GC (n=11)	Chi cuadrado (p)
Frecuencia de realización del ejercicio			
No realiza	2 (18,18%)	2 (18,18%)	6,40 (0,09)
Muy esporádicamente	0 (0,00%)	1 (9,09%)	
Una vez por semana	2 (18,18%)	0 (0,00%)	
Dos o tres veces por semana	3 (27,27%)	7 (63,63%)	
Casi todos los días	4 (36,36%)	1 (9,09%)	
Tipo de ejercicio que realizan*			
Caminar	6 (66,66%)	4 (44,44%)	-
Entrenamiento en casa	3 (33,33%)	6 (66,66%)	
Nadar	3 (33,33%)	1 (11,11%)	
Bicicleta	0 (0,00%)	2 (22,22%)	
Pádel	0 (0,00%)	1 (11,11%)	
			2,25 (0,32)
Intensidad del ejercicio			
Suave	4 (44,44%)	3 (33,33%)	
Duro	5 (55,55%)	4 (44,44%)	
Agotador	0 (0,00%)	2 (22,22%)	
Duración de cada sesión de ejercicio			
Menos de 15 minutos	0 (0,00%)	1 (11,11%)	1,83 (0,61)
Entre 15 y 30 minutos	1 (11,11%)	2 (22,22%)	
Entre 30 minutos a 1 hora	5 (55,55%)	3 (33,33%)	
Más de 1 hora	3 (33,33%)	3 (33,33%)	

GE: grupo experimental; GC: grupo control. *3 sujetos del GE y 5 del GC hacen dos deportes distintos.

3.2. RESULTADOS DEL ANÁLISIS INFERENCIAL

3.2.1. Equilibrio

Respecto al equilibrio estático evaluado con la WBB®, los resultados de la ANOVA de medidas repetidas, así como los resultados con Wilcoxon y U de Mann-Whitney no mostraron diferencias estadísticamente significativas para ninguna de las variables analizadas excepto para la velocidad media en la prueba monopodal no dominante (MND) en el GE. En el GE se produjo una reducción estadísticamente significativa en la velocidad total media en la prueba MND con una $p=0,020$ y un tamaño del efecto grande $d= 1,22$. No se observó ninguna diferencia entre el GE y el GC antes y después del programa de ejercicios. Los resultados de las comparaciones múltiples de la WBB® se muestran en la Tabla 10.

Respecto a la valoración del equilibrio dinámico medido con la plataforma NedSVE/IBV con la prueba de límites de estabilidad, los resultados de la ANOVA de medidas repetidas y la prueba de Wilcoxon sí que muestran una mejora estadísticamente significativa para cuatro de las seis variables evaluadas en el GE: control de dirección ($p=0,016$; $d=0,80$), tiempo de confinamiento ($p=0,037$; $d=0,79$), desplazamiento máximo ($p=0,004$; $r=0,86$) y valoración final ($p=0,003$; $r=0,88$).

No se encontraron diferencias entre grupos en la evaluación previa y posterior a la intervención. La media (desviación estándar) o mediana (percentil 25-75) y los resultados de las comparaciones múltiples de los límites de estabilidad en la NedSVE/IBV se muestran en la Tabla 11.

Para la percepción subjetiva del equilibrio, los resultados de la ANOVA de medidas repetidas mostraron diferencias estadísticamente significativas. La media, desviación estándar y los resultados de las comparaciones múltiples se muestran en la Tabla 12.

El análisis del efecto de la intervención en el tiempo intra-grupo pre vs. post indicó que el protocolo de intervención tuvo un efecto estadísticamente significativo en el GE en la percepción del equilibrio general ($p < 0,01$) y la percepción del equilibrio en actividades externas ($p < 0,01$) con un tamaño del efecto grande ($d = 2,95$ y $d = 2,86$ respectivamente).

Previamente a la intervención, se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre grupos en la percepción general del equilibrio ($p = 0,02$) mostrando valores significativamente mayores en el GC que en el GE. También se encontraron diferencias significativas entre grupos posterior a la intervención, en la percepción general de equilibrio ($p = 0,01$) y la percepción del equilibrio en actividades externas ($p = 0,001$) mostrando valores significativamente mayores en el GE.

Tabla 10. Resultados del análisis estadístico del equilibrio con la WBB®.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
OA DE amplitud AP	GE	0,44 [0,38-0,32]	0,34 [0,27-0,52]	0,13; z=1,51;-
	GC	0,46 [0,30-0,60]	0,46 [0,40-0,53]	0,86; z=0,18;-
	Análisis entre grupos	0,92; z=0,10;-	0,12; z=1,54;-	
OA DE amplitud ML	GE	0,24 [0,14-0,37]	0,19 [0,15-0,36]	0,28; z=1,07;-
	GC	0,19 [0,11-0,24]	0,20 [0,14-0,28]	0,18; z=1,33;-
	Análisis entre grupos	0,36; z=0,89;-	0,92; z=0,10;-	
OA velocidad total media	GE	1,30 (0,38)	1,30 (0,38)	0,99 [-0,18:0,18];-
	GC	1,20 (0,31)	1,37 (0,31)	0,06 [-0,35:0,01];-
	Análisis entre grupos	0,49 [-0,2:0,41];-	0,66 [-0,38:0,25];-	
OA área barrida	GE	0,15 [0,12-0,24]	0,14 [0,09-0,19]	0,21; z=1,25;-
	GC	0,14 [0,11-0,25]	0,19 [0,12-0,24]	0,79; z=0,27;-
	Análisis entre grupos	0,58; z=0,56;-	0,20; z=1,28;-	
OC DE amplitud AP	GE	0,19 [0,12-0,31]	0,25 [0,15-0,37]	0,72; z=0,36;-
	GC	0,29 [0,22-0,33]	0,22 [0,16-0,40]	0,29; z=1,07;-
	Análisis entre grupos	0,16; z=1,41;-	0,87; z=0,16;-	
OC DE amplitud ML	GE	0,55 (0,24)	0,50 (0,20)	0,46 [-0,08:0,17];-
	GC	0,53 (0,15)	0,53 (0,14)	0,99 [-0,12:0,12];-
	Análisis entre grupos	0,87 [-0,16:0,19];-	0,69 [-0,18:0,12];-	
OC velocidad total media	GE	1,46 [1,13-1,89]	1,26 [1,15-1,95]	0,53; z=0,62;-
	GC	1,39 [1,33-1,65]	1,52 [1,27-1,79]	0,86; z=0,18;-
	Análisis entre grupos	0,92; z=0,10;-	0,41; z=0,82;-	

Tabla 10. Continuación.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
OC área barrida	GE	0,20 [0,11-0,31]	0,17 [0,11-0,34]	0,72; z=0,36;-
	GC	0,21 [0,17-0,29]	0,19 [0,16-0,29]	0,42; z=0,80;-
	Análisis entre grupos	0,77; z=0,30;-	0,53; z=0,62;-	
FOA DE amplitud AP	GE	0,37 [0,27-0,59]	0,41 [0,32-0,56]	0,99; z=0,09;-
	GC	0,34 [0,28-0,38]	0,40 [0,28-0,53]	0,37; z=0,89;-
	Análisis entre grupos	0,49; z=0,69;-	0,62; z=0,49;-	
FOA DE amplitud ML	GE	0,59 [0,45-0,74]	0,61 [0,38-0,95]	0,42; z=0,8;-
	GC	0,59 [0,39-0,73]	0,50 [0,45-0,74]	0,72; z=0,36;-
	Análisis entre grupos	0,77; z=0,30;-	0,45; z=0,76;-	
FOA velocidad total media	GE	1,73 [1,45-3,29]	1,80 [1,29-2,13]	0,016; z=2,40;
	GC	1,79 [1,52-2,60]	2,14 [1,50-2,54]	0,53; z=0,62;-
	Análisis entre grupos	0,82; z=0,23;-	0,31; z=1,02;-	
FOA área barrida	GE	0,37 [0,22-0,54]	0,31 [0,27-0,56]	0,37; z=0,89;-
	GC	0,31 [0,23-0,58]	0,33 [0,25-0,53]	0,66; z=0,45;-
	Análisis entre grupos	0,67; z=0,43;-	0,92; z=0,10;-	
FOC DE amplitud AP	GE	0,53 [0,29-0,63]	0,46 [0,37-0,57]	0,79; z=0,27;-
	GC	0,35 [0,27-0,77]	0,31 [0,25-0,74]	0,37; z=0,89;-
	Análisis entre grupos	0,72; z=0,36;-	0,41; z=0,82;-	
FOC DE amplitud ML	GE	0,81 (0,20)	0,81 (0,20)	0,17 [-0,29:0,05];-
	GC	0,69 (0,25)	0,69 (0,25)	0,82 [-0,15:0,19];-
	Análisis entre grupos	0,82 [-0,23:0,19];-	0,25 [-0,09:0,31];-	
FOC velocidad total media	GE	2,57 [1,81-3,13]	2,31 [1,95-3,77]	0,72; z=0,36;-
	GC	2,59 [1,75-2,85]	2,99 [2,12-3,20]	0,53; z=0,62;-
	Análisis entre grupos	0,77; z=0,30;-	0,72; z=0,36;-	

Tabla 10. Continuación.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
FOC área barrida	GE	0,45 [0,29-0,90]	0,58[0,40-0,87]	0,33; z=0,99;-
	GC	0,55 [0,27-1,02]	0,74 [0,25-1,09]	1,00; z<0,01;-
	Análisis entre grupos	0,97; z=0,03;-	0,72; z=0,36;-	
TD DE amplitud AP	GE	0,29 [0,17-0,51]	0,26 [0,16-0,48]	0,53; z=0,62;-
	GC	0,26 [0,17-0,35]	0,24 [0,13-0,65]	0,59; z=0,53;-
	Análisis entre grupos	0,31; z=1,02;-	0,58; z=0,56;-	
TD DE amplitud ML	GE	0,39 [0,31-0,54]	0,36 [0,26-0,70]	0,93; z=0,09;-
	GC	0,46 [0,29-0,61]	0,50 [0,42-0,62]	0,53; z=0,62;-
	Análisis entre grupos	0,67; z=0,43;-	0,18; z=1,35;-	
TD velocidad total media	GE	1,78 [1,27-1,98]	1,77 [1,10-2,55]	0,79; z=0,27;-
	GC	1,71 [1,38-1,90]	1,56 [1,24-1,84]	0,66; z=0,45;-
	Análisis entre grupos	0,77; z=0,30;-	0,67; z=0,43;-	
TD área barrida	GE	0,26 [0,12-0,46]	0,17 [0,11-0,47]	0,66; z=0,45;-
	GC	0,18 [0,13-0,30]	0,21 [0,15-0,25]	0,59; z=0,53;-
	Análisis entre grupos	0,53; z=0,62;-	0,67; z=0,43;-	
MD DE amplitud AP	GE	0,84 [0,72-1,05]	0,77 [0,66-0,82]	0,04; z=2,03;-
	GC	0,83 [0,77-1,22]	0,82 [0,80-0,89]	0,40; z=0,85;-
	Análisis entre grupos	0,96; z=0,05;-	0,10; z=1,64;-	
MD DE amplitud ML	GE	0,73 [0,59-1,04]	0,64 [0,63-1,05]	0,61; z=0,51;-
	GC	0,89 [0,67-1,00]	0,76 [0,56-0,90]	0,31; z=1,01;-
	Análisis entre grupos	0,63; z=0,48;-	0,71; z=0,37;-	

Resultados

Tabla 10. Continuación.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
MD velocidad total media	GE	5,96 [5,05-9,15]	4,85 [3,57-6,77]	0,06; z=1,86;-
	GC	5,86 [4,65-6,75]	6,62 [5,55-7,80]	0,31; z=1,01;-
	Análisis entre grupos	0,37; z=0,90;-	0,15; z=1,43;-	
MD área barrida	GE	1,88 [1,04-3,99]	1,61 [1,25-1,76]	0,09; z=1,69;-
	GC	1,80 [1,35-2,83]	2,03 [1,79-2,70]	0,87; z=0,17;-
	Análisis entre grupos	0,71; z=0,37;-	0,08; z=1,75;-	
MND DE amplitud AP	GE	0,89 (0,20)	0,79 (0,20)	0,27 [-0,09:0,30];-
	GC	0,81 (0,10)	0,74 (0,09)	0,44 [-0,11:0,24];-
	Análisis entre grupos	0,36 [-0,11:0,27];-	0,59 [-0,14:0,23];-	
MND DE amplitud ML	GE	0,81 (0,24)	0,87 (0,33)	0,71 [-0,38:0,27];-
	GC	0,73 (0,18)	0,75 (0,16)	0,85 [-0,33:0,27];-
	Análisis entre grupos	0,47 [-0,17:0,35];-	0,41 [-0,19:0,43];-	
MND velocidad total media	GE	6,50 (1,37)	4,83 (2,35)	0,020 [0,32:3,03]; d=1,22
	GC	5,56 (1,81)	5,66 (1,42)	0,87 [-1,36:1,16];-
	Análisis entre grupos	0,32 [-1,04:3,16];-	0,45 [-3,16:1,50];-	
MND área barrida	GE	1,96 [1,53-3,20]	1,52 [0,86-1,87]	0,60; z=0,52;-
	GC	1,65 [1,03-2,44]	1,83 [1,46-2,56]	0,89; z=0,14;-
	Análisis entre grupos	0,41; z=0,82;-	0,27; z=1,11	

Los datos se muestran con la media (desviación estándar) o con la mediana [rango intercuartil: 25-75 percentil]. Los resultados de los análisis se muestran con p [95% CI]; d de Cohen o con p; z test; r de Rosenthal. La p se considera estadísticamente significativa en el ANOVA cuando $p < 0,05$ y en las pruebas no paramétricas cuando $p < 0,0125$. GE: grupo experimental; GC: grupo control. AP: antero posterior; ML: medio-lateral; DE: desviación estándar; OA: ojos abiertos; OC: ojos cerrados; FOA: foam ojos abiertos; FOC: foam ojos cerrados; MD: monopodal dominante; MND: monopodal no dominante; TD: tarea dual.

