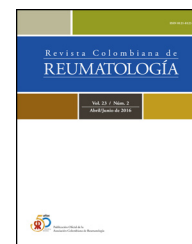




Revista Colombiana de REUMATOLOGÍA

www.elsevier.es/rcreuma



Artículo de revisión – Metaanálisis

Rehabilitación física en pacientes con artropatía hemofílica: revisión sistemática y metaanálisis sobre dolor

Ana I. Pacheco-Serrano^a, David Lucena-Anton^{a,*} e José A. Moral-Muñoz^{a,b}

^a Departamento de Enfermería y Fisioterapia, Universidad de Cádiz, Cádiz, España

^b Instituto de Investigación e Innovación en Ciencias Biomédicas de la Provincia de Cádiz (INiBICA), Universidad de Cádiz, Cádiz, España

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 22 de marzo de 2019

Modificado el 3 de abril de 2019

Aceptado el 22 de mayo de 2020

On-line el 23 de julio de 2020

Palabras clave:

Rehabilitación

Hemofilia

Artropatía

Ejercicio terapéutico

Terapia manual

Artropatía hemofílica

Enfermedad articular

R E S U M E N

Introducción: La artropatía hemofílica (AH) cursa con diferentes manifestaciones clínicas importantes, como son las hemorragias articulares, el dolor, la disminución de la amplitud del movimiento y las alteraciones funcionales que pueden causar secuelas en la funcionalidad y movilidad. El ejercicio físico adaptado a los pacientes con hemofilia puede ser una adecuada estrategia terapéutica, que repercuta positivamente sobre la calidad de vida de dichos sujetos.

Objetivos: Evaluar la eficacia de la rehabilitación física en el tratamiento de la artropatía hemofílica.

Materiales y métodos: Se ha realizado una revisión sistemática y metaanálisis de ensayos clínicos (seleccionados según criterios de elegibilidad). Para ello, se han utilizado las siguientes bases de datos: PEDro, Pubmed, Scopus y Web of Science. Se empleó la escala «PEDro» para evaluar la calidad metodológica de los estudios.

Resultados: Tras aplicar los criterios de inclusión y exclusión, en la revisión final fueron incluidos siete artículos, los cuales aportaron resultados favorables sobre la fuerza y el diámetro muscular, el rango de movilidad, el estado articular y la calidad de vida. De ellos, dos estudios aportaron datos para metaanálisis, con resultados favorables sobre la variable dolor [Diferencia de medias estandarizada (DME) = -2,64; IC 95%: (-4,26; 1,03)].

Conclusiones: Se encontró evidencia sobre la eficacia de la rehabilitación física en el tratamiento de la artropatía hemofílica. El ejercicio terapéutico (ET) es el principal tratamiento realizado; con este se obtuvieron mejoras significativas en distintas variables físicas.

© 2020 Asociación Colombiana de Reumatología. Publicado por Elsevier España, S.L.U.

Todos los derechos reservados.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: david.lucena@uca.es (D. Lucena-Anton).

<https://doi.org/10.1016/j.rcreu.2020.05.012>

0121-8123/© 2020 Asociación Colombiana de Reumatología. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Physical rehabilitation in haemophilic arthropathy: systematic review and pain-related meta-analysis

A B S T R A C T

Keywords:

Physical rehabilitation
Haemophilia
Arthropathy
Therapeutic exercise
Manual therapy
Haemophilic arthropathy
Joint disease

Introduction: Haemophilic arthropathy presents with different important clinical disorders, such as joint disease, pain, decreased range of motion, and functional alterations that can produce limitations in functionality and mobility. The physical exercise adapted to patients with haemophilia can be an adequate therapeutic strategy, having a positive impact on the quality of life of these subjects.

Objectives: To identify the published clinical trials that evaluate the efficacy of physical rehabilitation in the treatment of haemophilic arthropathy.

Materials and methods: A systematic review and meta-analysis of clinical trials was conducted (using pre-defined eligibility criteria). The literature search was performed in the databases: PEDro, Pubmed, Scopus, and Web of Science. The quality of the methods used in the studies was evaluated using the PEDro scale.

Results: After applying the inclusion and exclusion criteria, 7 studies were included in this review, providing favourable results on muscle strength and circumference, range of motion, joint disease, and quality of life. Moreover, 2 articles contributed information to the meta-analysis, showing favourable results on pain [Standardised mean difference (SMD) = -2.64; 95% CI: (-4.26; 1.03)].

Conclusions: This systematic review found evidence on the efficacy of physical rehabilitation in the treatment for haemophilic arthropathy. Therapeutic exercise is the main treatment carried out, obtaining significant improvements in the different physical outcomes.

© 2020 Asociación Colombiana de Reumatología. Published by Elsevier España, S.L.U.
All rights reserved.

Introducción

La hemofilia es una condición congénita hemorrágica recesiva, que en el caso de la hemofilia A y B está ligada al cromosoma X¹. Sin embargo, existe un tercer tipo de hemofilia, la tipo C, que no está ligada al cromosoma X. Dicha condición provoca una deficiencia en la coagulación sanguínea debido a la ausencia o deficiencia de algún factor de coagulación², factor VIII para la tipo A, factor IX para la B y factor XI para la C.

En la actualidad, la hemofilia es una enfermedad considerada rara debido a su baja prevalencia³. Los Centers for Disease Control and Prevention (CDC) y la World Federation of Hemophilia (WFH) estiman que la hemofilia A tiene una prevalencia de en torno a uno de cada 5.000 nacimientos, en tanto que para la hemofilia B tal prevalencia es de uno de cada 30.000 nacimientos, con un global de aproximadamente uno de cada 7.500 nacimientos. Esta enfermedad afecta por igual a todas las razas y grupos socioeconómicos⁴.