Tabla 11. Resultado del análisis estadístico de los límites de estabilidad en la NedSVE/IBV.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
Control Dirección	GE	67,74 (7,19)	73,54 (9,64)	0,016 [-10,41: -1,19]; d= 0,80
	GC	68,11 (11,17)	72,11 (8,81)	
	Análisis entre grupos	0,93 [-7,99: 8,72];-	0,72 [-6,77: 9,64];-	0,09 [-0,59: 8,61];-
Tiempo Confinamiento	GE	0,74 (0,19)	0,59 (0,17)	0,037 [-0,01: -0,28]; d= 0,79
	GC	0,63 (20,63)	0,59 (0,32)	
	Análisis entre grupos	0,21 [-0,07: 0,28];-	0,92 [-0,23: 0,23];-	0,58 [-0,17: 0,10];-
Desplazamiento máximo	GE	91,18 [84,42-100,28]	101,59 [93,34-106,46]	0,004; z=2,84; r= 0,86
	GC	102,17 [97,20-104,33]	104,56 [101,07-106,31]	
	Análisis entre grupos	0,06; z=1,87;-	0,34; z=0,95;-	0,45; z=0,76;-
Tiempo Reacción	GE	3,72 (1,03)	2,98 (0,95)	0,14 [-0,28:1,73];-
	GC	3,70 (1,30)	3,38 (0,92)	0,42 [-0,50:1,14];-
	Análisis entre grupos	0,98 [-1,36: 1,38];-	0,43 [-1,45: 0,66];-	
Éxito	GE	57,08 (13,40)	61,47 (12,01)	0,51 [-18,34:9,54];-
	GC	52,29 (21,34)	54,23 (19,33)	0,72 [-13,32:9,44];-
	Análisis entre grupos	0,63 [-16,50: 26,07];-	0,43 [-12:26,48];-	
Valoración	GE	79,53 [75,35-88,63]	88,37 [82,64-94,91]	0,003; z=-2,93; r= 0,88
	GC	87,91 [83,84-93,04]	90,36 [87,22-94,11]	
	Análisis entre grupos	0,09; z=1,67;-	0,58; z=0,56;-	0,11; z=1,58;-

Los datos se muestran con la media (desviación estándar) o con la mediana [rango intercuartil: 25-75 percentil]. Los resultados de los análisis se muestran con p [95% CI]; d de Cohen o con p; z test; r de Rosenthal. La p se considera estadísticamente significativa en el ANOVA cuando $p < 0,05$ y en las pruebas no paramétricas cuando $p < 0,0125$. GE: grupo experimental; GC: grupo control.

Tabla 12. Resultados del análisis estadístico de la percepción subjetiva del equilibrio.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
Percepción del equilibrio	GE	4,18 (1,54)	8,73 (1,01)	<0,001 [-5,93: -3,16]; d=2,95
	GC	6,09 (2,02)	6,27 (1,95)	
	Análisis entre grupos	0,022 [0,31:3,51]; d=1,06	0,001 [-3,84:-1,07]; d=1,58	0,17 [-0,45:0,09]
Percepción del equilibrio en actividades externas	GE	4,27 (1,56)	8,73 (1,10)	<0,001 [-5,94: -2,97]; d=2,86
	GC	6,27 (2,05)	6,22 (1,94)	
	Análisis entre grupos	0,18 [0,38:3,62]; d=1,09	0,001 [-3,90:-1,10]; d=1,59	0,80 [-0,34:0,43]

Los datos se muestran con la media (desviación estándar) y la d de cohen. La p se considera estadísticamente significativa en el ANOVA cuando $p < 0,05$. GE: grupo experimental; GC: grupo control.

Cálculo de la potencia a posteriori (Post-hoc)

Con el fin de conocer la potencia estadística de los resultados, se realizó un cálculo de potencia a posteriori en *G*Power*. Con el tamaño de la muestra final ($n=22$) y para la variable significativa de equilibrio con menor tamaño del efecto obtenido (tiempo de confinamiento $d=0,79$), la potencia estadística mínima fue de 0,94. Por lo tanto, al ser una potencia alta se asegura la fiabilidad de los resultados.

3.2.2. Funcionalidad

Los resultados de la ANOVA de medidas repetidas, de la prueba de Wilcoxon y U de Mann-Whitney para la funcionalidad autopercebida (HAL y FISH) no mostraron diferencias estadísticamente significativas para la puntuación total. Los resultados se muestran en la Tabla 13.

Se observó un aumento estadísticamente significativo en el cuestionario HAL en el GE para las variables: función piernas ($p=0,042$; $d=0,32$) y actividades complejas de piernas ($p=0,035$; $d=0,30$). No hubo diferencias estadísticamente significativas entre GE y GC.

Por otro lado, los resultados de los análisis de las variables de capacidad funcional objetivas sí mostraron diferencias significativas en las pruebas funcionales que se llevaron a cabo (2MWT, TUG y STST). La media (desviación estándar) o mediana (percentil 25-75) y los resultados de las comparaciones múltiples se muestran en la Tabla 14.

En el análisis intra-grupo del GE se observó una disminución del tiempo estadísticamente significativa en el TUG y STST y un aumento del recorrido estadísticamente significativa en la prueba 2MWT, con un tamaño del efecto mayor a 0,80 en todas ellas. Estos resultados indican que el protocolo de intervención sí tuvo efectos en el GE.

Respecto al análisis entre grupos, previamente a la intervención, se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre grupos en la prueba 2MWT ($p=0,043$) mostrando valores significativamente mayores en el GC que en el GE.

Resultados

Tabla 13. Resultado del análisis estadístico de la funcionalidad auto-percibida HAL y FISH.

HAL		PRE	POST	Análisis intra grupos
ASAP	GE	60,00 [45,00-95,00]	70,00 [55,00-100,00]	0,23; z=1,19;-
	GC	72,50 [55,00-95,00]	77,5 [47,50-90,00]	0,84; z=0,21;-
	Análisis entre grupos	0,74; z=0,33;-	0,97; z=0,03;-	
Función piernas	GE	66,46 (25,36)	74,54 (19,83)	0,042; [-15,85;-0,31]; d= 0,32
	GC	70,50 (19,65)	70,50 (21,84)	
	Análisis entre grupos	0,68[-24,22: 16,14];-	0,65 [-14,51: 22,59];-	
Función brazos	GE	90,00 [65,00-100,00]	80,00 [75,00-100,00]	0,14; z=1,49;-
	GC	85,00 [80,00-100,00]	90,00 [80,00-95,00]	0,55; z=0,60;-
	Análisis entre grupos	0,84; z=0,20;-	0,92; z=0,10;-	
Transporte	GE	93,33 [53,33-100,00]	86,67 [66,67-100,00]	0,75; z=0,31;-
	GC	100,00 [86,67-100,00]	100,00 [53,33-100,00]	0,70; z=0,78
	Análisis entre grupos	0,36; z= 0,91;-	0,30; z=1,04;-	
Autocuidado	GE	100,00 [88,00-100,00]	100,00 [96,00-100,00]	0,89; z=-0,13;-
	GC	92,00 [80,00-100,00]	96,00 [64,00-100,00]	0,71; z=0,38;-
	Análisis entre grupos	0,33; z=0,97;-	0,16; z=1,40;-	
Tareas del hogar	GE	93,33 [76,67-100,00]	100 [83,33-100,00]	0,25; z=1,16;-
	GC	96,67 [80,00-100,00]	90 [73,33-100,00]	0,33; z=0,98;-
	Análisis entre grupos	0,92; z=0,10;-	0,26; z=1,14;-	
Ocio y deporte	GE	85,71 [74,29-97,14]	91,43 [74,29-100]	0,26; z=1,13;-
	GC	88,57 [62,86-91,43]	82,86 [62,86-94,29]	0,96; z=0,51;-
	Análisis entre grupos	0,60; z=0,53;-	0,22; z=1,22;-	

Tabla 13. Continuación.

HAL		PRE	POST	Análisis intra grupos
Actividad con brazos	GE	95,56 [77,78-97,78]	91,11 [88,89-100,00]	0,16; z=1,40;-
	GC	88,89 [71,11-100,00]	95,56 [71,11-95,56]	0,45; z=0,76;-
	Análisis entre grupos	0,82; z=0,23;-	0,46; z=0,73;-	
Actividades básicas piernas	GE	86,67 [73,33-100,00]	93,33 [70,00-100,00]	0,36; z=0,91;-
	GC	70,00 [60,00-100,00]	66,67 [56,67-100,00]	1,00; z=0,00;-
	Análisis entre grupos	0,37; z=0,90;-	0,33; z=0,97;-	
Actividades complejas piernas	GE	51,31 (32,86)	60,20 (29,90)	0,035 [-17,07;-0,71]; d= 0,30
	GC	63,23 (25,88)	64,44 (27,18)	0,76 [-6,96: 9,39];-
	Análisis entre grupos	0,35[-14,39: 38,22];-	0,73 [-29,65: 21,17];-	
Total	GE	80,48 [64,29-91,90]	80,95 [72,86-96,67]	0,13; z=1,51;-
	GC	80 [67,62-94,76]	78,09 [57,14-95,24]	0,80; z=0,26;-
	Análisis entre grupos	0,95; z=0,06;-	0,72; z=0,36;-	
FISH	GE	27,45 (3,56)	28,36 (3,07)	0,16 [-2,22:0,40];-
	GC	28,73 (2,76)	27,82 (3,76)	0,16 [-0,40:2,22];-
	Análisis entre grupos	0,36 [-4,10:1,56];-	0,71 [-2,51:3,60];-	

Los datos se muestran con la media (desviación estándar) o con la mediana [rango intercuartil: 25-75 percentil]. Los resultados de los análisis se muestran con p [95% CI]; d de Cohen o con p; z test; r de Rosenthal. La p se considera estadísticamente significativa en el ANOVA cuando $p < 0,05$ y en las pruebas no paramétricas cuando $p < 0,0125$. GE: grupo experimental; GC: grupo control; ASAP: Acostarse/sentarse/arrojarse/pararse.

Tabla 14. Resultado del análisis estadístico de las pruebas funcionales.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
TUG	GE	7,05 (1,74)	5,64 (1,33)	<0,001 [1,01:1,83]; d=0,81
	GC	5,73 (1,25)	5,64 (1,32)	
	Análisis entre grupos	0,06 [-0,03:2,66];-	0,99 [-1,18:1,17];-	0,63 [-3,18:0,59]; -
STST	GE	6,24 [5,19-8,19]	5,03 [4,05-6,46]	0,004; z=2,85; r=0,86
	GC	5,05 [3,57-5,86]	4,31 [4,08-5,33]	
	Análisis entre grupos	0,12; z=1,54; -	0,58; z=0,56; -	0,39; z=0,86; -
2MWT	GE	161,34 (35,30)	190,21 (35,76)	<0,001 [-39,57: -18,14]; d=0,82
	GC	191,72 (30,58)	189,63 (28,13)	
	Análisis entre grupos	0,043 [-59,75:-0,99]; d=0,92	0,96 [-28,04:29,02]; -	0,69 [-8,62:12,80]; -

Los datos se muestran con la media (desviación estándar) o con la mediana [rango intercuartil: 25-75 percentil]. Los resultados de los análisis se muestran con p [95% CI]; d de Cohen o con p; z test; r de Rosenthal. La p se considera estadísticamente significativa en el ANOVA cuando $p < 0,05$ y en las pruebas no paramétricas cuando $p < 0,0125$. GE: grupo experimental; GC: grupo control; TUG: *Time Up and Go*; STST: *Sit to Stand Test*; 2MWT: *2 Minutes Walk Test*.

3.2.3. Riesgo de caídas

Los resultados de la prueba de Wilcoxon en las escalas mFES y Berg mostraron un aumento estadísticamente significativo intra-grupo ($p < 0,0125$) en el GE con un tamaño del efecto grande [mFES ($r = 0,81$); BBS ($r = 0,77$)]. No se encontraron cambios estadísticamente significativos entre grupos.

La mediana (percentil 25-75) y los resultados de las comparaciones múltiples se muestran en la Tabla 15.

Tabla 15. Resultados del análisis estadístico del riesgo de caídas.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
mFES	GE	121 [117-137]	137 [118-140]	0,008; z= 2,67; r=0,81
	GC	136 [111-137]	134 [111-137]	
	Análisis entre grupos	0,41; z=0,83;-	0,41; z=0,83;-	
BBS	GE	51 [45-55]	56 [54-56]	0,011; z=2,54; r= 0,77
	GC	55 [53-56]	56 [53-56]	
	Análisis entre grupos	0,18; z=1,34;-	0,57; z=0,58;-	

Los datos se muestran con la mediana [rango intercuartil: 25-75 percentil]. Los resultados de los análisis se muestran con p; z test; r de Rosenthal. La p se considera estadísticamente significativa en las pruebas no paramétricas cuando $p < 0,0125$. GE: grupo experimental; GC: grupo control; mFES; *modified fall efficacy scale*; BBS: *Berg balance scale*.