Por otra parte, sus manifestaciones clínicas más importantes son las hemorragias⁵, que causan dolor, disminuyen la amplitud de movimiento (ROM) y producen alteraciones funcionales que pueden causar discapacidad⁶. De dichas hemorragias, 80% son articulares⁶, las cuales conllevan mayores secuelas en la funcionalidad y en la movilidad⁷. Las articulaciones más afectadas son: el tobillo (33%), que suele ser la que más hemorragias sufre en la primera infancia y la que más comúnmente presenta artropatía durante la

adolescencia⁸, la rodilla (33%) y el codo, el hombro y la cadera (33%)⁹.

En este sentido, la artropatía hemofílica (AH) aparece debido a la evolución natural del daño articular y afecta a un gran número de sujetos¹⁰. Todo esto ocasiona un proceso degenerativo de la articulación¹¹. Clínicamente, la AH cursa con hemartrosis, lo que produce atrofia muscular, inestabilidad articular e incluso sinovitis, y esto a su vez da lugar a hemorragias más frecuentes y severas¹². En este sentido, alrededor del 66% de los pacientes con AH no recibe una adecuada rehabilitación¹¹. Por tanto, es necesario visibilizar los beneficios que reporta la rehabilitación en este tipo de pacientes, con el fin de promover un aumento de estos servicios.

Luego de consultar la literatura científica disponible, no se encuentran metaanálisis que recojan los principales estudios que abordan la rehabilitación de la AH; la variabilidad de las intervenciones y las variables medidas hacen difícil dicha tarea. No obstante, existen algunas revisiones en las que se destacan los beneficios de la actividad física para la solución de los problemas derivados de la AH. Todos los estudios señalan que el ejercicio físico adaptado a los pacientes con hemofilia puede ser una adecuada estrategia terapéutica que repercuta de manera apreciable sobre la calidad de vida^{2,11,13,14}. No se conocen tampoco revisiones sistemáticas que recojan la evidencia científica actual sobre las intervenciones basadas en otras modalidades de rehabilitación, como son la terapia manual (TM), los estiramientos o la electroestimulación.

Por tanto, el objetivo principal de esta revisión sistemática es identificar y evaluar la eficacia de los tratamientos disponibles en la actual literatura científica sobre la rehabilitación en pacientes con AH. De tal manera, se busca valorar los diferentes protocolos que se realizan para la mejoría de esta patología, así como los posibles efectos secundarios que estos tratamientos pueden tener sobre los pacientes.

Métodos

El presente estudio consiste en una revisión sistemática y metaanálisis en la que se han seguido las normas Prisma¹⁵.

Estrategia de búsqueda

Se realizó una revisión sistemática de la literatura científica mediante la búsqueda en las siguientes bases de datos: PEDro, Pubmed, Scopus y Web of Science. La búsqueda se llevó a cabo hasta marzo del 2017 y en ella se utilizó la combinación de los siguientes términos de búsqueda: «Hemophilia», «Joint Diseases» y «Physical Therapy» (tabla 1). La búsqueda se limitó a los idiomas inglés y español y no se aplicaron restricciones en cuanto a la fecha de publicación.

Selección de estudios

Los criterios de inclusión utilizados en la presente revisión fueron los siguientes: I) tipo de estudio = ensayos clínicos (EC) y estudios piloto; II) sujetos = sujetos de todas las edades, diagnosticados con AH; III) tipo de intervención: incluida dentro de las posibles intervenciones de fisioterapia¹⁶, como son: ejercicio terapéutico, terapia manual, entre otras; IV) tipo de variable que medir: variables físicas incluidas en las dimensiones de medida de la *International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF)*¹⁷, en concreto, las relacionadas con funciones corporales, actividades y participación; V) calidad del estudio

= escala PEDro ≥ 5 . Posteriormente, se eliminaron aquellos estudios que se encontraban duplicados en varias bases de datos. Por último, dos revisores analizaron de manera independiente los títulos y el resumen de cada uno de los artículos que cumplían los criterios mencionados y se obtuvieron los textos completos de cada uno de ellos. Así se reunieron los artículos que componen esta revisión.

Evaluación de la calidad metodológica

Los artículos seleccionados se sometieron a una evaluación de la calidad utilizando una escala específica para la evaluación metodológica de EC: la escala PEDro¹⁸.

La escala PEDro consta de 11 ítems, cada uno de los cuales evalúa como presente o ausente, y contribuye con un punto al total de la puntuación (rango = 0-10 puntos) que evalúa la calidad metodológica de los estudios clínicos controlados aleatorizados y los clasifica en la base de datos PEDro, lo que ayuda a la toma de decisiones clínicas informadas. Esta escala pone el énfasis en dos aspectos del estudio: su validez interna y si contiene información estadística suficiente para su interpretación.

Según Moseley et al.¹⁹, los estudios con una puntuación igual o superior a 5 en esta escala son calificados como de alta calidad metodológica y bajo riesgo de sesgo. La puntuación obtenida por la escala PEDro en el análisis de los diferentes estudios que se incluyeron en esta revisión es de 9 como valor máximo y 5 como valor mínimo.

Extracción de datos

Dos revisores hicieron de manera independiente la revisión y extrajeron los datos de cada documento sistemáticamente, tras lo cual llegaron a un consenso en caso de discrepancias. De cada uno de los artículos revisados se extrajo la siguiente información: autor, año de publicación, características de

Tabla 1 – Ecuaciones de búsqueda

Base de datos	Método de búsqueda	Resultados
Pubmed	((«Hemophilia A»[Mesh] OR «Hemophilia B» [Mesh]) AND «Joint Diseases» [Mesh]) AND («Physical Therapy Modalities» [Mesh] OR «Physical Therapy Specialty» [Mesh]) AND Clinical Trial[ptyp]	6
PEDro	Abstract & Title: Hemophilia AND «Joint diseases»	0
	Abstract & Title: Hemophilia AND Arthrosis	0
	Abstract & Title: Hemophilia AND Arthropathies	0
	Abstract & Title: Hemophilia AND Arthropathy	3
	Abstract & Title: Hemophilia AND Arthroses	0
	Abstract % Title: hemophilia AND Arthritis	1
	Abstract & Title: Hemophilia AND Exercise	9
	Method: Clinical Trial	
WoS	TS=(((Hemophilic OR Hemophilia) AND «Joint Disease» OR Arthrosis OR Arthropathies OR Arthropathy OR Arthroses) AND («Physical therapy» OR physiotherapy)) AND (randomized OR «Clinical Trial»))	19
	Document type: Article	
Scopus	TITLE-ABS-KEY(((hemophilic OR Haemophilia) AND «Joint Disease» OR Arthrosis OR Arthropathies OR Arthropathy OR Arthroses) AND («physical therapy» OR physiotherapy)) AND (randomized OR «Clinical trial»)	24
	Document type: Article	
	Total	62

los participantes (número, edad media, tipo de hemofilia), características de la intervención aplicada (tipo, duración, frecuencia), evaluación realizada (tiempos de evaluación, instrumento de evaluación, variable por evaluar) y, por último, los resultados obtenidos.

Análisis estadístico

El análisis estadístico se llevó a cabo usando el *software* específico EPIDAT 3.1 del Directorio General de Salud Pública de Galicia, España. Las pruebas de heterogeneidad se determinaron mediante los test Dersimonian and Laird, con la estadística Cochran Q. Los resultados del único grupo incluido en el presente metaanálisis se representaron mediante gráficos *Forest plots* y mostraron las diferencias observadas entre los valores medios del tamaño de efecto entre el grupo de intervención y el grupo de control, incluidos los correspondientes intervalos de confianza. Se utilizó una diferencia de medias e intervalo de confianza del 95% y un nivel de significación $p < 0,05$.

Resultados

La selección de los artículos incluidos en esta revisión se representa en el diagrama de flujo detallado como *figura 1*. Tras llevar a cabo la estrategia de búsqueda y selección, se rechazaron un total de 55 de las 62 publicaciones potencialmente válidas, por no cumplir con los criterios de inclusión aplicados en la presente revisión. Tras la verificación del cumplimiento de criterios y la eliminación de duplicados, se seleccionó un total de siete estudios sobre intervenciones físicas en sujetos diagnosticados de AH para su análisis detallado. Debido a la pluralidad de tipos de los EC, solo dos ensayos clínicos aleatorizados (ECCA) sobre intervenciones físicas para la mejoría

del dolor se incluyeron en el metaanálisis para su comparación estadística.

La *tabla 2* muestra las principales características de los sujetos incluidos en la presente revisión y la *tabla 3* las principales características de las intervenciones.

Evaluación del riesgo de sesgo (PEDro)

De entre todos los EC utilizados para la composición de esta revisión sistemática, la evaluación del riesgo de sesgo se ha realizado en seis de los siete estudios incluidos. El estudio de Mazloun et al.²⁰ está escrito en lengua persa, por lo que no ha podido ser evaluado. Todos obtuvieron una puntuación igual o superior a 5 en la escala PEDro, excepto el de Mackensen et al.¹ que obtuvo 4, por lo que se pueden considerar de media o alta calidad metodológica y bajo o medio riesgo de sesgo, como puede verse en la *tabla 4*.

Sujetos participantes

En cuanto a la edad de los participantes, solo uno de los estudios²¹ utiliza a sujetos menores de edad. El resto de los estudios incluye a adultos^{1,10,20,22-24}. Cabe destacar que en el EC de Cuesta-Barriuso et al.²³ solo participan nuevos sujetos, por lo que sus resultados deben tomarse con cautela.

En cuanto al tipo de hemofilia, tres^{1,22,23} de los siete EC incluyeron en su estudio sujetos con hemofilia tipo A y tipo B. Tres artículos^{10,20,24} escogieron sujetos solo con hemofilia A y otro artículo²¹ no especifica qué tipo de hemofilia presentan los participantes. Un estudio¹⁰ escoge a pacientes no hemofílicos para el grupo de control.

En cuanto a las articulaciones afectadas y las zonas diana de intervención, en dos artículos se especifica que los sujetos presentan artropatía en uno o ambos tobillos^{22,23}. Cinco²⁰⁻²⁴ de los siete EC establecieron el tratamiento en los miembros inferiores de los pacientes¹⁰; la articulación del tobillo fue la

Tabla 2 – Características principales de los participantes

Estudios	Diseño	Participantes	Edad media	Grupos
Gomis et al. (2009) ¹⁰	ECCA	(n = 30)	GT = 34,9 ± 2,1	GT = (n = 15) HA
Mackensen et al. (2012) ¹	EC	Edad media: (n = 28)	GC = 29,1 ± 2,9 40,68 ± 12,7	GC: (n = 14) NH GT = (n = 13) 10 HA y 3 HB GC: (n = 15) 12 HA y 3HB
Zaky et al. (2013) ²¹	ECCA	(n = 30)	9,93 ± 1,39 años	GT = (n = 15) GC: (n = 15)
Cuesta-Barriuso et al. (2014) ²³	Estudio piloto aleatorizado paralelo	(n = 9)	35,7 ± 11,9 años	GT1: (n = 5) GT2: (n = 4)
Cuesta-Barriuso et al. (2014) ²²	Estudio piloto aleatorizado controlado	(n = 31)	35,29 ± 12,877 años	GT = (n = 11) GE: (n = 10) GC: (n = 10)
Mazloun et al. (2014) ²⁰	EC	(n = 40) HA	Menores de 50 años	GTA: (n = 14) GT = (n = 13) GC: (n = 13)
Cuesta-Barriuso et al. (2017) ²⁴	ECCA	(n = 20) H. 16 HA	30,95 años	GT = (n = 10) GC: (n = 10)

EC: Ensayo Controlado; ECCA: Ensayo Clínico Controlado Aleatorizado; GC: Grupo Control; GT: Grupo Tratamiento; GTA: Grupo Tratamiento Agua; GT1: Grupo Tratamiento 1; GT2: Grupo Tratamiento 2; HA: Hemofilia A; HB: Hemofilia B; NH: No hemofílicos.