3.2.4. Fuerza

Los resultados de la ANOVA para medidas repetidas en la fuerza del cuádriceps y glúteo medio muestran diferencias estadísticamente significativas. La media (desviación estándar) y los resultados de las comparaciones múltiples se pueden observar en la Tabla 16.

En el análisis intra-grupo del GE se observaron aumentos estadísticamente significativos en todas las pruebas de fuerza ($p < 0,05$) con un tamaño del efecto $\geq 0,30$ en la fuerza de cuádriceps y $> 0,65$ en la fuerza de glúteo medio. Estos resultados indican que el protocolo de intervención sí tuvo efectos en el GE.

Previamente a la intervención, se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre grupos en la prueba fuerza cuádriceps izquierdo ($p=0,02$), derecho ($p=0,007$) y en el glúteo medio izquierdo ($p=0,006$) mostrando valores significativamente mayores en el GC que en el GE.

3.2.5. Kinesiofobia

En los resultados de la ANOVA de medidas repetidas para la kinesiofobia no se encontraron diferencias intragrupo. Tampoco entre grupos, ni en la evaluación previa ni posterior a la intervención.

La media, desviación estándar y los resultados de las comparaciones múltiples se muestran en la Tabla 17.

Tabla 16. Resultados del análisis estadístico de la fuerza de cuádriceps y glúteo medio.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
FCD	GE	29,77 (16,38)	34,74 (18,95)	0,013 [-8,77:-1,16]; d=0,30
	GC	55,90 (23,43)	55,47 (27,18)	
	Análisis entre grupos	0,007 [-44,10:-8,13]; d=1,29	0,051 [-41,56:0,12];-	0,81 [-3,37:4,23];-
FCI	GE	29,81 (13,11)	35,28 (14,22)	0,020 [-9,97:-0,94] d=0,42
	GC	56,69 (21,93)	52,36 (22,20)	
	Análisis entre grupos	0,002 [-42,95:-10,80]; d=1,48	0,044 [-33,66:-0,49]; d=0,92	0,06 [-0,18:8,84];-
FGMD	GE	22,10 (7,47)	28,29 (6,40)	<0,001 [-8,90:-3,48]; d=0,83
	GC	28,69 (8,99)	28,02 (9,87)	
	Análisis entre grupos	0,76 [-13,95:0,75];-	0,93 [-7,12:7,67];-	0,61 [-2,03:3,39];-
FGMI	GE	21,83 (7,59)	27,01 (5,78)	0,003 [-8,32:-1,98]; d=0,68
	GC	31,45 (7,24)	28,53 (7,59)	
	Análisis entre grupos	0,006 [-16,21:-3,01]; d=1,29	0,66 [-8,70:5,63];-	0,07 [-0,25:6,08];-

Los datos se muestran con la media (desviación estándar). Los resultados de los análisis se muestran con p [95% CI]; d de Cohen. La p se considera estadísticamente significativa en el ANOVA cuando $p < 0,05$. GE: grupo experimental; GC: grupo control; FCD: fuerza cuádriceps derecha; FCI: Fuerza cuádriceps izquierda; FGMD: fuerza glúteo medio derecha; FGMI: fuerza glúteo medio izquierda.

Tabla 17. Resultados del análisis estadístico de la Kinesiofobia.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
TSK11	GE	25,55 (7,99)	23,91 (7,32)	0,23 [-1,15:4,42];-
	GC	27,09 (6,15)	26,18 (5,88)	0,50 [-1,88:3,69];-
	Análisis entre grupos	0,61 [-7,89:4,79];-	0,43 [-8,18:3,63];-	

Los datos se muestran con la media (desviación estándar). Los resultados de los análisis se muestran con p [95% CI]; d de Cohen. La p se considera estadísticamente significativa en el ANOVA cuando $p < 0,05$. GE: grupo experimental; GC: grupo control; TSK11: *Tampa scale for kinesophobia*.

3.2.6. Calidad de vida

Los resultados para la calidad de vida no mostraron cambios estadísticamente significativos en ninguna de las dimensiones, así como en la puntuación total de la escala.

La media (desviación estándar) o mediana (percentil 25-75) y los resultados de las comparaciones múltiples se muestran en la Tabla 18. No se encontraron tampoco diferencias estadísticamente significativas entre grupos previo y posterior a la intervención.

Tabla 18. Resultado del análisis estadístico de la calidad de vida.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
Salud física	GE	28,00 [22,00-29,00]	27,00 [23,00-30,00]	0,62; z=0,50;-
	GC	24,00 [16,00-27,00]	25,00 [22,00-27,00]	0,33; z=0,98;-
	Análisis entre grupos	0,16; z=1,42;-	0,34; z=0,95;-	
Actividades diarias	GE	13,00 [8,00-15,00]	14,00 [9,00-16,00]	0,67; z=0,42;-
	GC	9,00 [6,00-13,00]	11,00 [9,00-13,00]	0,20; z=1,29;-
	Análisis entre grupos	0,15; z=1,45;-	0,29; z=1,06;-	
Articulaciones	GE	9,00 [8,00-10,00]	10,00 [9,00-11,00]	0,10; z=1,63;-
	GC	8,00 [7,00-10,00]	11,00 [9,00-13,00]	0,75; z=0,31;-
	Análisis entre grupos	0,59; z=0,53;-	0,07; z=1,81;-	
Dolor	GE	5,00 [4,00-6,00]	6,00 [4,00-6,00]	0,17; z=1,38;-
	GC	5,00 [3,00-6,00]	6,00 [4,00-6,00]	0,32; z=1,00;-
	Análisis entre grupos	0,89; z=0,13;-	0,69; z=0,39;-	
Satisfacción con el tratamiento	GE	1,00 [0,00-2,00]	0,00 [0,00-1,00]	0,02; z=2,27;-
	GC	1,00 [0,00-2,00]	0,00 [0,00-1,00]	0,21; z=1,27;-
	Análisis entre grupos	0,89; z=0,14;-	0,37; z=0,88;-	
Dificultades con el tratamiento	GE	10,00 [9,00-11,00]	10,00 [8,00-11,00]	1,00; z=0,00;-
	GC	11,00 [7,00-12,00]	10,00 [7,00-12,00]	0,53; z=0,63;-
	Análisis entre grupos	0,62; z=0,50;-	0,97; z=0,03;-	
Funcionamiento emocional	GE	13,09 (4,53)	14,09 (5,15)	0,34 [-3,13:1,23];-
	GC	12,82 (4,99)	12,91 (3,67)	0,93 [-2,22:2,03];-
	Análisis entre grupos	0,89 [-3,96:4,51];-	0,54 [-2,80:5,16];-	

Tabla 18. Continuación

		PRE	POST	Análisis intra grupos
Salud mental	GE	8,00 [5,00-10,00]	9,00 [5,00-12,00]	0,03; z=2,23;-
	GC	9,00 [6,00-9,00]	8,00 [6,00-10,00]	0,64; z=0,47;-
	Análisis entre grupos	0,89; z=0,13;-	0,35; z=0,93;-	
Relaciones y actividad social	GE	18,00 [12,00-20,00]	20,00 [14,00-20,00]	0,28 z=1,06;-
	GC	18,00 [15,00-19,00]	17,00 [15,00-19,00]	0,73; z=0,34;-
	Análisis entre grupos	0,87; z=0,16;-	0,61; z=0,51;-	
Total	GE	107,00 [82,00-117,00]	109,00 [82,00-122,00]	0,24; z=1,17;-
	GC	102,00 [74,00-107,00]	100,00 [94,00-106,00]	0,88; z=0,15;-
	Análisis entre grupos	0,29; z=1,05;-	0,45; z=0,75;-	

Los datos se muestran con la media (desviación estándar) o con la mediana [rango intercuartil: 25-75 percentil]. Los resultados de los análisis se muestran con p [95% CI]; d de Cohen o con p; z test; r de Rosenthal. La p se considera estadísticamente significativa en el ANOVA cuando $p < 0,05$ y en las pruebas no paramétricas cuando $p < 0,0125$. GE: grupo experimental; GC: grupo control; QoL: calidad de vida.

3.2.7. Dolor

Los resultados de la prueba de Wilcoxon y la de U de Mann-Whitney en el “dolor últimas 24h” y “dolor última semana” no mostraron cambios estadísticamente significativos intragrupo.

La mediana (percentil 25-75) y los resultados de las comparaciones múltiples se muestran en la Tabla 19. Tampoco se observaron cambios significativos entre los grupos previo y posterior a la intervención.

Tabla 19. Resultados análisis estadístico dolor.

		PRE	POST	Análisis intra grupos
Dolor últimas 24h	GE	3 [0-4]	0 [0-5]	0,14; z=1,49;-
	GC	6 [0-7]	5 [0-6]	0,81; z=0,24;-
	Análisis	0,38;	0,13;	
	entre grupos	z=0,89;-	z=1,52;-	
Dolor última semana	GE	0 [0-7]	0 [0-5]	0,27; z=1,10;-
	GC	6 [0-8]	5 [2-7]	0,80; z=0,26;-
	Análisis	0,25;	0,04;	
	entre grupos	z=1,16;-	z=2,02;-	

Los datos se muestran con la mediana [rango intercuartil: 25-75 percentil]. Los resultados de los análisis se muestran con p; z test. La p se considera estadísticamente significativa en las pruebas no paramétricas cuando $p < 0,0125$. GE: grupo experimental; GC: grupo control.

3.2.8. Satisfacción con el programa y deseo de hacer ejercicio

Al acabar el programa de ejercicios, los participantes del GE contestaron además dos preguntas subjetivas, una sobre la satisfacción del programa y otra sobre el deseo de hacer ejercicio. El análisis descriptivo se muestra en la Tabla 20.

Resultados

Tabla 20. Análisis descriptivo de la satisfacción con el programa y deseo de realizar ejercicio.

	GE (n=11)
Satisfacción con el programa de ejercicios	
Muy satisfecho	8 (72,72%)
Algo satisfecho	1 (9,09%)
Insatisfecho	2 (18,18%)
Deseo de hacer ejercicio	
Igual	1 (9,09%)
Mejorado	10 (90,90%)
Peor	0

GE: grupo experimental

4.DISCUSIÓN

4.DISCUSIÓN

A raíz de los resultados, se puede afirmar que se ha cumplido parcialmente la hipótesis de este estudio, pues el programa multimodal de ejercicios de equilibrio y fuerza ha demostrado ser efectivo en la mejora del equilibrio, la funcionalidad, el riesgo de caídas y la fuerza. Sin embargo, no lo ha sido en la mejora de la kinesiophobia, la calidad de vida y el dolor.

A continuación, se expone el análisis de los resultados siguiendo el mismo orden que en el apartado de resultados.

4.1. EQUILIBRIO

EL programa propuesto fue efectivo para mejorar el equilibrio en el GE. Sin embargo, no hubo diferencias entre grupos.

Respecto al equilibrio **estático** hubo una disminución significativa en la variable “velocidad total media” en la prueba MND con la WBB® en el GE post intervención. Es decir, se consiguió disminuir la velocidad de balanceo del CDG durante las pruebas, lo que implica que los sujetos del GE consiguieron una mayor estabilidad en el apoyo monopodal de la pierna no dominante. En el estudio de Runkel *et al.*¹⁶⁸ se observaron resultados similares con cambios estadísticamente significativos en el equilibrio estático monopodal de una sola pierna en los PCH tras un programa de ejercicio donde se trabajaba la fuerza, el equilibrio, la movilidad y la resistencia. Sin embargo, son varios los estudios realizados en PCH en los que, tras la aplicación de un programa de ejercicios, no se observaron mejoras en el equilibrio

estático.¹⁰⁹⁻¹¹¹ Como por ejemplo el de Czepa *et al.*¹¹⁰ donde, tras un programa de entrenamiento domiciliario de fuerza, movilidad, estiramientos y equilibrio, no se obtuvieron mejoras significativas en esta variable.

Estudios en otras patologías que cursan con deterioro articular, también muestran esta dificultad en la mejora del equilibrio estático, como por ejemplo el de Blasco *et al.*, quienes tras un entrenamiento sensoriomotor previo a una cirugía de rodilla¹⁶⁹, no obtuvieron cambios en el equilibrio estático. De este modo, se puede observar que obtener mejorías estadísticamente significativas del equilibrio estático en poblaciones con deterioro articular es complejo. Es posible, que los cambios obtenidos en la prueba MND sean debidos a una diferencia musculoesquelética entre ambas piernas debido a mayores sangrados en una pierna que en otra. Así pues, sería interesante para futuras investigaciones realizar un estudio más específico, sobre el equilibrio estático y sobre el mínimo cambio detectable (MCD) en los PCH diferenciándolos también según su tratamiento y actividad física.

Por otro lado, en el equilibrio **dinámico**, en la prueba de los límites de estabilidad, se observó en el GE una reducción estadísticamente significativa en el tiempo de confinamiento (s), además de un aumento estadísticamente significativo en las variables control de dirección (%), desplazamiento máximo (%) y valoración final (%). En definitiva, los pacientes del GE mejoraron la velocidad de respuesta al iniciar el movimiento hacia sus límites de estabilidad, además de aumentar el desplazamiento y la estabilidad a la hora de alcanzar cada límite.

Estos resultados difieren de los obtenidos por Hill *et al.*¹⁰⁹ en los cuales no hubo cambios estadísticamente significativos en las pruebas de equilibrio estático ni en las de los límites de estabilidad en el GE. Estas diferencias pueden ser debidas a que su programa de ejercicios de equilibrio era domiciliario, individual, sin supervisión por parte de un fisioterapeuta y con un bajo nivel de adherencia, lo cual difiere del nuestro, en el que el trabajo en grupos supervisados pudo ser la causa de la alta adherencia al programa y de los resultados obtenidos.