Tabla 3 – Características de los estudios incluidos

Estudios	Intervención	Variables	Instrumentos	Resultados
Gomis et al. (2009) ¹⁰	GT = electroestimulación (Fr: 45 Hz, impulso 200 μ s) Duración: ocho semanas de tratamiento en el bíceps braquial, ambos brazos Seguimiento: un mes antes y tras las ocho semanas de TTO	1. Diámetro del bíceps braquial 2. Evaluación de la AH 3. Activación nerviosa, actividad del músculo	1. Tomografía axial computarizada (picker PQ 2000Sc) 2. Escala de Pettersson y de Gilbert 3. Electromiografía (EMG)	El diámetro del bíceps braquial aumentó significativamente ($p < 0,05$). Mejoría significativa ($p < 0,05$) respecto a la máxima contracción isométrica voluntaria. Mejorías significativas ($p < 0,05$) para los valores del EMG del bíceps braquial GT = mejoría significativa en la resistencia ($p < 0,004$) Mejoría ($p < 0,035$) en el estado articular mediante OJS
Mackensen et al. (2012) ¹	GT= movilización y fortalecimiento en agua, 20 repeticiones. Disminuir en caso de fatiga muscular Duración: 1h/1 vez/semana durante 12 meses. Seguimiento: al inicio, a los 6 y a los 12 meses	1. Calidad de vida 2. Estado articular	1. Cuestionario A-36 de hemofilia 2. OJS. Medida del parámetro de la resistencia	Mejorías significativas ($p < 0,001$) en la caminata funcional de ambos grupos postratamiento Mejorías significativas ($p < 0,001$) en la fuerza muscular del cuádriceps en ambos grupos postratamiento
Zaky et al. (2013) ²¹	GT = Programa de ET de cuádriceps con carga de peso. GC: Programa de ET del cuádriceps Duración: 3 series/10 repeticiones/3 veces/semana durante 6 semanas Evaluación: pre y pos-TTO	1. Caminata funcional 2. La fuerza muscular isométrica del cuádriceps	1. Test de 6 min de caminata (TC6) 2. Test manual de sistema muscular Lafayette Pelota suiza (resistencia)	Mejorías significativas ($p < 0,001$) en la caminata funcional de ambos grupos postratamiento Mejorías significativas ($p < 0,001$) en la fuerza muscular del cuádriceps en ambos grupos postratamiento
Cuesta-Barriuso et al. (2014) ²³	GT1= MP y <i>stretching</i> GT2= TM en ambos grupos con ET de propiocepción. Duración: 2 sesiones/1h/semana durante 6 semanas Evaluación: al principio, al final del TTO y tras 6 meses	1. Dolor 2. ROM de flexión plantar, dorsal, eversion e inversión del tobillo 3. Propiocepción y equilibrio con y sin soporte visual	1. Escala EVA 2. Goniómetro 3. Prueba de Romberg y prueba de límites de movimiento (Biodex)	GMP = mejoría significativa ($p < 0,05$) en flexión plantar y dorsal, eversion, inversión y reducción del dolor La calidad de vida mejoró ($p < 0,05$). GTM= ($p < 0,05$) en flexión plantar y dorsal, inversión y eversion postratamiento
Cuesta-Barriuso et al. (2014) ²²	GT= TM, estiramiento pasivo (gemelos) y ET muscular y propioceptivo. Duración: 1h/2 veces/semana. GE = instrucción y ET en domicilio. Duración: 90 min/3 veces/semana durante 12 semanas	1. ROM flex dorsal y plantar del tobillo 2. Circunferencia del gemelo 3. Resistencia de los gemelos 4. Percepción del dolor 5. Evaluación radiológica del deterioro de las articulaciones	1. Goniómetro 2. Cinta métrica 3. Prueba de rotura 4. Escala EVA 5. Escala de Pettersson	GTM = mejorías significativas ($p = 0,00$) en la circunferencia del gemelo y en el dolor del tobillo GE = hubo mejorías pero no significativas
Mazloun et al. (2014) ²⁰	GTA = movimiento coordinado y rítmico del MI en el agua (calentamiento), estiramiento isquiotibiales y fortalecimiento del cuádriceps. GT = progresión de isométrica a isotónica, estiramientos de isquiotibiales. Duración: 3 días/semana durante 8 semanas	1. Fuerza muscular 2. Calidad de vida	1. Dinamómetro de mano 2. Cuestionario de WOMAC al principio y después de las intervenciones	Los pacientes tuvieron un aumento significativo en el bíceps femoral Mejoría en la calidad de vida ($p < 0,001$) Mayor mejoría en participantes del grupo de agua en comparación con los de tierra, pero no significativa ($p > 0,005$)

Tabla 3 – (continuación)

Estudios	Intervención	Variables	Instrumentos	Resultados
Cuesta-Barriuso et al. (2017) ²⁴	GT = 60 min sesiones instrucción cada dos semanas. Programa de ET: estiramiento muscular MMSS y MMII. Duración: 6 días/semana durante 15 semanas	1. Estado articular 2. Dolor articulares 3. Comportamiento de la enfermedad 4. Calidad de vida	1. Escala de Gilbert 2. Escala EVA 3. Cuestionario de comportamiento de la enfermedad 4. Cuestionario A-36 de hemofilia	Mejoría significativa en el dolor del tobillo ($p < 0,007$) Salud física ($p < 0,003$) Actividades diarias ($p < 0,006$) Articulaciones ($p < 0,004$) Dolor ($p < 0,005$) Funcionamiento emocional ($p < 0,045$) Calidad de vida ($p < 0,003$)
AH: Artropatía Hemofílica; EC: Ensayo Controlado; ECCA: Ensayo Clínico Controlado Aleatorizado; ET: Ejercicio Terapéutico; EVA: Escala Visual Analógica; GC: Grupo Control; Fr: Frecuencia; GE: Grupo Educacional; GT: Grupo Tratamiento; GTA: Grupo Tratamiento Agua; GT1: Grupo Tratamiento 1; GT2: Grupo Tratamiento 2; HA: Hemofilia A; HB: Hemofilia B; MMII: Miembros Inferiores; MP: Movilización Pasiva; MMSS: Miembros Superiores; NH: No hemofílicos; OJS: WFH Orthopaedic Joint Score; ROM: Rango de movilidad articular; TM: Terapia Manual; TTO: Tratamiento; WOMAC: Western Ontario and McMaster Universities.				