Respecto a los resultados de equilibrio estático cuando se asoció a la **tarea dual cognitiva** de contar hacia atrás de tres en tres, hubo una mejoría en el GE, sin embargo, esta mejoría no fue estadísticamente significativa. Cruz-Montecinos *et al.* demostraron cómo los PCH tienen un menor rendimiento para controlar su postura durante las TD en comparación con personas sanas¹⁰². Por lo tanto, es posible que la frecuencia del entrenamiento de TD en nuestro programa no fuese suficiente o la tarea no resultara lo suficientemente complicada como para obtener resultados positivos. Sería interesante para futuras investigaciones implementar otras estrategias de TD más específicas para esta población.

De hecho, el entrenamiento de equilibrio y TD ha demostrado ser efectivo en otras poblaciones. Por ejemplo, la investigación de Demirdel *et al.*¹⁷⁰, en pacientes con amputación transfemoral, demostró la efectividad de un programa combinado con ejercicios de equilibrio (estático y dinámico) y tareas duales en la mejora de la estabilidad, el nivel cognitivo y la automatización de los movimientos, frente a un GC que solo realizó ejercicios de equilibrio sin TD. Del

mismo modo, en la revisión sistemática de Ghai *et al.*¹⁷¹ sobre los efectos de un entrenamiento de tareas duales en la estabilidad postural, se reafirmó la importancia de introducir este tipo de ejercicios en el entrenamiento de diversas poblaciones como personas con ictus o personas mayores, para mejorar sus habilidades cognitivo-motoras y su estabilidad postural. En la revisión también destacan la relevancia de la verbalización durante las TD, al igual que se hizo en nuestro programa, para aumentar la interferencia cognitivo-motora y obtener mejores resultados.

Por otro lado, de forma subjetiva se analizó la “percepción del equilibrio” y la “percepción del equilibrio en actividades externas” de los participantes tras la intervención. En ambos casos se obtuvieron mejoras significativas en el GE y entre grupos. Esto es más destacable si tenemos en cuenta que el GE partía de una peor percepción de equilibrio que el GC.

Esta es una buena forma de conocer la percepción del efecto del programa desde el punto de vista de los PCH. Flaherty *et al.*¹⁷² realizaron una investigación donde se describía la opinión de 14 PCH y su experiencia sobre el equilibrio, el riesgo de caerse y el ejercicio. De este modo, cada vez se está dando más importancia a la opinión del paciente, por ello este apartado nos parece de gran relevancia ya que así obtenemos no solo datos objetivos de la intervención y sus efectos sino también la percepción del efecto del mismo en los PCH.

4.2. FUNCIONALIDAD

El programa de ejercicios mejoró la funcionalidad de los participantes ya que hubo una mejoría estadísticamente significativa en los dominios “función de piernas” y “actividad compleja de piernas” en el HAL y en las pruebas funcionales.

Respecto a la funcionalidad auto percibida medida con el HAL, los resultados demuestran una coherencia acorde con el programa de intervención realizado, ya que los dominios que han mejorado pertenecen a funciones de los MMII, mientras que en los dominios de funcionalidad de brazos no hubo mejoras significativas. Dado que en este programa de entrenamiento se combinaron ejercicios multimodales de equilibrio y ejercicios de fuerza, no es de extrañar la falta de resultados en los dominios de funcionalidad de MMSS, y ello a su vez puede haber influido en la puntuación total del HAL. Aun así, los resultados obtenidos en el HAL confirman la eficacia del programa para la mejora de la funcionalidad de miembros inferiores en PCH. Estos resultados van en línea con los obtenidos por Cruz-Montecinos *et al.*¹⁷³, donde tras un entrenamiento moderado-vigoroso con bandas elásticas en PCH, obtuvieron resultados similares en el HAL con un aumento de la funcionalidad en los miembros inferiores.

En esta población, es importante identificar lo antes posible, si existe algún déficit en la movilidad funcional y en el equilibrio para prevenir futuras caídas y sangrados.^{75,134-136,138} Debido a lo cual, en este estudio se utilizaron diferentes pruebas objetivas para aumentar así la fiabilidad de los resultados (TUG, STST y el 2MWT).

Así pues, en las pruebas funcionales objetivas (2MWT, TUG y STST) sí que se encontraron mejorías significativas pre-post intervención en el GE. Estos resultados van en línea con los presentados por Lobet *et al.*¹⁷⁴ donde los participantes tras un programa de entrenamiento de fuerza, movilidad y propiocepción mejoraron en las pruebas de TUG y 2MWT. Cabe destacar, que en nuestra investigación se hallaron diferencias entre los grupos previamente a la intervención en la prueba de 2MWT, lo que puede haber influido en los resultados tras finalizar el programa, haciendo que no se aprecien diferencias entre grupos a pesar de la evidente mejora en el GE.

Nuestros resultados también van en línea con los obtenidos por Calatayud *et al.*⁷⁵ que obtuvieron una mejora de la funcionalidad medida con los test TUG y STST tras un programa de fortalecimiento moderado-vigoroso con bandas elásticas. En cambio, Moreno-Segura *et al.*,¹⁷⁵ tras un programa de fuerza-resistencia con intensidades similares a las trabajadas en nuestro protocolo, combinadas con terapia cognitivo-conductual (TCC), no obtuvieron ninguna mejora significativa en las pruebas funcionales (TUG, STST y 2MWT). Estos resultados se pueden deber a que el estudio de Moreno-Segura *et al.*,¹⁷⁵ se realizó de forma domiciliaria, siendo la mayoría de las sesiones sin supervisión, mientras que en nuestro programa y en el de Calatayud *et al.*⁷⁵, todas las sesiones se realizaron de forma supervisada, lo que podría también haber influido en los resultados.

Por otro lado, la prueba TUG también se utiliza para valorar el equilibrio dinámico¹⁷⁶, por lo que nuestros resultados están indicando no solo una mejora de la funcionalidad del GE sino también una mejora

en el equilibrio dinámico, lo que concuerda con los resultados explicados previamente. Del mismo modo, la prueba de STST se usa para valorar la funcionalidad y la fuerza en miembros inferiores¹⁷⁷ por lo que las mejoras obtenidas en el STST también implican un aumento de la fuerza, lo cual coincide con los resultados de fuerza que se explican posteriormente.

Con estos hallazgos podemos concluir que, la introducción de ejercicios no solo de fuerza sino también de equilibrio en las sesiones con el fisioterapeuta o en la rutina de actividad física habitual, son de suma importancia, no solo por las mejoras en el equilibrio y fuerza sino por la aportación que hacen en el aumento de la funcionalidad en los PCH.

4.3. RIESGO DE CAÍDAS

El GE disminuyó significativamente el riesgo de caídas pre-post intervención tanto en la prueba mFES como en la de BBS. Sin embargo, no se encontraron diferencias ente grupos.

La escala BBS no se ha utilizado en PCH, sin embargo, se ha validado como una herramienta fiable y con una alta especificidad para demostrar el riesgo de caídas en personas mayores y otras poblaciones.¹⁷⁸⁻¹⁸⁰

Con respecto al mFES, en el estudio de Hill *et al.*¹⁰⁹ a pesar de obtener mejoras en los resultados de la escala tras la intervención, estas no fueron significativas. Es posible que al ser un programa en el cual se realizaban los ejercicios sin supervisión por parte del fisioterapeuta no

se hicieran con la intensidad adecuada. Por su parte, en la revisión sistemática de Sherrington *et al.*¹⁸¹, se afirma que la clave para disminuir el riesgo de caídas no es solo realizar un entrenamiento con ejercicios de equilibrio, sino que se hagan con una intensidad moderada. Por eso mismo, en nuestro estudio se personalizó el entrenamiento de cada participante adaptando la intensidad a cada uno de ellos, procurando que llegaran a trabajar con intensidades moderadas (comenzando con un RPE: 3-4 y finalizando con un RPE: 6-7 en las semanas 11-12).

Por otro lado, según Taylor *et al.*¹⁸² y Cruz-Montecinos *et al.*¹⁰⁰ el aumento de la estabilidad en PCH ayuda a disminuir el riesgo de caídas¹⁸² y la sobrevigilancia que tienen debido a la disminución del control postural y de la propiocepción que sufren por los sucesivos sangrados intraarticulares y el desarrollo de AH.¹⁰⁰ También es un punto importante para los PCH ya que, su esperanza de vida cada vez es mayor. Es conocido como el envejecimiento se relaciona con una pérdida de equilibrio y un incremento exponencial del riesgo de caídas junto con otras comorbilidades propias de la edad. Por ello, cada vez más es de suma importancia introducir el ejercicio físico incluyendo trabajo de equilibrio para disminuir no solo los riesgos que pueden tener por ser PCH sino también los riesgos adquiridos por el envejecimiento.^{183,184}

Así pues, los resultados obtenidos en la presente investigación aportan pruebas de que la introducción de un entrenamiento multimodal en el cual se trabaje el equilibrio estático, dinámico y las TD en PCH mejora su equilibrio dinámico, funcionalidad y reduce el riesgo de caídas.

4.4. FUERZA

El programa multimodal fue efectivo para mejorar la fuerza en MMII ya que en la evaluación final se obtuvo un incremento significativo de la fuerza. En la evaluación basal se hallaron diferencias significativas entre GE-GC en la fuerza de cuádriceps y glúteo medio izquierdo, siendo mayor en el GC. Del mismo modo, tras la intervención hubo una diferencia significativa entre los grupos en la fuerza del glúteo medio izquierdo, siendo también mayor la fuerza en el GC.

Cabe destacar que las variables demográficas y clínicas de ambos grupos eran homogéneas, sin diferencias en la actividad física que realizaban antes de entrar al programa ni en la salud articular. Sin embargo, estas diferencias de fuerza previas al programa pueden explicar las desigualdades entre GC-GE halladas también en el test funcional 2MWT. Esto concuerda con la investigación del Stephensen *et al.*¹⁸⁵ en la cual se demuestra que hay una relación entre las alteraciones de la marcha y los cambios en el rendimiento de la función física con respecto a la fuerza muscular en los PCH. Asimismo, se ha comprobado cómo la fuerza en las piernas y el tronco ayudan a mejorar el equilibrio y a disminuir el riesgo de caídas.⁶⁵ Por todo esto, es razonable pensar que las diferencias de fuerza entre los grupos también hayan podido ocasionar diferencias en la variable 2MWT y en el equilibrio.

No obstante, tras la intervención se obtuvieron mejoras significativas en la fuerza de todos los músculos evaluados, así como en la funcionalidad y en los límites de estabilidad del GE. Estos resultados son similares a los obtenidos por Calatayud *et al.*⁷⁵ en el cual, tras un

programa de ejercicios de intensidad moderada-vigorosa con bandas elásticas, se obtuvieron mejoras en la fuerza y funcionalidad tras la intervención.

4.5. KINESIOFOBIA

Una variable en la que no se observaron mejorías es en la kinesiophobia, es decir, los pacientes del GE no mostraron menos miedo al movimiento ni menos preocupación por si este empeoraba su condición clínica tras la intervención. Tampoco hubo diferencias significativas entre grupos.

No hay estudios en PCH que combinen un programa multimodal de ejercicios de equilibrio y fuerza y evalúen su influencia en la kinesiophobia. En cambio, sí que existen tres estudios en PCH, en los cuales se completó un programa de ejercicios y se midió la kinesiophobia. Uno de estos estudios es el de Salim *et al.*¹⁸⁶, donde se evaluó el efecto de un entrenamiento de marcha nórdica durante 3 meses en PCH sobre la kinesiophobia y tampoco se obtuvieron mejoras significativas. Del mismo modo, en el estudio de Calatayud *et al.*⁷⁵ tampoco se obtuvieron cambios significativos. Sin embargo, en el estudio de Moreno-Segura *et al.*¹⁷⁵, donde implementó un programa multimodal, combinando ejercicio terapéutico junto con TCC y en el cual trabajaron específicamente la kinesiophobia en una de las sesiones, sí se obtuvieron cambios significativos en esta variable. Con estos resultados parece evidente que hacer un programa de ejercicios por sí solo no va a conseguir mejorar esta variable psicosocial. Además, los bajos niveles de kinesiophobia que mostraban nuestros participantes

antes de iniciar el estudio y el hecho de que la mayoría de los participantes en el GE practicaban ejercicio una o más veces por semana (81,81%), puede haber influido en los resultados.

Así pues, para observar una mejora en el miedo al movimiento y cortar con el círculo vicioso de inactividad, atrofia muscular, dolor, discapacidad, depresión,¹⁸⁷ mayor riesgo de sangrados y por consiguiente la aparición de AH,¹⁸⁸ podría ser necesario complementar un programa de ejercicios terapéuticos junto con TCC. Además, los programas multidisciplinares que combinan entrenamiento físico y educación parecen ser más eficaces para reducir la kinesiofobia, al menos en sujetos con dolor crónico.¹⁸⁹

Por lo tanto, este tipo de combinación debe tenerse en consideración en futuros programas para esta población, ya que se obtendrá un mayor beneficio al trabajar no solo la parte física, sino también, aspectos psicosociales como la creencia desadaptativa y el comportamiento de evitación relacionado con la kinesiofobia de los PCH.