más frecuente. También se trató la musculatura de gemelos²², isquiotibiales, bíceps femoral²⁰ y cuádriceps^{20,21}. Un EC¹⁰ se centró en los miembros superiores, tratando bíceps braquial y tríceps braquial. Otro ensayo¹⁷ realizó tratamiento tanto en miembros inferiores como en superiores.

Intervención

El grupo de control no recibió ningún tipo de tratamiento en los EC revisados. Quienes pertenecen a este, continuaron con sus actividades cotidianas, a excepción de uno²¹ que realiza un programa de ejercicio terapéutico (ET).

Por otro lado, seis de los siete estudios^{1,20-24} utilizaron el ET como método de tratamiento para el grupo de tratamiento; un ensayo¹ llevó a cabo el ET en el agua. Dos estudios^{22,23} realizaron ET de propiocepción como tratamiento complementario a la movilización pasiva²³ y a la terapia manual (TM)^{22,23}. En un estudio²¹ hicieron ET con carga de peso. En dos EC^{20,24} se efectuaron ET con estiramientos. En un artículo¹ realizaron movilización pasiva y fortalecimiento. Además, dos de los seis estudios^{22,24} incluyeron en sus grupos de tratamiento sesiones de instrucción impartidas por un fisioterapeuta. Por otra parte, un ensayo¹⁰ utilizó la electroestimulación como tratamiento para la artropatía.

Variables físicas analizadas

Se analizaron, fundamentalmente, las siguientes variables: dolor, estado articular, fuerza muscular, diámetro muscular, ROM y calidad de vida.

Dolor

Se ha hecho un metaanálisis con la variable dolor, incluidos dos artículos, un ECCA²⁴ y un estudio piloto²². Ambos estudios comparan un grupo de tratamiento con un grupo de control y utilizan el mismo instrumento de medición: la escala EVA. El ECCA²⁴ hizo la medición en tres articulaciones (tobillo, rodilla y codo), mientras que el estudio piloto²² solo realizó la medición en una articulación (tobillo). En el ECCA²⁴ se obtuvieron mejorías significativas del dolor en el tobillo ($p < 0,007$) debido

a la TM, un programa de ET que incluía estiramientos musculares y sesiones de instrucción. El otro estudio²² declaró que la TM y el estiramiento provocan una disminución significativa del dolor ($p = 0,00$). En la figura 2 se muestra la información utilizada de cada estudio para realizar el metaanálisis, así como los resultados mediante el gráfico Forest plot. Se consideran los valores de EVA de ambos estudios para las distintas localizaciones en las que fue medida (tobillo^{22,24}, rodilla²⁴ y codo²⁴).

Estado articular

Cuatro artículos incluyeron su medición^{1,10,22,24}. Un estudio realizó la medición con la escala de Pettersson²² y obtuvo mejorías, aunque no significativas, mediante el tratamiento con TM y ET muscular y propioceptivo. Sin embargo, un ECCA efectuó la medición con la escala de Gilbert y obtuvo mejorías significativas ($p < 0,004$)²⁴ con el programa de ET, estiramientos musculares y las sesiones de instrucción. Por otro lado, otro ECCA¹⁰ hizo la medición con ambas escalas, pero no obtuvo ningún tipo de mejoría mediante el tratamiento con electroestimulación. Por último, un ensayo¹ realizó la medida mediante la escala WFH Orthopaedic Joint Score (OJS) y consiguió mejorías significativas ($p < 0,035$) mediante las movilizaciones y el fortalecimiento.

Fuerza muscular

Dos artículos^{20,21} realizaron la medición. Un ECCA²¹ hizo la medición con el test de Lafayette y obtuvo mejorías significativas ($p < 0,001$) en la fuerza muscular del cuádriceps después del tratamiento con un programa de ET con carga de peso. Sin embargo, el otro estudio²⁰ hizo la medida con un dinamómetro de mano y los pacientes lograron una mejoría en la fuerza del bíceps femoral mediante ET en agua, pero no fueron significativas.

Diámetro muscular

Dos artículos lo calcularon con diferentes técnicas^{10,22}: un ECCA mediante tomografía axial computarizada¹⁰ y otro estudio²² mediante una cinta métrica. Ambos estudios