4.6. CALIDAD DE VIDA

El programa no fue efectivo para provocar una mejoría en la calidad de vida de los PCH. A pesar de que se ha demostrado la efectividad del ejercicio terapéutico sobre la calidad de vida de los PCH tal como señala la revisión de Negrier *et al.*⁶⁵ y los estudios de Runkel *et al.*^{168,190}, no se han demostrado los beneficios de un programa multimodal de equilibrio en esta población. Es posible que al ser un programa tan específico no influya directamente en todos los aspectos que impactan

en la calidad de vida de los PCH y por eso no se han obtenido resultados significativos. En el estudio de Ucerro-Lozano *et al.*¹⁹¹ se demuestra que las variables que más se correlacionan con la calidad de vida en los PCH son la kinesiofobia, el catastrofismo, la percepción del dolor y los fármacos, y en nuestro estudio no se ha producido una mejoría ni de kinesiofobia ni de dolor, por lo que es coherente que no mejore la calidad de vida. Es por eso, que en programas combinados como el de Moreno-Segura *et al.*¹⁷⁵ donde trabajan no solo a nivel físico sino también abordan temas como el dolor crónico, el miedo al movimiento, la autoestima y el estado emocional, se obtengan cambios significativos en la calidad de vida. No obstante, hay que tener en cuenta que los sujetos del estudio de Moreno-Segura *et al.*,¹⁷⁵ ya partían con valores medios de calidad de vida muy bajos [valor medio QoL (DE) = 57,90 (30,44)]. En cambio, nuestro GE partió con altos valores medios de calidad de vida [valor medio QoL (DE) = 101,20 (23,32)], siendo entonces muy difícil obtener mejoras tras la intervención. En este sentido, Goldberg *et al.*¹⁹² afirmaron que un elevado nivel de kinesiofobia está asociado con una baja calidad de vida. Por lo tanto, el hecho de que nuestro GE tuviera un bajo nivel de kinesiofobia y un elevado nivel de calidad de vida previa a la intervención puede haber influido en los resultados finales.

4.7. DOLOR

En el presente estudio el GE no presentó una reducción significativa ni en el dolor de las últimas 24h ni en el dolor durante la última semana. Tampoco hubo diferencias entre grupos. Numerosos estudios¹⁹³⁻¹⁹⁵

han demostrado la eficacia del ejercicio físico terapéutico en la reducción del dolor. Tras nuestro programa se produjo una reducción del dolor a las 24 horas en el GE de tres puntos, cumpliendo el MCD de dos puntos descrito por Dworkin *et al.*¹⁹⁶ para una escala numérica de dolor. Así pues, el GE sí que tuvo mejoras clínicamente importantes en el dolor tras la intervención, a pesar de no ser significativas.

Es posible que valorar el dolor de los PCH únicamente con la escala EVA no sea suficiente para abarcar todos los aspectos que influyen en el dolor (físico, psicológico, emocional, social, creencias propias, etc.) que ellos pueden tener. Esto es debido a que los PCH cursan con dolor desde la infancia, ya sea por el tratamiento vía intravenosa, por los hemartros, las operaciones o el dolor crónico asociado a la AH.⁴ Por consiguiente, tienen dolor casi diario con un promedio de 5/10¹⁹⁷ que les afecta en sus actividades de la vida diaria, tanto física, social como psicológicamente. Así pues, en futuras investigaciones sería interesante agregar a nuestro programa de ejercicios un apartado de educación en el dolor para observar de forma más completa el impacto de esta intervención en el dolor de los PCH.

4.8. SATISFACCIÓN CON EL PROGRAMA Y DESEO DE HACER EJERCICIO

Por otro lado, de forma subjetiva se analizó la “satisfacción con el programa de ejercicios” y el “deseo de hacer ejercicio” de los participantes del GE tras la intervención. Con respecto a la satisfacción, 8 PCH (72,72%) indicaron que estaban muy satisfechos con el programa de ejercicios y 10 PCH (90,90%) que había mejorado su

deseo de hacer ejercicio en su día a día. Esta es una buena forma de saber no solo si el programa ha tenido efecto en las distintas variables a estudiar, sino, si el programa es adecuado y atractivo desde el punto de vista de los PCH, lo que puede favorecer la adherencia.

4.9. LÍMITACIONES

En relación con las limitaciones del estudio hay que señalar que el reducido tamaño de la muestra podría limitar la generalización de los resultados. No obstante, cabe destacar que el número de participantes reclutados (n=22) superó el mínimo calculado mediante el análisis de potencia *a priori* (n=20). Además, se ha de tener en cuenta que la hemofilia es una enfermedad rara con una incidencia baja (Unión Europea: <5 casos por 10.000 personas)¹ y que, para el paciente el desplazamiento a los laboratorios de investigación y la adherencia a lo largo del tiempo en intervenciones de esta índole, suponen un gran esfuerzo.

Del mismo modo, la aparición del COVID-19 en febrero de 2020 paralizó el desarrollo del programa teniendo que volver a comenzar en septiembre de 2020. Esto no solo retrasó su desarrollo, sino que complicó el reclutamiento de los sujetos, dado que los PCH tenían miedo de contagiarse y no querían salir de casa, a pesar de que se les aseguraba que se cumplían todas las normativas de higiene, ventilación y seguridad contra el COVID-19 en la sala de intervención.

A nivel metodológico, este estudio presenta también dos limitaciones importantes. Por un lado, no se pudo realizar una aleatorización ni un cegado de los participantes. Por las sesiones presenciales y la

capacidad de compromiso con el programa por parte de los participantes, se llevó a cabo un muestreo por conveniencia.

Por otro lado, aunque sí se realizó un análisis de la adherencia al programa, el cual fue del 100%, no se hizo una medición a largo plazo de los efectos del ejercicio.

En base a todo ello, son necesarias investigaciones con una mayor calidad metodológica, tamaño muestral y con una evaluación a largo plazo que apoyen o refuten la eficacia de esta intervención multimodal de equilibrio y fuerza.

4.10. FORTALEZAS

En cuanto a las fortalezas, en primer lugar, podemos destacar que este es el primer estudio que pone a prueba una intervención multimodal de equilibrio estático, dinámico y TD combinada con ejercicios de fuerza en PCH. Además, en base a todo lo descrito anteriormente y teniendo en cuenta la relevancia clínica de las variables en las que se producen mejorías significativas, el programa ha mostrado un grado de eficacia satisfactorio.

En segundo lugar, señalar la importancia de este programa multimodal, que aborda los problemas físicos de las PCH de manera individualizada. Mientras que la mayoría de las intervenciones plantean un entrenamiento general, en este caso se realizaron sesiones de ejercicio terapéutico dirigido en grupo, pero individualizando los ejercicios, de forma segura y adaptándolos a cada

paciente, a su pauta habitual de profilaxis y sus necesidades específicas.

En tercer lugar, este programa es reproducible dado que se expone una descripción detallada del mismo a lo largo de este trabajo. Por su parte, es importante destacar el fácil acceso, manejo y transporte del material empleado en la intervención. Las bandas elásticas, el foam o las pelotas son herramientas económicas y viables para cualquier sujeto. Esto facilita que el programa se pueda realizar tanto en un ámbito hospitalario o clínico, como de forma domiciliaria. Además, Babu *et al.*,¹⁹⁸ y Calatayud *et al.*,^{75,199} demostraron que el uso de las bandas elásticas es seguro en los PCH incluso con una intensidad moderada-vigorosa.

Así pues, queda claro que este programa está diseñado de manera que pueda ser reproducido fácilmente por otro profesional sanitario y de forma segura, ya que ningún paciente desarrolló ningún sangrado durante la fase experimental como resultado de la intervención. Esto hace al programa multimodal de ejercicios de equilibrio y fuerza una opción válida en PCH.

Además, la mejora del equilibrio, funcionalidad y fuerza y la disminución el riesgo de caídas son un objetivo terapéutico en esta población, ya que, a causa de los sangrados suelen presentar alteración articular y funcional que afecta al equilibrio. Igualmente, cada vez es de mayor importancia trabajar estos aspectos, debido a que el envejecimiento en los PCH está aumentando y a su vez esto provoca una disminución del equilibrio y un aumento del riesgo de caídas que ya tienen de base afectados. Así pues, a la luz de todo lo

descrito anteriormente, consideramos que la futura aplicación de protocolos de ejercicio terapéutico que combinan ejercicios multimodales de equilibrio (estático dinámico y TD) junto a fortalecimiento muscular puede tener un impacto positivo en este colectivo, pudiendo ser incorporado como un complemento para la rehabilitación o mantenimiento de la salud articular.

5. CONCLUSIONES

5.CONCLUSIONES

En base a los resultados obtenidos, del presente estudio podemos extraer las siguientes conclusiones:

1. El programa multimodal de ejercicios de equilibrio (estático, dinámico y tarea dual) y fuerza fue efectivo para mejorar el equilibrio dinámico en PCH.
2. El programa multimodal de ejercicios de equilibrio (estático, dinámico y tarea dual) y fuerza fue eficaz para mejorar la funcionalidad en los PCH.
3. El programa multimodal de ejercicios de equilibrio (estático, dinámico y tarea dual) y fuerza disminuyó el riesgo de caídas en los PCH.
4. El programa multimodal de ejercicios de equilibrio (estático, dinámico y tarea dual) y fuerza fue eficaz para mejorar la fuerza en miembros inferiores de los PCH.
5. El programa multimodal de ejercicios de equilibrio (estático, dinámico y tarea dual) y fuerza no produjo cambios respecto a la kinesiophobia o el miedo al movimiento en los PCH.
6. El programa multimodal de ejercicios de equilibrio (estático, dinámico y tarea dual) y fuerza no mejoró la calidad de vida de los PCH.
7. El programa multimodal de ejercicios de equilibrio (estático, dinámico y tarea dual) y fuerza no disminuyó el dolor de los PCH.

8. El programa multimodal de ejercicios de equilibrio (estático, dinámico y tarea dual) y fuerza fue satisfactorio y aumentó el deseo de hacer ejercicio de los PCH.

Como conclusión general, el programa multimodal de ejercicios de equilibrio (estático, dinámico y tareas duales) y fuerza, mejoró el equilibrio dinámico, la funcionalidad, la fuerza y disminuyó el riesgo de caídas en los PCH. Además, los participantes en el GE manifestaron una alta satisfacción con el programa y un aumento en el deseo de hacer ejercicio.

6.REFERENCIAS

6.REFERENCIAS

1. Iorio A, Stonebraker JS, Chambost H, et al. Establishing the Prevalence and Prevalence at Birth of Hemophilia in Males: A Meta-analytic Approach Using National Registries. *Ann Intern Med.* 2019;171(8):540.
2. Nathwani AC. Gene therapy for hemophilia. *Hematology Am Soc Hematol Educ Program.* 2019 Dec 6;2019(1):1-8.3.
3. Jansen NWD, Roosendaal G, Lafeber FPJG. Understanding haemophilic arthropathy: an exploration of current open issues. *Br J Haematol.* 2008;143(5):632-40.
4. Srivastava A, Santagostino E, Dougall A, et al. WFH Guidelines for the Management of Hemophilia, 3rd edition. *Haemophilia.* 2020;26(S6):1-158.
5. Khosla N, Valdez R. A compilation of national plans, policies and government actions for rare diseases in 23 countries. *Intractable Rare Dis Res.* 2018 Nov;7(4):213-222.
6. Inherited blood clotting disorders: report of a WHO scientific group. *World Health Organ.* August 1971;48.
7. Aznar JA, Lucía F, Abad-Franch L, et al. Haemophilia in Spain. *Haemophilia.* 2009;15(3):665-75.

Referencias

8. Aznar JA, Altisent C, Álvarez-Román MT, et al. Moderate and severe haemophilia in Spain: An epidemiological update. *Haemophilia*. 2018;24(3): e136-39.
9. Mingot-Castellano M-E, Pardos-Gea J, Haya S, et al. Management of acquired hemophilia A: results from the Spanish registry. *Blood Adv*. 2021;5(19):3821-29.
10. Verbruggen B, Meijer P, NOVÁKOVA I, et al. Diagnosis of factor VIII deficiency. *Haemophilia*. 2008;14(s3):76-82.
11. Peyvandi F, Garagiola I, Young G. The past and future of haemophilia: diagnosis, treatments, and its complications. *The Lancet*. 2016;388(10040):187-97.
12. Miller CH, Bean CJ. Genetic causes of haemophilia in women and girls. *Haemophilia*. 2021;27(2).
13. Basta M, Pandya AM. Genetics, X-Linked Inheritance. In: StatPearls. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2021.
14. Lobet S, Hermans C, Lambert C. Optimal management of hemophilic arthropathy and hematomas. *J Blood Med*. 2014; 17;5:207-18.
15. Knobe K, Berntorp E. Haemophilia and Joint Disease: Pathophysiology, Evaluation, and Management. *J Comorbidity*. 2011;1(1):51-59.
16. Timmer MA, Pisters MF, de Kleijn P, et al. Differentiating between signs of intraarticular joint bleeding and chronic arthropathy

in haemophilia: a narrative review of the literature. *Haemophilia*. 2015;21(3):289-96.

17. Dunn AL. Pathophysiology, diagnosis and prevention of arthropathy in patients with haemophilia: HAEMOPHILIC ARTHROPATHY: PATHOPHYSIOLOGY-PREVENTION. *Haemophilia*. 2011;17(4):571-78.

18. Gualtierotti R, Solimeno LP, Peyvandi F. Hemophilic arthropathy: Current knowledge and future perspectives. *J Thromb Haemost*. 2021;19(9):2112-21.

19. Lee CA, Kessler CM, Varon D, et al. Synovium in haemophilic arthropathy. *Haemophilia*. 1998;4(4):502-5.

20. Wen F-Q, Jabbar AA, Chen Y-X, et al. c-myc proto-oncogene expression in hemophilic synovitis: in vitro studies of the effects of iron and ceramide. *Blood*. 2002;100(3):912-16.