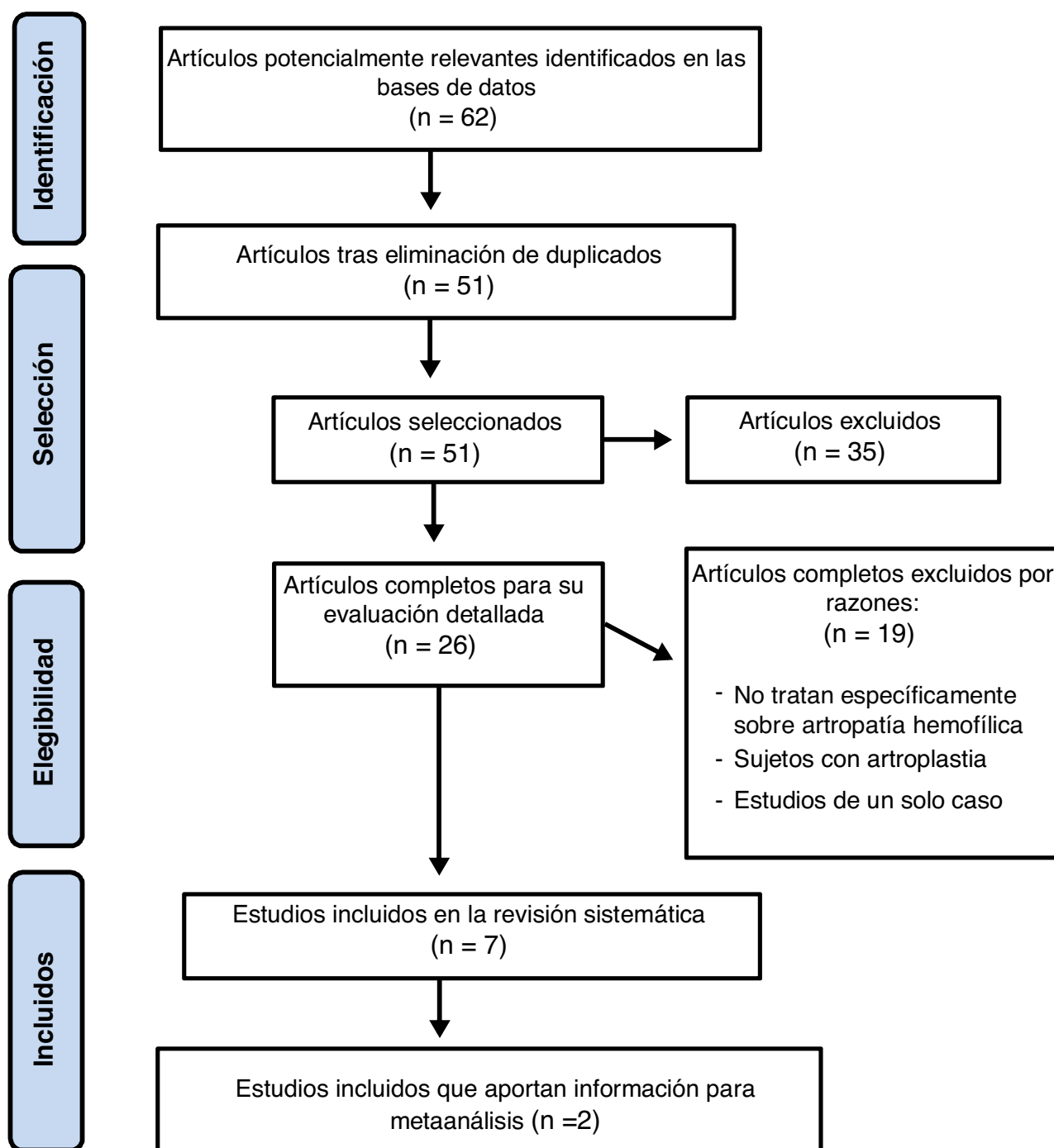


Figura 1 – Diagrama de flujo de las diferentes fases de la revisión sistemática y metaanálisis.

alcanzaron mejorías significativas^{10,22}. El ECCA¹⁰ obtuvo mejorías significativas ($p < 0,05$) en el diámetro del bíceps braquial por medio de la electroestimulación y el otro estudio²² ($p = 0,00$) las alcanzó en la circunferencia del gemelo mediante la TM y el ET muscular y propioceptivo.

Rango de movilidad articular (ROM)

Dos estudios^{22,23} llevaron a cabo la medición de la flexión dorsal y plantar del tobillo, ambos para tal fin emplearon

el goniómetro^{22,23}. Uno de los estudios²³ obtuvo mejorías significativas ($p < 0,05$) mediante la movilización pasiva, estiramientos musculares y la TM. Sin embargo, el otro estudio²² no obtuvo ningún tipo de mejoría con la TM y el ET.

Calidad de vida

Tres artículos incluyeron la medición de la calidad de vida^{1,20,24}. Dos estudios midieron la calidad de vida mediante el cuestionario A-36 de hemofilia^{1,24}. En un ECCA se produjo

Tabla 4 – Evaluación metodológica según escala PEDro

	Asignación aleatoria	Ocultación de la asignación	Grupos homogéneos al inicio	Cegamiento de los participantes	Cegamiento de los terapeutas	Cegamiento de los evaluadores	Seguimiento adecuado	Análisis por intención de tratar	Comparación entre grupos	Variabilidad y puntos estimados	Puntuación total
Gomis et al. ¹⁰	Sí	No	Sí	No	No	No	No	Sí	Sí	Sí	5/10
Cuesta-Barriuso et al. ²⁴	Sí	Sí	Sí	No	Sí	Sí	Sí	Sí	Sí	Sí	6/10
Cuesta-Barriuso et al. ²²	Sí	Sí	Sí	No	Sí	No	Sí	No	Sí	Sí	7/10
Zaky et al. ²¹	Sí	No	Sí	No	No	No	Sí	No	Sí	Sí	5/10
Cuesta-Barriuso et al. ²³	Sí	No	Sí	No	No	Sí	Sí	No	Sí	Sí	6/10
Mackensen et al. (2012) ¹	Sí	No	No	Sí	No	No	No	No	Sí	Sí	4/10

mejoría significativa ($p < 0,003$)²⁴ con un programa de ET con estiramientos en miembros superiores e inferiores. En el otro EC¹ se realizaron ET en agua y no se obtuvieron mejoras.

Funcionalidad

Un estudio llevó a cabo el cuestionario *Western Ontario and McMaster Universities Osteoarthritis Index* (Womac)²⁰. Tras hacer el tratamiento en agua se obtuvieron mejoras, una vez pasado el periodo de seguimiento de cinco años, pero no significativas ($p > 0,005$).

Discusión

El objetivo de la presente revisión fue analizar la evidencia científica sobre la eficacia de la rehabilitación física en torno a la AH. Los resultados obtenidos indican que dicha intervención produce mejoras en las deficiencias físicas provocadas por la AH, así como en la calidad de vida de los pacientes hemofílicos. La mayor parte de los EC^{1,10,20,22-24} se han realizado sobre adultos con AH tipo A y sobre articulaciones de miembros inferiores.