21. Hakobyan N, Kazarian T, Jabbar AA, et al. Pathobiology of hemophilic synovitis I: overexpression of mdm2 oncogene. *Blood*. 2004;104(7):2060-64.

22. Bhat V, Olmer M, Joshi S, et al. Vascular remodeling underlies rebleeding in hemophilic arthropathy: Vascular Remodeling in Hemophilic Arthropathy. *Am J Hematol*. 2015;90(11):1027-35.

23. Vulpen LFD, Thomas S, Keny SA, et al. Synovitis and synovectomy in haemophilia. *Haemophilia*. 2021;27(S3):96-102.

24. Lafeber FPJG, Miossec P, Valentino LA. Physiopathology of haemophilic arthropathy. *Haemophilia*. 2008;14(s4):3-9.
25. Jansen NWD, Roosendaal G, Bijlsma JWJ, et al. Exposure of human cartilage tissue to low concentrations of blood for a short period of time leads to prolonged cartilage damage: An in vitro study. *Arthritis Rheum*. 2007;56(1):199-207.
26. Hooiveld MJJ, Roosendaal G, Vianen ME, et al. Immature articular cartilage is more susceptible to blood-induced damage than mature articular cartilage: An in vivo animal study. *Arthritis Rheum*. 2003;48(2):396-403.
27. Zhu H, Meng Y, Tong P, et al. Pathological mechanism of joint destruction in haemophilic arthropathy. *Mol Biol Rep*. 2021;48(1):969-74.
28. van Vulpen LFD, Holstein K, Martinoli C. Joint disease in haemophilia: Pathophysiology, pain and imaging. *Haemophilia*. 2018;24:44-49.
29. Melchiorre D, Manetti M, Matucci-Cerinic M. Pathophysiology of Hemophilic Arthropathy. *J Clin Med*. 2017;6(7):63.
30. Pettersson H, Ahlberg A, Nilsson I. A radiologic classification of hemophilic arthropathy. *Clin Orthop Relat Res*. 1980;149:153-59.
31. Lundin B, Pettersson H, Ljung R. A new magnetic resonance imaging scoring method for assessment of haemophilic arthropathy. *Haemophilia*. 2004;10(4):383-89.

32. Martinoli C, Alberighi OD, Di Minno G, et al. Development and definition of a simplified scanning procedure and scoring method for Haemophilia Early Arthropathy Detection with Ultrasound (HEAD-US). *Thromb Haemost.* 2013;109(06):1170-79.
33. Hilliard P, Funk S, Zourikian N, et al. Hemophilia joint health score reliability study. *Haemophilia.* 2006;12(5):518-25.
34. St-Louis J, Abad A, Funk S, Tilak M, Classey S, Zourikian N, McLaughlin P, Lobet S, et al. The Hemophilia Joint Health Score version 2.1 Validation in Adult Patients Study: A multicenter international study. *Res Pract Thromb Haemost.* 2022 Mar 25;6(2):e12690.
35. Yeung CM, Blazar P. Unusual olecranon mass with ulnar nerve compressive neuropathy caused by a haemophilic pseudotumour. *BMJ Case Rep.* 2019;12(9):e231589.
36. Rodriguez-Merchan EC. The haemophilic pseudotumour: THE HAEMOPHILIC PSEUDOTUMOUR. *Haemophilia.* 2002;8(1):12-16.
37. Blanchette VS, Key NS, Ljung LR, Manco-Johnson MJ, van den Berg HM, Srivastava A; Subcommittee on Factor VIII, Factor IX and Rare Coagulation Disorders of the Scientific and Standardization Committee of the International Society on Thrombosis and Hemostasis. Definitions in hemophilia: communication from the SSC of the ISTH. *J Thromb Haemost.* 2014 Nov;12(11):1935-9.
38. Fischer K, Ljung R. Primary prophylaxis in haemophilia care: Guideline update 2016. *Blood Cells Mol Dis.* 2017;67:81-85.

Referencias

39. Nijdam A, Kurnik K, Liesner R, et al. How to achieve full prophylaxis in young boys with severe haemophilia A: different regimens and their effect on early bleeding and venous access. *Haemophilia*. 2015;21(4):444-50.
40. Mancuso ME, Male C, Kenet G, et al. Prophylaxis in children with haemophilia in an evolving treatment landscape. *Haemophilia*. 2021;27(6):889-96.
41. Peters R, Harris T. Advances and innovations in haemophilia treatment. *Nat Rev Drug Discov*. 2018;17(7):493-508.
42. Iannazzo S, Cortesi PA, Crea R, et al. Cost-effectiveness analysis of pharmacokinetic-driven prophylaxis vs. standard prophylaxis in patients with severe haemophilia A. *Blood Coagul Fibrinolysis*. 2017;28(6):425-30.
43. Megías-Vericat JE, Bonanad S, Haya S, et al. Clinical benefits of a Bayesian model for plasma-derived factor VIII/VWF after one year of pharmacokinetic-guided prophylaxis in severe/moderate hemophilia A patients. *Thromb Res*. 2021;205:99-105.
44. Mancuso ME, Mahlangu JN, Pipe SW. The changing treatment landscape in haemophilia: from standard half-life clotting factor concentrates to gene editing. *The Lancet*. 2021;397(10274):630-40.
45. Arruda VR, Doshi BS, Samelson-Jones BJ. Novel approaches to hemophilia therapy: successes and challenges. *Blood*. 2017;130(21):2251-56.

46. Callaghan MU, Negrier C, Paz-Priel I, et al. Long-term outcomes with emicizumab prophylaxis for hemophilia A with or without FVIII inhibitors from the HAVEN 1-4 studies. *Blood*. 2021;137(16):2231-42.
47. Pasi KJ, Lissitchkov T, Mamonov V, et al. Targeting of antithrombin in hemophilia A or B with investigational siRNA therapeutic fitusiran—Results of the phase 1 inhibitor cohort. *J Thromb Haemost*. 2021;19(6):1436-46.
48. Shapiro AD, Angchaisuksiri P, Astermark J, et al. Subcutaneous concizumab prophylaxis in hemophilia A and hemophilia A/B with inhibitors: phase 2 trial results. *Blood*. 2019;134(22):1973-82.
49. George LA, Monahan PE, Eyster ME, et al. Multiyear Factor VIII Expression after AAV Gene Transfer for Hemophilia A. *N Engl J Med*. 2021;385(21):1961-73.
50. Sharma A, Easow Mathew M, Sriganesh V, et al. Gene therapy for haemophilia. Cochrane Cystic Fibrosis and Genetic Disorders Group, editor. *Cochrane Database Syst Rev*. 2020;4(4):1-18.
51. Ljung R, Auerswald G, Benson G, et al. Inhibitors in haemophilia A and B: Management of bleeds, inhibitor eradication and strategies for difficult-to-treat patients. *Eur J Haematol*. 2019;102(2):111-22.
52. Osooli M, Berntorp E. Inhibitors in haemophilia: what have we learned from registries? A systematic review. *J Intern Med*. 2015;277(1):1-15.

Referencias

53. Saint-Remy J-MR, Lacroix-Desmazes S, Oldenburg J. Inhibitors in haemophilia: pathophysiology. *Haemophilia*. 2004;10(s4):146-51.
54. Leissinger CA. Prophylaxis in haemophilia patients with inhibitors. *Haemophilia*. 2006;12(s6):67-73.
55. Kreuz W, Ettingshausen CE. Inhibitors in patients with haemophilia A. *Thromb Res*. 2014;134:S22-26.
56. Franchini M, Mannucci PM. Past, present and future of hemophilia: a narrative review. *Orphanet J Rare Dis*. 2012 May 2;7:24.
57. Franchini M, Mannucci PM. Co-morbidities and quality of life in elderly persons with haemophilia. *Br J Haematol*. 2010;148(4):522-33.
58. Bago M, Butkovic A, Preloznic Zupan I, et al. Association between reported medication adherence and health-related quality of life in adult patients with haemophilia. *Int J Clin Pharm*. 2021;43(6):1500-1507.
59. Lobet S, Timmer M, Königs C, et al. The Role of Physiotherapy in the New Treatment Landscape for Haemophilia. *J Clin Med*. 2021;10(13):2822.
60. Schäfer GS, Valderramas S, Gomes AR, et al. Physical exercise, pain and musculoskeletal function in patients with haemophilia: a systematic review. *Haemophilia*. 2016;22(3).
61. Donoso-Úbeda E, Meroño-Gallut J, López-Pina JA, et al. Safety and effectiveness of fascial therapy in adult patients with hemophilic

- arthropathy. A pilot study. *Physiother Theory Pract.* 2018;34(10):757-64.
62. Cuesta-Barriuso R, Gómez-Conesa A, López-Pina J-A. Effectiveness of two modalities of physiotherapy in the treatment of haemophilic arthropathy of the ankle: a randomized pilot study. *Haemophilia.* 2014;20(1):e71-78.
63. Ravanbod R, Torkaman G, Esteki A. Comparison between pulsed ultrasound and low level laser therapy on experimental haemarthrosis. *Haemophilia.* 2013;19(3):420-25.
64. Gomis M, Querol F, Gallach JE, et al. Exercise and sport in the treatment of haemophilic patients: a systematic review. *Haemophilia.* 2009;15(1):43-54.
65. Negrier C, Seuser A, Forsyth A, et al. The benefits of exercise for patients with haemophilia and recommendations for safe and effective physical activity. *Haemophilia.* 2013;19(4):487-98.
66. Souza FMB, McLaughlin P, Pereira RP, et al. The effects of repetitive haemarthrosis on postural balance in children with haemophilia. *Haemophilia.* 2013;19(4):e212-17.106.
67. Siqueira TC, Dominski FH, Andrade A. Effects of exercise in people with haemophilia: An umbrella review of systematic reviews and meta-analyses. *Haemophilia.* 2019;25(6):928-37.
68. Fiuza-Luces C, Garatachea N, Berger NA, et al. Exercise is the Real Polypill. *Physiology.* 2013;28(5):330-58.

69. Vina J, Sanchis-Gomar F, Martinez-Bello V, et al. Exercise acts as a drug; the pharmacological benefits of exercise: Exercise acts as a drug. *Br J Pharmacol*. 2012;167(1):1-12.
70. Brody LT. Effective Therapeutic Exercise Prescription: The Right Exercise at the Right Dose. *J Hand Ther*. 2012;25(2):220-32.
71. Martin AP, Burke T, Asghar S, et al. Understanding minimum and ideal factor levels for participation in physical activities by people with haemophilia: An expert elicitation exercise. *Haemophilia*. 2020;26(4):711-17.
72. Neelapala YVR, Attal R, Tandale S. Aquatic exercise for persons with haemophilia: A review of literature. *Complement Ther Clin Pract*. 2019;34:195-200.
73. Feldberg G, Ricciardi JBS, Zorzi AR, et al. Aquatic exercise in patients with haemophilia: Electromyographic and functional results from a prospective cohort study. *Haemophilia*. 2021;27(2).
74. Tomschi F, Ransmann P, Hilberg T. Aerobic exercise in patients with haemophilia: A systematic review on safety, feasibility and health effects. *Haemophilia*. February 2022;hae.14522.
75. Calatayud J, Pérez-Alenda S, Carrasco JJ, et al. Safety and Effectiveness of Progressive Moderate-to-Vigorous Intensity Elastic Resistance Training on Physical Function and Pain in People With Hemophilia. *Phys Ther*. 2020;100(9):1632-44.

76. Calatayud J, Pérez-Alenda S, Carrasco JJ, et al. Feasibility, safety and muscle activity during flywheel vs traditional strength training in adult patients with severe haemophilia. *Haemophilia*. 2021;27(1).
77. Wagner B, Krüger S, Hilberg T, et al. The effect of resistance exercise on strength and safety outcome for people with haemophilia: A systematic review. *Haemophilia*. 2020;26(2):200-215.
78. Kennedy M, O’Gorman P, Monaghan A, et al. A systematic review of physical activity in people with haemophilia and its relationship with bleeding phenotype and treatment regimen. *Haemophilia*. 2021;27(4):544-62.
79. Goto M, Haga N, Takedani H. Physical activity and its related factors in Japanese people with haemophilia. *Haemophilia*, 2019.
80. World Health Organization. Global Recommendations on Physical Activity for Health.2010.
81. Putz P, Klinger M, Male C, et al. Lower physical activity and altered body composition in patients with haemophilia compared with healthy controls. *Haemophilia*. 2021;27(2).
82. Gonzalez-Porrás JR, Lopez-Cadenas F, Alberca I, et al. Top-level sport in athletes with severe haemophilia A. *Haemophilia*. 2017;23(4):e391-93.
83. Maffet M, Roton J. Hemophilia in Sports: A Case Report and Prophylactic Protocol. *J Athl Train*. 2017;52(1):65-70.

84. Fromme A, Dreeskamp K, Pollmann H, et al. Participation in sports and physical activity of haemophilia patients. *Haemophilia*. 2007;13(3):323-27.
85. Yim-Chiplis PK, Talbot LA. Defining and Measuring Balance in Adults. *Biol Res Nurs*. 2000;1(4):321-31.
86. Kapoula Z, Lê T-T. Effects of distance and gaze position on postural stability in young and old subjects. *Exp Brain Res*. 2006;173(3):438-45.
87. Pollock AS, Durward BR, Rowe PJ, et al. What is balance? *Clin Rehabil*. 2000;14(4):402-6.
88. Horak FB. Postural orientation and equilibrium: what do we need to know about neural control of balance to prevent falls? *Age Ageing*. 2006;35(suppl_2):ii7-11.
89. Afschrift M, Jonkers I, De Schutter J, et al. Mechanical effort predicts the selection of ankle over hip strategies in nonstepping postural responses. *J Neurophysiol*. 2016;116(4):1937-45.
90. Maki BE, Edmondstone MA, McIlroy WE. Age-Related Differences in Laterally Directed Compensatory Stepping Behavior. *J Gerontol A Biol Sci Med Sci*. 2000;55(5):M270-77.
91. Grace Gaerlan M, Alpert PT, Cross C, et al. Postural balance in young adults: The role of visual, vestibular and somatosensory systems: Postural balance in young adults. *J Am Acad Nurse Pract*. 2012;24(6):375-81.

92. Widmaier EP, Raff H, Strang KT. Vander's Human Physiology: The Mechanisms of Body Function. 12th ed. New York: McGraw-Hill; 2011.
93. Shaffer SW, Harrison AL. Aging of the Somatosensory System: A Translational Perspective. *Phys Ther.* 2007;87(2):193-207.
94. Henry M, Baudry S. Age-related changes in leg proprioception: implications for postural control. *J Neurophysiol.* 2019;122(2):525-38.
95. Le Goic M, Wang D, Vidal C, et al. An Initial Passive Phase That Limits the Time to Recover and Emphasizes the Role of Proprioceptive Information. *Front Neurol.* 2018;9:986.
96. Lephart SM, Pincivero DM, Rozzi SL. Proprioception of the Ankle and Knee: *Sports Med.* 1998;25(3):149-55.
97. Kim S-G, Kim W-S. Effect of Ankle Range of Motion (ROM) and Lower-Extremity Muscle Strength on Static Balance Control Ability in Young Adults: A Regression Analysis. *Med Sci Monit.* 2018;24:3168-75.
98. Hilberg T, Herbsleb M, Gabriel HHW, et al. Proprioception and isometric muscular strength in haemophilic subjects: PROPRIOCEPTION AND HAEMOPHILIA. *Haemophilia.* 2001;7(6):582-88.
99. Fearn M, Hill K, Williams S, et al. Balance dysfunction in adults with haemophilia. *Haemophilia.* March 2010.

100. Cruz-Montecinos C, De la Fuente C, Rivera-Lillo G, et al. Sensory strategies of postural sway during quiet stance in patients with haemophilic arthropathy. *Haemophilia*. 2017;23(5):e419-26.
101. Cruz-Montecinos C, Pérez-Alenda S, Cerda M, et al. Neuromuscular control during gait in people with haemophilic arthropathy. *Haemophilia*. 2019;25(2).
102. Cruz-Montecinos C, Carrasco JJ, Guzmán-González B, et al. Effects of performing dual tasks on postural sway and postural control complexity in people with haemophilic arthropathy. *Haemophilia*. 2020;26(3).
103. Lobet S, Hermans C, Bastien GJ, et al. Impact of ankle osteoarthritis on the energetics and mechanics of gait: The case of hemophilic arthropathy. *Clin Biomech*. 2012;27(6):625-31.
104. Piercy KL, Troiano RP, Ballard RM, et al. The Physical Activity Guidelines for Americans. *JAMA*. 2018;320(19):2020-28.
105. Forsyth AL, Quon DV, Konkle BA. Role of exercise and physical activity on haemophilic arthropathy, fall prevention and osteoporosis: EXERCISE AND PHYSICAL ACTIVITY IN HAEMOPHILIA. *Haemophilia*. 2011;17(5):870-76.
106. Chimeno-Hernández A, Querol-Giner F, Pérez-Alenda S, et al. Effectiveness of physical exercise on postural balance in patients with haemophilia: A systematic review. *Haemophilia*. 2022;28(3):409-21.

107. Hilberg T, Herbsleb M, Puta C, et al. Physical training increases isometric muscular strength and proprioceptive performance in haemophilic subjects: PROPRIOCEPTIVE TRAINING IN HAEMOPHILICS. *Haemophilia*. 2003;9(1):86-93.
108. Goto M, Takedani H, Haga N, et al. Self-monitoring has potential for home exercise programmes in patients with haemophilia. *Haemophilia*. 2014;20(2):e121-27.
109. Hill K, Fearn M, Williams S, et al. Effectiveness of a balance training home exercise programme for adults with haemophilia: a pilot study. *Haemophilia*. 2010;16(1):162-69.
110. Czepa D, von Mackensen S, Hilberg T. Haemophilia & Exercise Project (HEP): The impact of 1-year sports therapy programme on physical performance in adult haemophilia patients. *Haemophilia*. 2013;19(2):194-99.
111. Boccalandro E, Mancuso ME, Riva S, et al. Ageing successfully with haemophilia: A multidisciplinary programme. *Haemophilia*. 2018;24(1):57-62.
112. Naclerio F, Rodríguez-Romo G, Barriopedro-Moro MI, Jiménez A, Alvar BA, Triplett NT. Control of resistance training intensity by the OMNI perceived exertion scale. *J Strength Cond Res*. 2011 Jul;25(7):1879-88.
113. Maestre-Cascales C, Peinado Lozano AB, Rojo González JJ. Effects of a strength training program on daily living in women with fibromyalgia. *J Hum Sport Exerc*. 2019;14(4).

114. Hilliard P, Funk S, Zourikian N, Bergstrom BM, Bradley CS, McLimont M, Manco-Johnson M, Petrini P, et al. Hemophilia joint health score reliability study. *Haemophilia* 2006; 12(5):pp 518-525.
115. Clark RA, Mentiplay BF, Pua Y-H, et al. Reliability and validity of the Wii Balance Board for assessment of standing balance: A systematic review. *Gait Posture*. 2018;61:40-54.
116. Jeter PE, Wang J, Gu J, et al. Intra-session test-retest reliability of magnitude and structure of center of pressure from the Nintendo Wii Balance Board™ for a visually impaired and normally sighted population. *Gait Posture*. 2015;41(2):482-87.
117. Park D-S, Lee G. Validity and reliability of balance assessment software using the Nintendo Wii balance board: usability and validation. *J NeuroEngineering Rehabil*. 2014;11(1):99.
118. Chang W-D, Chang W-Y, Lee C-L, et al. Validity and Reliability of Wii Fit Balance Board for the Assessment of Balance of Healthy Young Adults and the Elderly. *J Phys Ther Sci*. 2013;25(10):1251-53.
119. Holmes JD, Jenkins ME, Johnson AM, et al. Validity of the Nintendo Wii® balance board for the assessment of standing balance in Parkinson's disease. *Clin Rehabil*. 2013;27(4):361-66.
120. Clark RA, Bryant AL, Pua Y, et al. Validity and reliability of the Nintendo Wii Balance Board for assessment of standing balance. *Gait Posture*. 2010;31(3):307-10.

121. Aplicaciones NedAMH/IBV y NedSVE/IBV e información técnica. Tecnología Biomecánica. 2010.
122. Cooper J, Siegfried K, Ahmed AA (2014) BrainBLoX: Brain and Biomechanics Lab in a Box Software (Version 1.0) [Software]. Available from: <http://www.colorado.edu/neuromechanics/research/wii-balance-board-project>.
123. Genderen FR, Westers P, Heijnen L, et al. Measuring patients' perceptions on their functional abilities: validation of the Haemophilia Activities List. *Haemophilia*. 2006;12(1):36-46.
124. Brodin E, Baghaei F, Elfvinger P, et al. The Swedish version of the Haemophilia Activity List: HAL, THE SWEDISH VERSION. *Haemophilia*. 2011;17(4):662-68.
125. Upegui AO, Fandiño-Losada A. Versión en Español-Colombia, 2015.2015;79.
126. Genderen FR, Meeteren NLU, Bom JG, et al. Functional consequences of haemophilia in adults: the development of the Haemophilia Activities List. *Haemophilia*. 2004;10(5):565-71.
127. Poonnoose PM, Thomas R, Keshava SN, et al. Psychometric analysis of the Functional Independence Score in Haemophilia (FISH). *Haemophilia*. 2007;13(5):620-26.
128. Poonnoose PM, Manigandan C, Thomas R, et al. Functional Independence Score in Haemophilia: a new performance-based instrument to measure disability. *Haemophilia*. 2005;11(6):598-602.

Referencias

129. Tlacuilo-Parra A, Villela-Rodriguez J, Garibaldi-Covarrubias R, et al. Functional independence score in hemophilia: A cross-sectional study assessment of Mexican children. *Pediatr Blood Cancer*. 2010;54(3):394-97.
130. Hofheinz M, Schusterschitz C. Dual task interference in estimating the risk of falls and measuring change: a comparative, psychometric study of four measurements. *Clin Rehabil*. 2010;24(9):831-42.
131. Collado-Mateo D, Domínguez-Muñoz FJ, Adsuar JC, et al. Reliability of the Timed Up and Go Test in Fibromyalgia: *Rehabil Nurs*. 2018;43(1):35-39.
132. Hwang R, Morris NR, Mandrusiak A, et al. Timed Up and Go Test: A Reliable and Valid Test in Patients With Chronic Heart Failure. *J Card Fail*. 2016;22(8):646-50.
133. Lyders Johansen K, Derby Stistrup R, Skibdal Schjøtt C, et al. Absolute and Relative Reliability of the Timed 'Up & Go' Test and '30second Chair-Stand' Test in Hospitalised Patients with Stroke. Brucki S, editor. *PLOS ONE*. 2016;11(10):e0165663.
134. Goldberg A, Chavis M, Watkins J, et al. The five-times-sit-to-stand test: validity, reliability and detectable change in older females. *Aging Clin Exp Res*. 2012;24(4):339-44.
135. Mollinedo I, Cancela JM. Evaluation of the psychometric properties and clinical applications of the Timed Up and Go test in

Parkinson disease: a systematic review. *J Exerc Rehabil.* 2020;16(4):302-12.

136. Baumgardner J, Elon L, Antun A, et al. Physical activity and functional abilities in adult males with haemophilia: a cross-sectional survey from a single US haemophilia treatment centre. *Haemophilia.* 2013;19(4):551-57.

137. Fischer K, Poonnoose P, Dunn AL, et al. Choosing outcome assessment tools in haemophilia care and research: a multidisciplinary perspective. *Haemophilia.* 2017;23(1):11-24.

138. Timmer MA, Pisters MF, de Kleijn P, et al. Movement behaviour in adults with haemophilia compared to healthy adults. *Haemophilia.* 2018;24(3):445-51.

139. García-Dasí M, Pérez-Alenda S, Carrasco JJ, et al. Effects of a non-pharmacological approach for chronic pain management in patients with haemophilia: efficacy of cognitive-behavioural therapy associated with physiotherapy. *Haemophilia.* 2021;27(3).

140. Flaherty LM, Josephson NC. Screening for fall risk in patients with haemophilia. *Haemophilia.* 2013;19(3):e103-9.

141. Sammels M, Vandesande J, Vlaeyen E, et al. Falling and fall risk factors in adults with haemophilia: an exploratory study. *Haemophilia.* 2014;20(6):836-45.

142. Barry E, Galvin R, Keogh C, et al. Is the Timed Up and Go test a useful predictor of risk of falls in community dwelling older adults: a systematic review and meta- analysis. *BMC Geriatr.* 2014;14(1).
143. Makizako H, Shimada H, Doi T, et al. Predictive Cutoff Values of the Five-Times Sit-to-Stand Test and the Timed “Up & Go” Test for Disability Incidence in Older People Dwelling in the Community.8.
144. Bohannon RW, Wang Y-C, Gershon RC. Two-Minute Walk Test Performance by Adults 18 to 85 Years: Normative Values, Reliability, and Responsiveness. *Arch Phys Med Rehabil.* 2015;96(3):472-77.
145. Scalzitti DA, Harwood KJ, Maring JR, et al. Validation of the 2-Minute Walk Test with the 6-Minute Walk Test and Other Functional Measures in Persons with Multiple Sclerosis. *Int J MS Care.* 2018;20(4):158-63.
146. Hill KD, Schwarz JA, Kalogeropoulos AJ, et al. Fear of falling revisited. *Arch Phys Med Rehabil.* 1996;77(10):1025-29.
147. Godi M, Franchignoni F, Caligari M, et al. Comparison of Reliability, Validity, and Responsiveness of the Mini-BESTest and Berg Balance Scale in Patients With Balance Disorders. *Phys Ther.* 2013;93(2):158-67.
148. Romero S, Bishop MD, Velozo CA, et al. Minimum Detectable Change of the Berg Balance Scale and Dynamic Gait Index in Older Persons at Risk for Falling. *J Geriatr Phys Ther.* 2011;34(3):131-37.

149. Mentiplay BF, Perraton LG, Bower KJ, et al. Assessment of Lower Limb Muscle Strength and Power Using Hand-Held and Fixed Dynamometry: A Reliability and Validity Study. Haddad JM, editor. PLOS ONE. 2015;10(10):e0140822.
150. Hébert LJ, Maltais DB, Lepage C, et al. Isometric Muscle Strength in Youth Assessed by Hand-held Dynamometry: A Feasibility, Reliability, and Validity Study A Feasibility, Reliability, and Validity Study. *Pediatr Phys Ther.* 2011;23(3):289-99.
151. Abizanda P, Navarro JL, García-Tomás MI, et al. Validity and usefulness of hand-held dynamometry for measuring muscle strength in community-dwelling older persons. *Arch Gerontol Geriatr.* 2012;54(1):21-27.
152. Koblbauer IF, Lambrecht Y, van der Hulst ML, et al. Reliability of maximal isometric knee strength testing with modified hand-held dynamometry in patients awaiting total knee arthroplasty: useful in research and individual patient settings? A reliability study. *BMC Musculoskelet Disord.* 2011;12(1):249.
153. Gagnon D, Nadeau S, Gravel D, et al. Reliability and Validity of Static Knee Strength Measurements Obtained With a Chair-Fixed Dynamometer in Subjects With Hip or Knee Arthroplasty. *Arch Phys Med Rehabil.* 2005;86(10):1998-2008.
154. Wang C-Y, Olson SL, Protas EJ. Test-retest strength reliability: Hand-held dynamometry in community-dwelling elderly fallers. *Arch Phys Med Rehabil.* 2002;83(6):811-15.