En cuanto a los diferentes tipos de intervención, el ejercicio terapéutico ha sido la intervención más empleada^{1,20-24}. Mediante esta se han conseguido mejoras significativas en la resistencia y el estado articular¹; en el ROM de tobillo, dolor^{22,24} y calidad de vida^{13,21,24}; en el diámetro muscular en gemelos²²; en la marcha y en la fuerza muscular de cuádriceps²¹.

Los resultados favorables sobre el dolor alcanzados en los estudios realizados por Cuesta-Barriuso et al.^{22,24} deben tomarse especialmente en cuenta, ya que ambos estudios tienen alta calidad metodológica y los resultados han sido evaluados estadísticamente mediante metaanálisis. Ambos estudios, por medio de programas de rehabilitación domiciliaria^{19,22} y TM²², logran mejoras significativas de la percepción del dolor en la articulación del tobillo^{19,22}, así como en la calidad de vida, en la percepción de la evolución de la enfermedad¹⁹ y en el diámetro muscular de gastrocnemios²².

Por otro lado, el estudio de Gomis et al.¹⁰, de alta calidad metodológica según escala PEDro, utiliza un programa de electroestimulación de ocho semanas de duración en sujetos con AH tipo A, y consigue mejoras significativas en el diámetro muscular y registro EMG en bíceps braquial.

Por último, cabe destacar que en los estudios analizados en la presente revisión, los autores no hacen referencia a posibles efectos adversos.

Los resultados obtenidos deben ser considerados por los profesionales de la salud, los pacientes y aquellos agentes encargados de la toma de decisiones en ámbitos hospitalarios. Tal y como se menciona en la introducción, el 66% de los pacientes con AH no está recibiendo un tratamiento adecuado¹¹, por tanto, es necesaria una mayor visibilización y concienciación con respecto a los beneficios que reporta la terapia física en este grupo de población.

Se han presentado ciertas limitaciones a la hora de realizar esta revisión sistemática. La heterogeneidad, el reducido número de artículos obtenidos y los pequeños tamaños

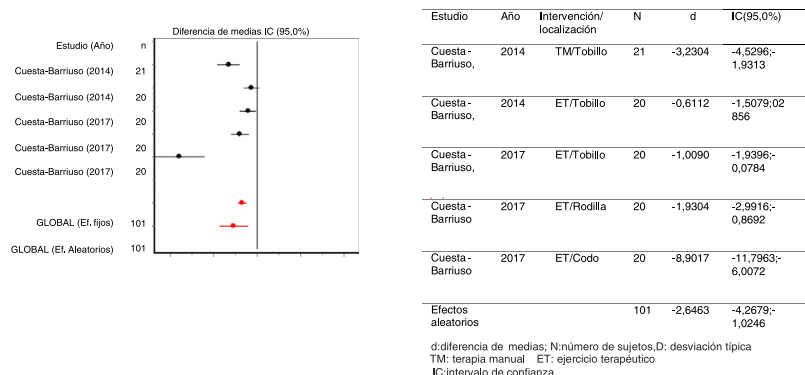


Figura 2 – Gráfico Forest plot, resultados individuales y combinados de metaanálisis sobre la eficacia de la rehabilitación física en el manejo del dolor provocado por la artropatía.

muestrales limitan las posibles comparaciones, por lo cual los resultados deben ser tomados con cautela. De esta manera, solo ha sido posible realizar metaanálisis sobre una de las variables medidas (dolor), teniendo en cuenta un tamaño muestral total muy bajo (51 pacientes). Además, la elección de las bases de datos podría estar influyendo en los resultados obtenidos. En este sentido, faltarían algunas de ellas, como la literatura gris, CINAHL, EMBASE o Cochrane; también podría estar limitado al idioma inglés y al español.

El uso de ensayos clínicos aleatorizados y el hecho de que más de la mitad obtuviera una puntuación elevada en la escala PEDro proporciona fiabilidad a la revisión, ya que es el tipo de estudio más adecuado para evaluar la eficacia y el valor de una intervención. Sin embargo, no se hizo una evaluación del riesgo de sesgo por desenlace, es decir, no se consideró de manera sistemática la posibilidad de sesgo de la evidencia acumulada con respecto al desenlace de dolor.

Conclusiones

Esta revisión sistemática encontró evidencia de la eficacia de la rehabilitación en la mejoría de la AH, principalmente mediante el uso del ET. Además, se hallaron beneficios potenciales en distintos aspectos como, por ejemplo, dolor, estado articular, fuerza y diámetro muscular, rango de movilidad articular y calidad de vida. Serían necesarios estudios adicionales de alta calidad metodológica en los que se apliquen protocolos diversos, se utilice un mayor tamaño muestral, se midan variables similares y se evalúen los efectos a largo plazo.

Financiación

La presente investigación no ha recibido ninguna beca específica de agencias de los sectores público, comercial o sin ánimo de lucro.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

BIBLIOGRAFÍA

- Von Mackensen S, Eifrig B, Zäch D, Kalnins J, Wieloch A, Zeller W. The impact of a specific aqua-training for adult haemophilic patients - results of the WATERCISE study (WAT-QoL). *Haemophilia*. 2012;18:714–21, <http://dx.doi.org/10.1111/j.1365-2516.2012.02819.x>.
- Strike K, Mulder K, Michael R. Exercise for haemophilia. *Cochrane Database Syst Rev*. 2016;2016, <http://dx.doi.org/10.1002/14651858>.
- Stonebraker JS, Bolton-Maggs PHB, Soucie JM, Walker I, Brooker M. A study of variations in the reported haemophilia A prevalence around the world. *Haemophilia*. 2010;16:20–32, <http://dx.doi.org/10.1111/j.1365-2516.2009.02127.x>.
- Wojdasiewicz P, Poniatowski ŁA, Nauman P, Mandat T, Paradowska-Gorycka A, Romanowska-Próchnicka K, et al. Cytokines in the pathogenesis of hemophilic arthropathy. *Cytokine Growth Factor Rev*. 2018;39:71–91, <http://dx.doi.org/10.1016/j.cytogfr.2017.11.003>.
- Fuenmayor Castaño A, Jaramillo Restrepo M, Salinas Durán F. Calidad de vida en una población con hemofilia: estudio de corte transversal en un centro de tratamiento de hemofilia. *Rev Colomb Reumatol*. 2017;24:18–24, <http://dx.doi.org/10.1016/j.rcreu.2016.10.006>.
- Rodríguez-Merchán EC. Effects of hemophilia on articulations of children and adults. *Clin Orthop Relat Res*. 1996;7–13.
- Molina AM, Chaverri FS, Wong OM. Generalidades de la artropatía hemofílica y la importancia del manejo en rehabilitación. *Rev Clín Esc Med*. 2014;4, http://dx.doi.org/10.15517/RC_UCR-HSJD.V4I5.15964.
- Rodríguez-Merchán EC. The haemophilic ankle. *Haemophilia*. 2006;12:337–44, <http://dx.doi.org/10.1111/j.1365-2516.2006.01285.x>.
- Zuñiga CP. Tratamiento de la artropatía hemofílica: papel de la radiosinoviotesis. *Medwave*. 2008;8:e1773, <http://dx.doi.org/10.5867/medwave.2008.05.1773>.
- Gomis M, González LM, Querol F, Gallach JE, Toca-Herrera JL. Effects of electrical stimulation on muscle trophism in patients with hemophilic arthropathy. *Arch Phys Med Rehabil*. 2009;90:1924–30, <http://dx.doi.org/10.1016/j.apmr.2009.05.017>.
- Gomis M, Querol F, Gallach JE, González LM, Aznar JA. Exercise and sport in the treatment of haemophilic patients: A systematic review. *Haemophilia*. 2009;15:43–54, <http://dx.doi.org/10.1111/j.1365-2516.2008.01867.x>.
- Tiktinsky R, Falk B, Heim M, Martinovitz U. The effect of resistance training on the frequency of bleeding in

- haemophilia patients: A pilot study. *Haemophilia*. 2002;8:22-7, <http://dx.doi.org/10.1046/j.1365-2516.2002.00575.x>.
13. Schäfer GS, Valderramas S, Gomes AR, Budib MB, Wolff ÁLP, Ramos AAT. Physical exercise, pain and musculoskeletal function in patients with haemophilia: A systematic review. *Haemophilia*. 2016;22:e119-29, <http://dx.doi.org/10.1111/hae.12909>.
 14. Negrier C, Seuser A, Forsyth A, Lobet S, Llinas A, Rosas M, et al. The benefits of exercise for patients with haemophilia and recommendations for safe and effective physical activity. *Haemophilia*. 2013;19:487-98, <http://dx.doi.org/10.1111/hae.12118>.
 15. Hutton B, Salanti G, Caldwell DM, Chaimani A, Schmid CH, Cameron C, et al. The PRISMA extension statement for reporting of systematic reviews incorporating network meta-analyses of health care interventions: checklist and explanations. *Ann Intern Med*. 2015;162:777-84, <http://dx.doi.org/10.7326/M14-2385>.
 16. Description of Physical Therapy: Policy Statement. World Confederation for Physical Therapy. Appendix 1. 2011. Disponible en: <https://www.wcpt.org/policy/ps-descriptionPT>
 17. World Health Organization (WHO). International classification of functioning, disability and health. 2001. Disponible en: <https://apps.who.int/iris/bitstream/handle/10665/42407/9241545429.pdf;jsessionid=FF43B93B5F9001C671D1C05A22A74C34?sequence=1>.
 18. Maher CG, Sherrington C, Herbert RD, Moseley AM, Elkins M. Reliability of the PEDro Scale for rating quality of randomized controlled trials. *Phys Ther*. 2003;83:713-21.
 19. Moseley AM, Herbert RD, Sherrington C, Maher CG. Evidence for physiotherapy practice: a survey of the physiotherapy evidence database (PEDro). *Aust J Physiother*. 2002;48:43-9, [http://dx.doi.org/10.1016/s0004-9514\(14\)1-6 6028](http://dx.doi.org/10.1016/s0004-9514(14)1-6 6028).
 20. Mazloun V, Khayambashi K, Rahnama N. Comparison of the effect of aquatic exercise therapy and land-based therapeutic exercise on knee muscles' strength and quality of life in patients with knee joint arthropathy due to hemophilia. *J Babol Univ Med Sci*. 2014;16:26-32.
 21. Zaky LA, Hassan WF. Effect of partial weight bearing program on functional ability and quadriceps muscle performance in hemophilic knee arthritis. *Egypt J Med Hum Genet*. 2013;14:413-8, <http://dx.doi.org/10.1016/j.ejmhg.02.002 2013>.
 22. Cuesta-Barriuso R, Gómez-Conesa A, López-Pina JA. Effectiveness of two modalities of physiotherapy in the treatment of haemophilic arthropathy of the ankle: a randomized pilot study. *Haemophilia*. 2014;20:e71-8, <http://dx.doi.org/10.1111/hae.01232>.
 23. Cuesta-Barriuso R, Gómez-Conesa A, López-Pina JA. Manual therapy in the treatment of ankle hemophilic arthropathy. A randomized pilot study. *Physiother Theory Pract*. 2014;30:534-9, <http://dx.doi.org/10.3109/09593985.2014.489021>.
 24. Cuesta-Barriuso R, Torres-Ortuño A, Nieto-Munuera J, López-Pina JA. Effectiveness of an educational physiotherapy and therapeutic exercise program in adult patients with hemophilia. *Arch Phys Med Rehabil*. 2017;98:841-8, <http://dx.doi.org/10.1016/j.apmr.10.014 2016>.