Referencias

155. Kelln BM, McKeon PO, Gontkof LM, et al. Hand-Held Dynamometry: Reliability of Lower Extremity Muscle Testing in Healthy, Physically Active, Young Adults. *J Sport Rehabil.* 2008;17(2):160-70.
156. Thorborg K, Bandholm T, Hölmich P. Hip- and knee-strength assessments using a hand-held dynamometer with external belt-fixation are inter-tester reliable. *Knee Surg Sports Traumatol Arthrosc.* 2013;21(3):550-55.
157. Caldwell LS, Chaffin DB, Dukes-Dobos FN, et al. A Proposed Standard Procedure for Static Muscle Strength Testing. *Am Ind Hyg Assoc J.* 1974;35(4):201-6.
158. Kroemer KHE, Marras WS. Towards an objective assessment of the maximal voluntary contraction? component in routine muscle strength measurements. *Eur J Appl Physiol.* 1980;45(1):1-9.
159. Bohannon RW. Reference values for extremity muscle strength obtained by hand-held dynamometry from adults aged 20 to 79 years. *Arch Phys Med Rehabil.* 1997;78(1):26-32.
160. Arnold CM, Warkentin KD, Chilibeck PD, et al. The Reliability and Validity of Handheld Dynamometry for the Measurement of Lower-Extremity Muscle Strength in Older Adults. *J Strength Cond Res.* 2010;24(3):815-24.
161. Bazett-Jones DM, Cobb SC, Joshi MN, et al. Normalizing Hip Muscle Strength: Establishing Body-Size-Independent Measurements. *Arch Phys Med Rehabil.* 2011;92(1):76-82.

162. Woby SR, Roach NK, Urmston M, et al. Psychometric properties of the TSK-11: A shortened version of the Tampa Scale for Kinesiophobia. *Pain*. 2005;117(1):137-44.
163. Gómez-Pérez L, López-Martínez AE, Ruiz-Párraga GT. Psychometric Properties of the Spanish Version of the Tampa Scale for Kinesiophobia (TSK). *J Pain*. 2011;12(4):425-35.
164. Arranz P, Remor E, Quintana M, et al. Development of a new disease-specific quality-of-life questionnaire to adults living with haemophilia. *Haemophilia*. 2004;10(4):376-82.
165. Remor E, Arranz P, Quintana M, et al. Psychometric field study of the new haemophilia quality of life questionnaire for adults: The "Hemofilia-QoL." *Haemophilia*. 2005;11(6):603-10.
166. Thong ISK, Jensen MP, Miró J, et al. The validity of pain intensity measures: what do the NRS, VAS, VRS, and FPS-R measure? *Scand J Pain*. 2018;18(1):99-107.
167. Alghadir A, Anwer S, Iqbal A, et al. Test–retest reliability, validity, and minimum detectable change of visual analog, numerical rating, and verbal rating scales for measurement of osteoarthritic knee pain. *J Pain Res*. 2018;Volume 11:851-56.
168. Runkel B, Czepa D, Hilberg T. RCT of a 6-month programmed sports therapy (PST) in patients with haemophilia - Improvement of physical fitness. *Haemophilia*. 2016;22(5):765-71.

169. Blasco JM, Hernández-Guillen D, Domínguez-Navarro F, Acosta-Ballester Y, Alakhdar-Mohmara Y, Roig-Casasús S. Sensorimotor training prior total knee arthroplasty and effects on functional outcome: A systematic review and meta-analysis. *Gait Posture*. 2021 May;86:83-93.
170. Demirdel S, Erbahçeci F. Investigation of the Effects of Dual-Task Balance Training on Gait and Balance in Transfemoral Amputees: A Randomized Controlled Trial. *Arch Phys Med Rehabil*. 2020 Oct;101(10):1675-1682.
171. Ghai S, Ghai I, Effenberg AO. Effects of dual tasks and dual-task training on postural stability: a systematic review and meta-analysis. *Clin Interv Aging*. 2017 Mar 23;12:557-577.
172. Flaherty L., Schoeppe J., Kruse-Jarres R., Konkle B. Balance, falls, and exercise: Beliefs and experiences in people with hemophilia: A qualitative study. *Res Pract Thromb Haemost*. 2018;2:147–154.
173. Cruz-Montecinos C, Pérez-Alenda S, Casaña J, et al. Effectiveness of progressive moderate-vigorous intensity elastic resistance training on quality of life and perceived functional abilities in people with hemophilia: Secondary analysis of a randomized controlled trial. *Eur J Haematol*. 2022.
174. Lobet S, Meité N, Koninckx MI, et al. Implementation and assessment of a self- and community-based rehabilitation programme in patients with haemophilia from Côte d'Ivoire. *Haemophilia*. 2019 Sep;25(5):859-866.

175. Moreno-Segura N, Pérez-Alenda S, García-Dasí M, et al. Effectiveness of therapeutic exercise and cognitive-behavioural therapy combined protocol on functionality, pain and joint health in people with haemophilia: Secondary analysis of a controlled trial. *Haemophilia*. 2022.
176. Podsiadlo D, Richardson S. The timed "Up & Go": a test of basic functional mobility for frail elderly persons. *J Am Geriatr Soc*. 1991 Feb;39(2):142-8.
177. Muñoz-Bermejo L, Adsuar JC, Mendoza-Muñoz M, Barrios-Fernández S, Garcia-Gordillo MA, Pérez-Gómez J, Carlos-Vivas J. Test-Retest Reliability of Five Times Sit to Stand Test (FTSST) in Adults: A Systematic Review and Meta-Analysis. *Biology (Basel)*. 2021 ;9;10(6):510.
178. Park SH. Tools for assessing fall risk in the elderly: a systematic review and meta-analysis. *Aging Clin Exp Res*. 2018 Jan;30(1):1-16.
179. Jácome C, Cruz J, Oliveira A, Marques A. Validity, Reliability, and Ability to Identify Fall Status of the Berg Balance Scale, BESTest, Mini-BESTest, and Brief-BESTest in Patients With COPD. *Phys Ther*. 2016 Nov;96(11):1807-1815
180. Park SH, Lee YS. The Diagnostic Accuracy of the Berg Balance Scale in Predicting Falls. *West J Nurs Res*. 2017 Nov;39(11):1502-1525.
181. Sherrington C, Whitney JC, Lord SR, Herbert RD, Cumming RG, Close JC. Effective exercise for the prevention of falls: a systematic review and meta-analysis. *J Am Geriatr Soc*. 2008 Dec;56(12):2234-43.

182. Taylor S, Toye F, Donovan-Hall M, Barker K. Past the tipping point: a qualitative study of the views and experiences of men with haemophilia regarding mobility, balance, and falls. *Disabil Rehabil.* 2022 Nov;44(23):7237-7245.
183. Rehm H, Schmolders J, Koob S, Bornemann R, Goldmann G, Oldenburg J, Pennekamp P, Strauss AC. Falling and fall risk in adult patients with severe haemophilia. *Hamostaseologie.* 2017 May 10;37(2):97-103.
184. Shapiro S, Makris M. Haemophilia and ageing. *Br J Haematol.* 2019 Mar;184(5):712-720.
185. Stephensen D, Taylor S, Bladen M, Drechsler WI. Relationship between physical function and biomechanical gait patterns in boys with haemophilia. *Haemophilia.* 2016 Nov;22(6):e512-e518.
186. Salim M, Brodin E, Spaals-Abrahamsson Y, et al. The effect of Nordic Walking on joint status, quality of life, physical ability, exercise capacity and pain in adult persons with haemophilia. *Blood Coagul Fibrinolysis.* 2016 Jun;27(4):467-72.
187. Vlaeyen JW, Linton SJ. Fear-avoidance and its consequences in chronic musculoskeletal pain: a state of the art. *Pain.* 2000;85(3):317-332.
188. Hilberg T, Czepa D, Freialdenhoven D, et al. Joint pain in people with hemophilia depends on joint status. *Pain.* 2011;152(9):2029-2035.

189. Lüning Bergsten C, Lundberg M, Lindberg P, et al. Change in kinesiophobia and its relation to activity limitation after multidisciplinary rehabilitation in patients with chronic back pain. *Disabil Rehabil.* 2012;34(10):852-858.
190. Runkel B, Von Mackensen S, Hilberg T. RCT – subjective physical performance and quality of life after a 6-month programmed sports therapy (PST) in patients with haemophilia. *Haemophilia.* 2017;23(1):144-151. doi:10.1111/hae.13079.
191. Ucero-Lozano R, López-Pina JA, Ortiz-Pérez A, Cuesta-Barriuso R. Quality of life and its predictors among adult patients with haemophilic arthropathy. An observational study. *BMC Musculoskelet Disord.* 2021 May 15;22(1):448.
192. Goldberg P, Zeppieri G, Bialosky J, Bocchino C, van den Boogaard J, Tillman S, et al. Kinesiophobia and its association with health-related quality of life across injury locations. *Arch Phys Med Rehabil.* 2018;99:43-8.
193. Lima LV, Abner TSS, Sluka KA. Does exercise increase or decrease pain? Central mechanisms underlying these two phenomena. *J Physiol.* 2017 Jul 1;595(13):4141-4150.
194. Kroll HR. Exercise therapy for chronic pain. *Phys Med Rehabil Clin N Am.* 2015 May;26(2):263-81.
195. Daenen L, Varkey E, Kellmann M, Nijs J. Exercise, not to exercise, or how to exercise in patients with chronic pain? Applying science to practice. *Clin J Pain.* 2015;31(2):108-14.

196. Dworkin RH, Turk DC, Wyrwich KW, Beaton D, Cleeland CS, Farrar JT, Haythornthwaite JA, Jensen MP, et al. Interpreting the clinical importance of treatment outcomes in chronic pain clinical trials: IMMPACT recommendations. *J Pain*. 2008;9(2):105-21.
197. Witkop M, Neff A, Buckner TW, Wang M, Batt K, Kessler CM et al. Self-reported prevalence, description and management of pain in adults with haemophilia: methods, demographics and results from the Pain, Functional Impairment, and Quality of life (P-FiQ) study. *Haemophilia*. 2017;23(4):556-565.
198. Babu AS, Balthillaya GM, Navada R, Kurien A. Theraband® exercises with music for persons with haemophilia. *Haemophilia*. 2013;19(6):e359-e360.
199. Calatayud J, Pérez-Alenda S, Carrasco JJ, et al. Upper-Body Exercises With External Resistance Are Well Tolerated and Enhance Muscle Activity in People With Hemophilia. *Phys Ther*. 2019;99(4):411-419.

7.ANEXOS

Anexo 1. Comité de Ética



D. José María Montiel Company, Profesor Contratado Doctor del departamento de Estomatología, y Secretario del Comité Ético de Investigación en Humanos de la Comisión de Ética en Investigación Experimental de la Universitat de València,

CERTIFICA:

Que el Comité Ético de Investigación en Humanos, en la reunión celebrada el día 4 de abril de 2019, una vez estudiado el proyecto de investigación titulado:

"La efectividad de un programa de ejercicios para mejorar equilibrio en pacientes hemofílicos. Ensayo clínico", número de procedimiento H20190326180948, cuya responsable es Dña. Marta Aguilar Rodríguez, ha acordado informar favorablemente el mismo dado que se respetan los principios fundamentales establecidos en la Declaración de Helsinki, en el Convenio del Consejo de Europa relativo a los derechos humanos y cumple los requisitos establecidos en la legislación española en el ámbito de la investigación biomédica, la protección de datos de carácter personal y la bioética.

Y para que conste, se firma el presente certificado en Valencia, a nueve de abril de dos mil diecinueve.

A blue ink signature is written over a circular official stamp of the Universitat de València. The stamp contains the text 'UNIVERSITAT DE VALÈNCIA' and a central emblem.

Anexo 2. Consentimiento informado

3.- CONSENTIMIENTO.

En el caso de que el sujeto de experimentación sea mayor de edad:

Don/Doña

mayor de edad, titular del DNI: _____, por el presente documento manifiesto que:

He sido informado/a de las características del Proyecto de Investigación titulado: ***“La efectividad de un programa multimodal de ejercicios para el equilibrio en pacientes con hemofilia. Ensayo clínico.”***

He leído tanto el apartado 1 del presente documento titulado “información al sujeto de experimentación”, como el apartado 2 titulado “compromiso de confidencialidad”, y he podido formular las dudas que me han surgido al respecto. Considero que he entendido dicha información.

Estoy informado/a de la posibilidad de retirarme en cualquier momento del estudio.

En virtud de tales condiciones, consiento participar en este estudio. Y en prueba de conformidad, firmo el presente documento en el lugar y fecha que se indican a continuación.

Valencia, _____ de _____ de 20__.

*Nombre y apellidos
del / de la participante:*

*Nombre y apellidos
del investigador principal:*

Firma:

Firma: