



UNIVERSIDAD DE SEVILLA

MEDICINA PREVENTIVA Y SOCIAL

ESTUDIO COMPARATIVO DE LAS
CARACTERÍSTICAS EPIDEMIOLÓGICAS DE
LOS HEMOFÍLICOS Y DE LOS SERVICIOS
ASISTENCIALES PARA ELLOS EXISTENTES
EN LAS REGIONES DE VALENCIA Y OXFORD.

AUTOR: Francisco Bolumar Montrull

DIRECTOR: Enrique Nájera Morrondo

1 de Junio de 1980

R. 3. 999.

B
26



T. D.
B/26

PROF. ENRIQUE NAJERA MORRONDO, Profesor Agregado de Medicina Preventiva y Social en la Facultad de Medicina de la Universidad de Sevilla,

CERTIFICA: Que D. Francisco Bolumar Montrull, Licenciado en Medicina y Cirugia por la Facultad de Medicina de Valencia, ha realizado bajo mi supervision su Tesis Doctoral sobre:

"ESTUDIO COMPARATIVO DE LAS CARACTERISTICAS EPIDEMIOLOGICAS DE LOS HEMOFILICOS Y DE LOS SERVICIOS ASISTENCIALES PARA ELLOS EXISTENTES EN LAS REGIONES DE VALENCIA Y OXFORD"

Por lo que expido el presente certificado en Sevilla a uno de Junio de mil novecientos ochenta



Enrique Najera

M. B.º El puente.
Julio 1980

página

INDICE

CAPÍTULO I - AGRADECIMIENTOS	1
CAPÍTULO II - INTRODUCCIÓN	4
CAPÍTULO III - MATERIAL Y METODOS	11
CAPÍTULO IV - RESULTADOS	25

IV. 1. Características de las Poblaciones. 26

- a) Edad
- b) Estado Civil
- c) Clase Social
- d) Gravedad de la Enfermedad
- e) Antecedentes Familiares
- f) Anticuerpos

IV. 2. Población entrevistada. 34

Utilización de los Servicios Sanitarios.

- a) Medios de Transporte
- b) Beneficios de la Seguridad Social
- c) Utilización de medicamentos analgésicos
- d) Utilización de Material Terapéutico

IV. 3 Resultados 41

- a) Incapacidad Física

	página
b) Incapacidad Subjetiva	
c) Títulos Obtenidos	
d) Actividad Física	
e) Empleos Desempeñados	
f) Número de horas de trabajo perdidas semanalmente	
g) Situación Laboral	
h) Grado de Satisfacción del paciente	
IV. 4. <u>Recursos</u>	52
a) Personal	
b) Equipamiento	
IV. 5.A.	54
a) Sueldos del Personal	
b) Coste del Material Terapéutico	
c) Coste de Hospitalización	
d) Coste de Mantenimiento	
e) Coste de Transporte	
f) Coste de Equipamiento	
IV. 5.B. <u>Implicaciones económicas</u> <u>del Tratamiento domiciliario</u>	59

	página
CAPÍTULO V - DISCUSIÓN	68
V.1 <u>Características de las Poblaciones</u>	69
a) Edad	
b) Estado Civil	
c) Clase Social	
d) Gravedad de la enfermedad	
e) Antecedentes Familiares	
f) Anticuerpos	
V. 2. <u>Utilización de los Servicios</u>	76
a) Medios de Transporte	
b) Beneficios de la Seguridad Social	
c) Utilización de medicamentos analgésicos y y material terapéutico	
V. 3. <u>Resultado</u>	81
a) Incapacidad Física	
b) Incapacidad Subjetiva	
c) Títulos Obtenidos	
d) Actividad Física	
e) Empleos Desempeñados	
f) Número de horas de trabajo perdidas semanalmente	

	página
g) Situación Laboral	
h) Grado de satisfacción del paciente	
V. 4.A. <u>Recursos y Coste</u>	88
V. 4.B. <u>Implicaciones económicas del</u> <u>Tratamiento domiciliario</u>	88
CAPÍTULO VI - CONCLUSIONES Y RECOMENDACIONES	92
TABLAS	97
BIBLIOGRAFÍA	143
APENDICE I	155
APENDICE II	171

CAPITULO I : AGRADECIMIENTOS

CAPITULO I : AGRADECIMIENTOS

Estoy profundamente agradecido al Profesor Ch. R. Rizza, Jefe del Departamento de Hemofilia de Oxford, por su valiosa colaboración y estímulo a lo largo de este trabajo.

Quisiera así mismo dar las gracias a mi tutor el Profesor R. H. Mc Neilly por sus oportunos comentarios en el diseño del trabajo.

Alexander Barr, Jefe de los Servicios de Estadística médica de la Región de Oxford leyó el primer borrador y sus críticas mejoraron notablemente el tratamiento estadístico de este trabajo. Lex, muchas gracias.

En Valencia, la ayuda que el Dr. Marco y el Dr. Aznar, Jefes del Departamento de Hematología, me prestaron desde un principio, fué fundamental en la obtención de la información deseada. Muchas gracias.

Muchas gracias a mis compañeros de curso, Rogelio, Secundino, Encarna e Ignacio, Jefes Clínicos y adjuntos de Hematología por el "curso acelerado" sobre Hemofilia.

Mi gratitud a la Sociedad Valenciana de Hemofilia por su inestimable ayuda en la convocatoria de hemofílicos para mis entrevistas.

Graham Mac Donald y John Ennis me enseñaron la programación con computadoras. Muy agradecido a los dos.

Enrique Nájera, Profesor Agregado de Medicina Preventiva y Social en Sevilla, revisó críticamente el manuscrito y sus opiniones fueron determinantes en los cambios introducidos. Enrique, gracias.

Churri, Consuelo y Juan, compañeros de nocturnidad, no cesaron de recordarme mi compromiso de entregar la Tesis antes del verano. Gracias por el empujón.

Last, but not least, Ann Mitchell. Ann soportó estoicamente mis preguntas sobre Shakespeare y su lengua, y me hizo la vida más fácil en los peores momentos.

CAPITULO II : INTRODUCCION

It is related that four sisters lived in Zipporah:

-The first had her child circumcised and he died,

-The second likewise, and likewise the third.

-The fourth then went to the Rabbi, Simon ben Gamaliel, who ordered:

"Do not circumcise because there are certain families where blood remains fluid while it clots in others."

The Tractat Jebamoth of the Talmud

CAPÍTULO II : INTRODUCCIÓN

La hemofilia A es una enfermedad hemorrágica debida a una deficiencia congénita de Factor VIII y es la más comun e importante de las enfermedades hemorrágicas de caracter hereditario(1). La enfermedad afecta a los varones y se transmite por medio de genes anómalos ligados al sexo, transportado por el cromosoma X y generalmente de carácter recesivo (2).

La enfermedad, cuando es grave, tiene repercusiones de carácter inmediato (dolor y malestar, pérdida de jornadas laborales y escolares, trastorno de la vida familiar) y repercusiones a largo plazo (invalidez).

Las estimaciones que sobre la prevalencia de la hemofilia se han llevado a cabo en distintos países oscilan entre 2 por 100.000 de la población total y 10 por 100.000 de la población total. En el Reino Unido una cifra de 6 por 100.000 de la población total, es decir 3.300 hemofílicos, constituye la estimación más probable(3).

En España, la prevalencia no es conocida pero puede ser estimada como inferior a la del Reino Unido, al haberse producido una mayor mortalidad por hemofilia en nuestro país. Sin lugar a duda estas estimaciones son claramente conservadoras puesto que deben existir muchos más hemofílicos que

por presentarse su enfermedad con carácter leve no han sido detectados y que no lo serán a menos que deban someterse a operaciones importantes ó se vean envueltos en un accidente grave

El presente estudio, centrado exclusivamente en hemofílicos A puesto que la prevalencia de hemofilia B es muy baja, se ha llevado a cabo en Valencia y Oxford (Inglaterra) que son dos ciudades de parecido nivel de vida y estructura de población.

La primera parte de nuestro trabajo se centra en el estudio de la prevalencia de la enfermedad en las áreas de Valencia y Oxford y en las características epidemiológicas que pueden diferenciar a los hemofílicos residentes en las citadas áreas.

La hemofilia, como se sabe, se presenta bajo tres formas: grave, moderada y Leve.

Los pacientes hemofílicos cuyos procesos revistan un carácter moderado ó leve no presentan un problema importante — desde el punto de vista de los recursos tanto médicos como económicos implicados en su tratamiento — puesto que pueden transcurrir largos períodos en los que estos pacientes no sufran ningún tipo de hemorragia. Por el contrario, los casos graves debido a sus frecuentes hemorragias constituyen

la gran mayoría de los enfermos tratados.

Hasta el inicio de la década de los años cincuenta el futuro de un paciente aquejado de hemofilia grave era bastante sombrío pero los últimos veinte años han contemplado enormes cambios en el tratamiento de estos enfermos. Dichos cambios se ha producido fundamentalmente gracias a un aumento en la disponibilidad de material terapéutico efectivo en el tratamiento de los hemofílicos(4), lo que a su vez ha traído como consecuencia el desarrollo de los servicios y muy fundamentalmente la introducción de la terapia domiciliaria.

Estos avances, sin embargo, han sido ampliamente cuestionados por sector de la administración sanitaria, alegando incertidumbre en el balance costo-efectividad.

La cuestión se plantea en términos monetarios y de efectividad ya que el tratamiento de los hemofílicos es extremadamente caro y los resultados clínicos de dicho tratamiento están todavía por demostrar.

La segunda parte de nuestro trabajo se divide, por tanto, en dos subsecciones; la primera, dedicada al estudio de la utilización de servicios sanitarios realizada por los hemofílicos y la segunda, presenta los resultados tanto clínicos como sociales obtenidos con el tratamiento. Esta segunda subsección es un intento de clarificar el problema de costo-be-

neficio anteriormente mencionado.

El número de publicaciones aparecidas en la literatura mundial consagradas al estudio de la demanda y utilización de los servicios sanitarios es muy amplio, pero hasta la fecha ningún intento realista de evaluar los costes de los servicios ha sido llevado a cabo.

Estudios parciales que tratan de cuantificar los costes de los servicios sanitarios destinados a hemofílicos se han realizado recientemente (1,2,3,4,5,6,7,8), pero dichos estudios se concentran en aspectos parciales, no suministrando ninguno de ellos una evaluación del coste global.

La tercera parte de nuestro trabajo, que supone una aplicación de la economía al terreno sanitario, presenta una relación detallada de los recursos existentes para el tratamiento de los hemofílicos y de los costes que conlleva dicho tratamiento. Así mismo, discutimos en esta tercera parte las implicaciones económicas de la introducción de una nueva modalidad terapéutica en hemofilia, es decir, la introducción del tratamiento domiciliario.

Esta tercera parte del trabajo se ha realizado exclusivamente en la Región de Oxford, ya que en 1976 no había comenzado todavía el régimen de tratamiento domiciliario en la provincia de Valencia.

Las referencias bibliográficas se presentan numeradas secuencialmente al final de cada capítulo.

La bibliografía completa aparece estructurada por orden alfabético al final de este trabajo.

REFERENCIAS

1. RIZZA, C.R. (1977) Nursing Times, 22.9.77.
2. DUTHIE, R.B. et al, The mnagement of musculo-skeletal problems in the Haemophilias. Oxford, 1972
3. BIGGS, R. (ed.) The treatment of Haemophilia A and B and Von Willebrand's disease. Oxford, 1978
4. RIZZA, C.R. SPOONER, R.J.D. (1977) British Journal of Haematology, 37, 53-66
5. BIGGS, R..(1974) The lancet, 1, 1339

CAPITULO III : MATERIAL Y METODOS

CAPITULO III : MATERIAL Y METODOS

III.1 - Material - Población en estudio

La población en estudio, esto es el material de nuestro trabajo, ha sido todos los hemofílicos (hemofilia A) que vivían en 1976 en nuestras áreas de trabajo, la provincia de Valencia en España y la región de Oxford en Inglaterra. Este gran total ha sido objeto del análisis detallado, estudio epidemiológico de características personales, que realizamos en la primera parte del estudio.

La segunda parte del trabajo, fué limitada, como es obvio, y se ha señalado en la introducción a aquellos enfermos de hemofilia A, que se consideraron graves. Por tanto se concreta a 45 enfermos en el area de Valencia y 95 en la de Oxford. Todos ellos fueron entrevistados personalmente.

En el area de Valencia, los 45 enfermos entrevistados eran la totalidad de los censados como hemofílicos y que reunían las características de gravedad, esto es poseer un nivel de Factor VIII inferior al 2 % y sufrir frecuentes episodios hemorrágicos.

Sin embargo en el area de Oxford, los 95 enfermos entrevistados no son el total de censados y clasificados como graves. Hubo enfermos que fallecieron en el año 1976 y otros que

abandonaron el area de Oxford antes de ser entrevistados. Igualmente algunos enfermos que vivían en 1976 en el area de Oxford pero recibían tratamiento en otro Hospital no fueron incluidos para evitar "conflictos" al someterlos a la entrevista que incluía un examen clínico.

Para la tercera parte del trabajo en Valencia consideramos los mismos 45 enfermos ya que no había problema ni interferencia en otra area de tratamiento.

En el area de Oxford pareció prudente incluir para esta tercera parte del trabajo a todos aquellos hemofílicos A que fueron tratados en 1976 en el centro de Hemofilia de Oxford, independientemente de que su lugar de residencia se encontrara fuera de esta región.

III.2 - Metodos

Para poder alcanzar y obtener contacto con nuestro material, es decir los hemofílicos de las dos areas en estudio, logramos obtener una lista completa de todos los enfermos hemofílicos (hemofilia A) que vivían en las dos areas, la provincia de Valencia y el area de Oxford.

La lista o censo en Valencia nos fué facilitada por los Centros de hematología (libros registro), la de Oxford por el Centro de hemofilia de Oxford. (Esta incluyó además los que

eran tratados en el Centro y no vivían en el área - ver último apartado de III.1)

El eje de nuestra metodología fué recoger, de las fuentes mencionadas, la información que se consideró esencial, esto es : edad, sexo, estado civil, clase social (o indicador indirecto de clase social : profesión), gravedad de la enfermedad medido como nivel hemático de factor VIII, presencia o ausencia de antecedentes familiares de hemofilia y presencia o ausencia de anticuerpos anti-factorVIII en sangre.

Igualmente obtuvimos información sobre sueldos del personal dedicado a la atención de estos enfermos, material utilizado, gastos de equipo y de su mantenimiento; todo ello gracias a la colaboración del personal de los Centros mencionados en las dos áreas que pusieron a nuestra disposición los archivos pertinentes.

Como la hemofilia es enfermedad que exige con frecuencia hospitalización de los enfermos y ocasionalmente cirugía reparadora, se completó la información con la lista de hemofílicos que ingresaron en 1976 en el Churchill Hospital y el Centro Ortopédico Nuffield en Oxford. En todos los casos obtuvimos los datos correspondientes a duración de la estancia hospitalaria y coste promedio de estas estancias, para poder perfeccionar las cifras correspondientes al costo del trata-

miento.

En base a un cuestionario que habia sido anteriormente utilizado para un estudio colaborativo entre el Centro de Hemofilia de Oxford y el Hospital de St' Thomas en Londres (1) elaboramos un cuestionario semi-estructurado que nos permitió obtener información detallada sobre el uso de los servicios medico-asistenciales y el resultado e incidencias del tratamiento aplicado. El mismo cuestionario adaptado y traducido al español fué utilizado en el area de Valencia.

El autor entrevistó personalmente a todos los enfermos en el estudio, tantos aquellos del area de Valencia como del area de Oxford. La gran mayoría de ellos fueron entrevistados cuando acudían a los Centros mencionados para revisión o tratamiento. Los restantes fueron entrevistados en sus domicilios mediante los oportunos desplazamientos personales.

III.2.1 - El cuestionario

El cuestionario que aparece en su integridad - tanto el modelo utilizado en español en Valencia, como su traducción al Inglés utilizada en Oxford - en el apéndice 1, contiene un total de 79 preguntas y fué dividido con objeto metodológico en 5 secciones relacionadas entre sí.

En la puesta a punto del cuestionario se utilizaron numerosas sugerencias recibidas de los especialistas que trabajaron en los Centros , así como aquellos obtenidos de algunos enfermos, gracias a entrevistas previas, que resultaron ser de gran utilidad.

Dedicamos especial atención y cuidado a los puntos siguientes que por su valor e interés metodológico debemos señalar :

a) Elección cuidadosa de las palabras utilizadas al formular las preguntas, de forma que pudieramos obtener respuestas claras y objetivas que contuvieran en sí mismas la información pertinente para lograr el objetivo que se pretendía ; definir un determinado parámetro.

b) Conseguir administrar el cuestionario en el mínimo tiempo posible . Esto era de importancia para evitar el cansancio y aburrimiento del enfermo al ser entrevistado - lo que si no se logra hace obtener respuestas de dudosa validez conforme se progresa en las preguntas - y por otro lado no se entretenía innecesariamente a los enfermos que acudían a los Centros y tenían que regresar a su domicilio, con frecuencia teniendo que viajar distancias de consideración.

c) Distribución de las preguntas en el cuestionario. El cuestionario incluye una serie de preguntas relacionadas entre sí cuya misión era precisamente realizar comprobaciones

cruzadas de la validez de las respuestas. Dichas preguntas fueron por ello convenientemente distribuidas a lo largo del cuestionario para que su función de comprobación no resultara excesivamente evidente.

Las respuestas obtenidas fueron agrupadas de acuerdo a los siguientes parámetros :

1) Incapacidad.-

a) Incapacidad física . Para su valoración utilizamos la guía "Rango de los movimientos articulares" publicada en 1965 por la American Orthopaedic Association (2). Esta guía permite medir el rango de los movimientos de las siguientes articulaciones : hombros, codos, caderas y rodillas, estableciendo para cada articulación la amplitud o rango que se considera normal. Por ejemplo, el rango normal para la abducción gleno-humeral del hombro es de 60° y para la flexión del codo es de 150°

Para poder traducir las mediciones así obtenidas en niveles de incapacidad decidimos establecer - previa discusión con los especialistas - el que cada 10° de limitación del rango normal sumaría 1 punto al nivel final de incapacidad.

Por ejemplo un hemofílico que tuviera todas sus articulaciones en perfecto estado funcional excepto su codo izquierdo en el que medimos una amplitud de movimiento limitado a

110º, sería clasificado con un nivel de incapacidad de 4 puntos ($150 - 110 = 40$; $40 : 10 = 4$).

Si, nuevo ejemplo, tuviera además de la mencionada incapacidad, una limitación de movimiento de su hombro izquierdo a 40º, sumaría otros 2 puntos de nivel de incapacidad ($60-40=20$; $20 : 10 = 2$), de forma que su nivel o grado final serían 6 puntos.

b) Incapacidad subjetiva. Su valoración incluía dos puntos esenciales : primero, si el enfermo se consideraba a sí mismo incapacitado y segundo, agrupando en distintos grados los analgésicos que utilizaban, si es que lo utilizaban.

2) Nivel de escolarización alcanzado. Para medir indirectamente la incapacidad estudiamos tres posibles factores :

- a) número de horas perdidas en la escuela.
- b) tipo de educación y nivel que el enfermo recibía y
- c) títulos obtenidos.

3) Empleo. Igualmente para valorar este parámetro utilizamos información procedente de tres tipos de preguntas :

- a) tipo de trabajo.
- b) grado de actividad física requerido.
- c) capacidad de desarrollarlo adecuadamente.

III 2.2 Procesamiento del cuestionario.-

a) Codificación.

No tuvimos que elaborar instrucciones de codificación para las preguntas cerradas ya que la mayoría de las preguntas eran fácilmente auto-codificables y el autor las codificaba simultáneamente a la administración del cuestionario.

La codificación de las preguntas abiertas fué realizada al final, después de que todos los enfermos habían sido entrevistados. Las respuestas fueron agrupadas bajo varios subtítulos y como el rango de opiniones fue bastante limitado utilizamos y analizamos todas las opiniones obtenidas (Apéndice 2).

b) Análisis por computador.

El valor de la información obtenida, su relatividad lógica, y el control de su variabilidad fueron hechos en forma directa por inspección visual ya que el volumen de datos era relativamente pequeño.

El análisis fue realizado utilizando el computador IBM 1130 de la Dirección Regional de Salud de Oxford (Oxford Regional Health Authority) mediante un programa en FORTRAN elaborado gracias a la colaboración de la Unidad Regional de Investigación Operativa y Estadística (Regional Statistical

and Operational Research Unit).

III.3 Evaluación de la metodología

a) La respuesta.-

La tasa de respuestas obtenidas de aquellos que tenían que ser entrevistados fue absoluta, del 100%, tanto en Valencia como en Oxford.

Para lograr esta tasa de respuesta, antes de que llegara el momento de la entrevista enviamos cartas explicando las razones de ella.

En Valencia la Sociedad de Hemofílicos, se encargó de enviar todas las cartas a los miembros de la Sociedad, que en definitiva estaba constituida por ellos y para ellos.

En Oxford, el Jefe del Departamento de Hemofilia envió a todos sus pacientes una carta de presentación, explicando las razones del estudio. En ambas áreas, si los enfermos eran niños, enviamos una segunda carta, o carta adicional, a sus padres.

Ambas cartas, - la utilizada en Valencia y la utilizada en Oxford aparecen en el Apéndice 2.

Como hemos señalado, la entrevista se realizó, casi siempre, en los servicios de hemofilia cuando los enfermos acudían

para revisión o tratamiento. Solo aquellos que tuvieron suficiente suerte como para no necesitar acudir a los Centros al no tener episodios hemorrágicos durante el periodo,* fueron visitados en sus domicilios. (Periodo sobre el estudio).*

Ningun enfermo se negó a ser entrevistado ; todo lo contrario, siempre fuimos recibidos con gran interés y cooperaron en forma excelente en la respuesta a todas las preguntas.

b) Validez y Reproducibilidad.-

La validez del cuestionario y su relevancia habían sido ya demostrados, al menos parcialmente, en el estudio de colaboración original anteriormente mencionado (Oxford y St'Thomas). De todas formas y como había sido adaptado y modificado, realizamos un ensayo piloto que resultó satisfactorio. Por otra parte al cotejar las respuestas del cuestionario con los datos recogidos en las fichas medicas de los Centros no se observaron discrepancias.

Las mediciones de movimientos articulares fueron llevadas a cabo por el autor en todos los casos en Valencia y en la gran mayoría de los casos de Oxford, si bien aquí fué ayudado por uno de los Jefes Clínicos de la Unidad de Hemofilia de Oxford.

El autor repitió las mediciones en 10 casos examinados

por el Jefe Clínico y solo en un caso hubo una diferencia de 15º, observada en la medición del movimiento de una rodilla.

El autor también tuvo la oportunidad de controlarse a sí mismo, repitiendo las mediciones en 15 enfermos examinados originalmente por él y solo en 1 caso observó diferencia (en el movimiento del hombro derecho de aquel enfermo) que pudo atribuirse a que el enfermo había tenido un episodio hemorrágico en aquella articulación unos pocos días antes de volver a ser examinado.

III.4. Cambios de la población en estudio.-

A la hora de establecer comparaciones, la población ha sido limitada a aquella en que la comparación era posible. Así del total de 54 hemofílicos en Valencia y 185 en Oxford, se tomaron solo 28 en Valencia y 136 en Oxford al analizar el papel del sexo y edad (sexo masculino en edad de contraer mat rimonio) en el desenvolvimiento social. Igualmente las cifras se reducen a 28 en Valencia y 107 en Oxford cuando consideramos los hemofílicos varones que podían clasificarse como económicamente activos.

En la segunda parte y de la misma forma, los 45 hemofílicos en Valencia y los 95 en Oxford que forman el conjunto de los hemofílicos graves, se reducían a 21 en Valencia y 54 en Oxford al tomar los hemofílicos del sexo masculino econó-

micamente activos.

En la tercera parte el total considerado es superior, al incluir en Oxford todos los enfermos tratados en el Centro Regional, esto es un total de 222 en lugar de 185 residentes que son el núcleo del estudio en sus aspectos epidemiológico.

REFERENCIAS

1. INGRAM, G.I.C. et al, (1979) Home treatment in haemophilia : clinical, social and economic advantages, Clin.Lab. Haemat., 1, 13-27
2. AMERICAN ACADEMY OF ORTHOPAEDIC ASSOCIATIONS (1975)
Joint Motion : Method of Measuring and Recording
3. ARMITAGE, P. Statistical Methods in Medical Research, Oxford, Blackwells Scientific Publications, 1975
4. ABRAMSON, J.H. Survey Methods in Community Medicine, London, Churchill and livingstone, 1977
5. BENNETT, A., RITCHIE, K. Questionnaires in Medicine: Their design and use, London, NPHT, 1975
6. OPPENHEIM, A.N. Questionnaire design and attitude measurement, London, Heinemann, 1976
7. MOSER, C., KALTON, G. Survey methods in Social Investigation, London, Heinemann, 1971

CAPÍTULO IV : RESULTADOS

CAPITULO IV: RESULTADOS

IV. 1. Características de la población

a) Edad

El total de hemofílicos censados en la provincia de Valencia, en 1976, era de 54. la población total de la provincia, del sexo masculino, era de 942.797 habitantes, los que nos permite calcular una tasa cruda de prevalencia de 5.7 por 100.000 habitantes del sexo masculino.

Los mismos datos correspondientes a los límites de la Dirección REgional de Salud de Oxford son, 185 hemofílicos y 1.123.700 habitantes, esto es una tasa de 16,4 por 100.000 habitantes del sexo masculino.

En la tabla IV. 1.1 se muestra la distribución por edades de la población de la provincia de VAlencia (sexo masculino) y la de los hemofílicos censados. Es llamativa la diferencia de distribución por edades entre los hemofílicos y la población en general, ya que los enfermos de hemofilia se concentran en los tres primeros grupos utilizados para la tabulación (0-4, 5-14, 15-29 años de edad). En efecto a los 29 años se ha sumado ya el 79.5% de los enfermos frente al 51.1% de la población.

De la misma forma podemos observar que la edad media de los hemofílicos es de 18 años frente a los 32,2 años de edad

media de la población masculina total. Esta diferencia no puede atribuirse al azar al ser estadísticamente significativa ($p < 0.001$).

En la tabla IV. 1.2. realizamos el mismo tipo de comparación para el area de Oxford. No se observa aquí una diferencia tan notable como señalamos en Valencia. Así, a los 29 años tenemos un total del 57.9% de los hemofílicos frente al 49.1% de la población. Ahora bien si debemos señalar el bajo porcentaje de enfermos hemofílicos de los menores de 5 años. Estos no representan más que el 3.2% (frente al 18.5% en Valencia), dato que indica esencialmente la mayor proporción de hemofílicos de 30, ó más años en Oxford. Igualmente puede observarse como en los menores de 45 años, los hemofílicos representan porcentajes mayores que la población en general para los restantes tres grupos de edad (5-14, 15-29 y 30-44).

Las edades medias con valores de 28.1 años para los hemofílicos y 33.5 para la población masculina en general es, en Oxford, también altamente significativa ($p < 0.001$).

La comparación de las tablas IV. 1.1 y IV. 1.2. muestra que la distribución por edades en nuestras dos poblaciones de referencia (población masculina total en 1976, en Valencia y en Oxford) es casi idéntica (edades medias de 32.3 y 33.5 respectivamente) por lo cual las diferencias que observamos en las edades de los hemofílicos tienen valor y son estadis-

ticamente significativas ($p < 0.001$).

Nuestros enfermos hemofílicos en Valencia son muchos más jóvenes que los de Oxford—edades medias de 18 años y 28 años respectivamente— así como que el peso relativo de los niños (menores de 5 años) es muy importante en Valencia (18.5%) y y mucho menor relativamente en Oxford (3.2%).

El análisis de la importancia de estas diferencias de edad solo puede lograr tener valor epidemiológico mediante el estudio de tasas específicas de edad. Estas tasas se presentan en la Tabla IV. 1.3. Como se podía esperar, las tasas de prevalencia en Valencia declinan con la edad en forma progresiva, mientras que en Oxford mantienen su nivel en las edades de los 5 a los 45 años. La prevalencia total que es casi 3 veces superior en Oxford, resulta sin embargo 1.5 veces inferior en los menores de 5 años, ligeramente doble en los de 5-14 años, casi triple en las edades de 15 a 29, seis veces superior de 30 a 44 años y 4 veces más en el grupo de 45 a 64 años.

b) Estado civil

En la Tabla IV.1.4, se muestra la distribución por estado civil de los hemofílicos en edad de contraer matrimonio (15 o más años de edad) frente a la misma distribución de la población general (sexo masculino) en Valencia. Es obvia la

gran diferencia en cuanto a la importancia relativa de los solteros entre los hemofílicos, que suponen el 54% frente al 29% de la población general (la diferencia es significativa $p < 0.01$).

Los mismos datos se presentan en la Tabla IV. 1.5 para el área de Oxford, donde el porcentaje de solteros es relativamente más bajo que el observado en Valencia, 45%, pero claramente superior al de la población general 27%. (diferencia igualmente muy significativa, $p < 0.001$).

Merece destacar la similitud de la distribución por estado civil de las poblaciones de referencia (Valencia y Oxford), con valores relativos de 29 y 27% para los solteros, 67 y 69% para los casados, 4 y 3% para los viudos, 04 y 1% para los divorciados.

Las diferencias en el estado civil de los hemofílicos en Valencia y Oxford son muy pequeñas, 54 y 45% para los solteros, 43 y 52% para los casados, 4 y 2% para los divorciados, dichas diferencias no son estadísticamente significativas ($p > 0.75$).

c) Clase social

La distribución de la población por clase social fué fácil en Inglaterra ya que la Oficina de la Población, Censos y Encuestas (O.P.C.S.) publica un volumen sobre "Clasifica-

ción de las Ocupaciones", que permite agrupar éstas de acuerdo a las 5 clases sociales establecidas. En España tuvimos que elaborar estos datos de acuerdo a la clasificación del I.N.E. y tratando de homologarlas con las clases sociales en Inglaterra. De todas formas los resultados no pueden ser totalmente comparables. Los datos en ambos casos corresponden a la población económicamente activa.

En la tabla IV. 1.6. presentamos los datos correspondientes a Valencia donde también algo más del 50% - 50,9% - pueden ser agrupados como clase III frente, en este caso, a solo 21,8% de la población general. Ningún hemofílico de los estudiados en Valencia pertenece a la clase I y solamente 2 a la clase V - lo que supone solo el 7% frente al 39% que la clase V comprende la población general.

Las tasas específicas de prevalencia,* tabla IV. 1.8 muestran también cifras muy superiores para las clases I, II, y III no manual frente a las clases III manual, IV y V. Tasas de 6.4 frente a las 4.3 por 100.000 habitantes. (En Valencia).*

En la tabla IV. 1.7, presentamos los datos por clase social de la población del area de Oxford en general y de los hemofílicos en nuestro estudio. El 51,5% de los hemofílicos pueden ser agrupados en la clase III, porcentaje similar al observado en la población general (48,7%). Pero si dividi-

mos la clase III en trabajadores manuales y no manuales vemos que los porcentajes correspondientes no corresponden con la población. El 21.5% de los hemofílicos son trabajadores no manuales frente al 11.7% de la población. Este fenómeno se ve aún más exagerado si sumamos los hemofílicos en las clases sociales I, II, y III no manuales (51.3%) frente a los de las clases sociales III manuales, IV y V (48.7%) mientras que en la población estas cifras relativas son 39.6 y 60.4%, respectivamente.

Estas diferencias quedan reflejadas en la tabla IV. 1.8* las tasas específicas de prevalencia por clase social para estos dos grandes grupos, obteniendo 18.8 y 11.6 por 100.000 habitantes en cada caso. (A continuación -al calcular...-)*

d) Gravedad de la enfermedad

La gravedad de la enfermedad fue valorada en forma objetiva utilizando los mismos criterios en ambas áreas. Estos criterios fueron :

- Hemofilia grave : menos del 2% de factor VIII
- " " moderada : entre el 2 y el 6% de factor VIII
- " " leve : más del 6% del factor VIII

La tabla IV. 1.9, muestra la distribución de los hemofílicos estudiados en las dos áreas - Valencia y Oxford - . Las diferencias en cuanto a gravedad - medida por el nivel de fac-

tor VIII - no son estadísticamente significativas ($p > 0.5$).

Como veremos más adelante, algunos enfermos del area de Valencia incluidos en la categoría de "moderada" podrían tener que ser considerados como graves.

e) Antecedentes familiares

La presencia o ausencia de antecedentes familiares de hemofilia no es siempre fácil de valorar y esto es especialmente cierto cuando las madres de los hemofílicos habían sido adoptadas por otras familias.

La tabla IV, 1.10, muestra los datos obtenidos en las dos areas, apreciandose diferencias muy pequeñas. El 76% de los hemofílicos en Valencia tenían antecedentes familiares de hemofilia, frente al 66% en Oxford. Las diferencias no son estadísticamente significativas ($p > 0.25$).

Ahora bien si tomamos solamente los enfermos clasificados como "graves" en Oxford, entonces el porcentaje de aquellos que no tienen antecedentes familiares se eleva del 29% general al 42%, y aún más - hasta el 56% - si añadimos el 14% de aquellos que tienen antecedentes familiares pero solamente en un hermano mayor.

Esto significa que en un 56% de hemofílicos graves la enfermedad apareció por primera vez en su generación .

f) Anticuerpos frente al factor VIII

Después de comprobar que la técnica para la determinación de anticuerpos frente al factor VIII era la misma en los Centros de Valencia y Oxford decidimos analizar los datos que expresan esta característica por su teórico valor epidemiológico.

La tabla IV. 1.11, muestra la presencia -o ausencia- de anticuerpos frente al factor VIII, observando como dato curioso que de los 54 hemofílicos en el área de Valencia solamente uno tenía anticuerpos y su título era muy bajo .

El porcentaje de pacientes con anticuerpos observado en Oxford (5.7%) no es en términos estadísticos diferente del de Valencia (1.8%). ($p > 0.25$).

La tabla IV.21 muestra un diagrama donde hemos esquematizado el numero de hemofílicos en Valencia y en Oxford subdivididos por gravedad de la enfermedad y donde hemos indicado los que fueron entrevistados.

Como los hemofílicos clasificados como moderados o como leves no presentan incapacidad alguna y pueden llevar una vida normal no representando un problema sanitario importante (a menos que tengan que someterse a tratamiento quirúrgico) no han sido incluidos en nuestro estudio y no fueron entrevistados.

En Oxford no pudimos entrevistar a 21 de los 116 hemofílicos graves debido a las siguientes razones :

5 murieron antes de realizar nuestro estudio.

8 acababan de trasladar su residencia fuera del area de Oxford y sus nuevas direcciones eran desconocidas.

8 estaban siendo tratados regularmente en el Hospital de Northampton, fuera de nuestra area.

En el area de Valencia decidimos entrevistar a los hemofílicos clasificados como moderados por dos razones fundamentales :

a) Analizando los datos de valoración de factor VIII que se efectuan con toda regularidad observamos que si bien los

graves y los leves mantenían constante sus niveles de factor VIII que fundamentaban su clasificación, en los enfermos moderados estos oscilaban con frecuencia y a veces presentaban niveles por debajo del 2%.

b) La observación clínica los hacía aparecer como graves, especialmente en la frecuencia de hemorragias.

El análisis de los datos y característica epidemiológica de los enfermos de Valencia - al considerar el grupo de los entrevistados (45) y los no entrevistados (9) - nos permitió observar una edad media mayor en los entrevistados (20 años, con desviación estándar de 14.89) que en los no entrevistados (15.8 años, con desviación estándar de 10.38) diferencia que no es significativa ($p > 0.1$). Ninguna otra diferencia - si exceptuamos la de la gravedad - mostró valor significativo; por tanto podemos afirmar que las observaciones no presentan sesgo alguno.

En el área de Oxford el total de 185 hemofílicos censados quedaba divididos en dos grupos casi iguales : los 95 entrevistados frente a los 90 no entrevistados al no entrevistar a los 25 moderados, los 44 leves y 21 graves.

Por ello parece necesario analizar en detalle las posibles diferencias que pudieran quedar introducidas como posible fuente de sesgo.

En las tablas IV. 2.2, IV. 2.3, IV. 2.4 y IV. 2.5, presentamos los datos correspondientes a edad, estado civil, clase social y gravedad.

Los enfermos no entrevistados son ligeramente de mayor edad (edad media, 29.8 años y desviación estandar de 19.5) que los entrevistados (edad media 26.3 años y desviación estandar de 17.3) diferencia que no es estadísticamente significativa ($p > 0.1$).

Tampoco son significativas las diferencias apreciadas en cuanto a estado civil ($p > 0.25$) y clase social ($p > 0.9$) entre pacientes entrevistados y no entrevistados.

IV. 2. Utilización de los servicios Sanitarios y de los beneficios de la Seguridad Social.

a) Medio de transporte.

En la Tabla IV. 2.6, hemos recogido la forma en que los hemofílicos se trasladan a los Centros de Tratamiento.

La primera observación importante es destacar que mientras en Valencia ningún hemofílico acude al Centro de Tratamiento en ambulancia en Oxford 18 enfermos usaron este medio de transporte, esto es, el 19% de los enfermos. La diferencia es tal que no exige ninguna prueba de significación.

Las diferencias en los medios de transporte en las dos

areas siguen siendo importantes al analizar las otras posibles formas de acudir al Centro de Tratamiento. El 75.7% de los enfermos de Oxford usaron un coche privado frente al 49% en Valencia, y como resultante el 51% de los hemofílicos de Valencia acuden en transporte público frente a sólo el 5.2% en Oxford.

Todavía estas diferencias se hacen más significativas si consideramos que 20 de los 72 enfermos de Oxford que utilizan su coche privado, son en realidad beneficiarios de coches "mini" que el Ministerio de Sanidad, Seguridad Social provee a los enfermos. De esta forma podemos resumir estos datos afirmando que casi la mitad de los enfermos de Oxford (el 47%) utilizan medios de transporte suministrados por la Organización Sanitaria, mientras que en Valencia ningún enfermo utiliza este sistema (ambulancias o coches suministrados por el Ministerio).

b) Beneficios de la Seguridad Social.

Mientras que en Valencia los hemofílicos solo reciben ayuda de invalidez, en Oxford estas pueden ser muy variadas: gratificaciones para desplazamientos, gratificaciones de ayuda familiar, subsidios para el mantenimiento de sus vehículos, y además, ayudas de invalidez.

En la tabla IV. 2.7, resumimos los enfermos de las dos

areas que reciben ayudas de la Seguridad Social. Así podemos ver que mientras el 61% de los hemofílicos en Oxford reciben estos beneficios, en Valencia solo son el 22% los que tienen esta compensación social.

Las diferencias son sin duda, muy significativas ($p < 0,001$).

c) Utilización de medicamentos.

En la tabla IV. 2.8, presentamos el resumen de los datos correspondientes a la utilización de medicamentos analgésicos por los hemofílicos de las dos areas.

Para poder comparar tanto el tipo de analgésico, como la frecuencia de su sesgo, ideamos un baremo basado en las siguientes dos variables :

a) Según el efecto del medicamento y su potencialidad para crear adicción se hicieron tres grupos - duras - moderadas - blandas (por ejemplo Palfium - DF.118 - Paracetamol, respectivamente).

b) Según la frecuencia de su utilización - diariamente - semanalmente - mensualmente o con menor frecuencia.

De esta forma los puntos se (adjudican)* creando grupos (que aparecen en la tabla IV.2.8) que indican :
(adjudicaron)*

10-16 puntos : drogas duras tomadas todos los días o al

menos dos veces por semana .

5-9 puntos : drogas moderadas tomadas diariamente o una o dos veces por semana.

1-4 puntos : drogas blandas tomadas todos los días o drogas moderadas tomadas una vez al mes o con menor frecuencia.

0 puntos : no utilización de droga alguna.

Al comparar las dos áreas, las diferencias son marcadas y merecen ser analizadas :

1º) El 68% (31 enfermos) de los hemofílicos en Valencia no toman ninguna droga frente al 15.7% (15 enfermos) en Oxford. Diferencia muy significativa ($p < 0.001$).

2º) Mientras que ninguno de los hemofílicos en Valencia tomaban drogas duras (puntos 10-16), en Oxford este grupo comprende 23 enfermos - esto es, el 24.2%.

3º) Los hemofílicos menores de 15 años no toman ninguna droga o solamente drogas blandas o moderadas tanto en Valencia como en Oxford.

4º) El consumo de drogas duras comienza en Oxford en el grupo de edad de 15 a 19 años.

Por todo ello buscamos si existía correlación entre edad y consumo de drogas y mientras que en Valencia esta correla-

ción es inexistente, en Oxford esta asociación es claramente significativa (coeficiente de contingencia $C = 0.47$, $\chi^2 = 26.83$, 3 G.L. , $p < 0.001$).

No se pudo observar correlación alguna entre el nivel de gravedad de la enfermedad y el consumo de drogas ni en Valencia ni en Oxford.

d) Utilización de medicamentos terapéuticos - Factor VIII.

En Valencia en 1976 para tratar 45 hemofílicos (graves y moderados) se utilizaron 1.605.501 unidades de factor VIII. En Oxford el mismo año y para tratar 95 hemofílicos graves se necesitaron 1.934.879 unidades. Por tanto la cantidad media de factor VIII por hemofílico utilizada en Valencia fué de 35.677 unidades mientras que en Oxford fue de 20.367, (cifra muy cercana a la mitad de la utilizada en Valencia).

El factor VIII utilizado en Valencia fué como preparado comercial en el 88% y el resto 12% como crioprecipitado. En Oxford solo el 68.5% fué comercial, el crioprecipitado casi no se utilizó (0.2%) y el resto, 31.3% fué material elaborado en el propio Centro (Oxford Concentrate).

En el area de Oxford pudimos estudiar el consumo de factor VIII por los hemofílicos que desarrollaron inhibidores, observando que como era de esperar, su consumo medio ascendía a 33.200 unidades.

Un resultado interesante es la diferencia en el consumo de factor VIII entre hemofílicos graves con o sin antecedentes familiares de la enfermedad. Los enfermos con antecedentes familiares consumieron como promedio, 13.225 unidades por paciente, mientras que el consumo promedio de los que carecían de antecedentes familiares fué de 26.273 unidades.

La tabla IV. 2.9, muestra la relación existente entre el consumo de factor VIII y la utilización de medicamentos. No se ha observado asociación entre estas dos variables ($p > 0.1$).

En la tabla IV. 2.10, analizamos el consumo de Factor VIII y el grado de incapacidad física - valorada mediante el baremo previamente establecido. No se observa asociación tampoco en este caso ($p > 0.3$).

Ambos grupos de variables tampoco mostraron correlación alguna en los enfermos del area de Valencia. ($p > 0.6$ y $p > 0.3$ y para el consumo de análgésicos e incapacidad física, respectivamente.).

IV. 3. Evaluación clínico-social de los enfermos.

a) Incapacidad física.

En el capítulo III (Metodología) presentamos la forma en que se estableció el baremo que permitiera valorar el grado de esta incapacidad.

Las tablas IV. 3.1 y IV. 3.2, muestran el grado de incapacidad física y la edad de los 45 enfermos en Valencia y de los 95 en Oxford respectivamente.

En ambas áreas se pueden observar que más de la mitad de los enfermos tienen una incapacidad muy ligera (menos de 10 puntos) siendo la mayoría de ellos niños, y que lógicamente la incapacidad aumente con la edad (correlación muy significativa, $p < 0.001$ en ambas áreas) - y si bien el coeficiente de correlación (r) es muy sensible para variables que siguen una distribución no-normal, la correlación es tan alta que puede aceptarse.

Solo un enfermo en Valencia (2.2%) y 10 en Oxford (10.5%) tenían un grado de incapacidad por encima de 35. Estos enfermos estaban realmente imposibilitados.

Especial interés tenía la comparación del grado de incapacidad física observado en las dos áreas, Valencia y Oxford. Para poder evaluar esta variable utilizamos el coeficiente Z para poder comparar los dos coeficientes de correlación, siendo los resultados los siguientes :

$$Z_1 = 0.662$$

$$Z_2 = 0.745$$

$$Z_1 - Z_2 = 0.083$$

$$E.S. (Z_1 - Z_2) = 0.186$$

$$Z' = 0.448 = \text{No significativa.}$$

Esto es no podemos encontrar diferencia significativa en cuanto al grado de incapacidad física de los enfermos de Valencia y Oxford.

En las tablas IV. 3.3 y IV. 3.4, se reúnen los datos correspondientes a los grados (puntos) de incapacidad física y al tipo y frecuencia de drogas analgésicas utilizadas por los enfermos en Valencia y Oxford respectivamente.

Nos llama la atención en Valencia la falta de correlación entre estas dos variables, debido sin duda al poco uso de drogas entre los enfermos de Valencia. El 98% de estos solo consumían drogas blandas o no consumían ninguna.

En Oxford la correlación es muy significativa ($p < 0.001$). El 78,5% - 11 de 14 enfermos - de los hemofílicos que no toman drogas tienen una puntuación por incapacidad física de menos de 10 puntos. Casi el mismo porcentaje (74,3%) corresponde a los pacientes que toman drogas ligeras. El porcentaje de enfermos con incapacidad física por debajo de 10 puntos de entre los que toman drogas moderadas es solo el 42% y se reduce a 26% entre los que toman drogas du ras.

Las tablas IV. 3.5 y IV. 3.6 tratan de mostrar la relación entre incapacidad física y clase social. Como la clasificación de los enfermos en las clases sociales se ha hecho de acuerdo a la ocupación de estos, las cifras son pequeñas al no poder

incluir más que aquellos económicamente activos.

En cualquier caso se observa que la pauta de incapacidad es la misma en todas las clases sociales y en las dos áreas. No hay pues ninguna relación entre clase social e incapacidad física.

b) Incapacidad subjetiva.

Fué interesante analizar, con independencia de la valoración de la incapacidad física, cómo se consideraban los enfermos a sí mismos, esto es, si se catalogaban como incapacitados o no.

La tabla IV. 3.7, muestra la catalogación subjetiva de los enfermos como incapacitados o no frente a la valoración clínica de su incapacidad. Un total de 15 enfermos (33,3%) en Valencia y de 41 (43,2%) en Oxford se catalogaron a sí mismos como incapacitados.

Como era de esperar la mayoría de los enfermos, tanto en Valencia como en Oxford, con incapacidad física muy ligera (10 puntos o menos) no se consideran incapacitados, aumentando la consideración subjetiva de incapacidad en los niveles clínicos superiores. Las diferencias eran significativas en ambas áreas ($p < 0.001$ y $p < 0.02$ respectivamente).

La diferencia general entre todas las observaciones no es

estadísticamente significativa ($p > 0.25$) lo que indicaría que no hay diferencias entre los que se consideran subjetivamente incapacitados en las dos áreas del estudio.

La tabla IV. 3.8, analiza los resultados obtenidos al comparar incapacidad subjetiva y clase social en Oxford y en Valencia. Como hemos indicado anteriormente solo hemos podido clasificar en clases sociales aquellos enfermos económicamente activos y por tanto el número de observaciones no es lo suficientemente grande como para obtener conclusiones firmes, pero no obstante, no podemos dejar de señalar las observaciones siguientes :

1º) Como era de esperar al separar del total los niños, el porcentaje de hemofílicos que se consideran incapacitados sube a 43% en Valencia y a 53.8% en Oxford (los porcentajes del total de hemofílicos que se consideraban incapacitados era de 33.3% y 43% respectivamente).

2º) Cuando se compara la incapacidad subjetiva de los pacientes pertenecientes a las clases sociales I, II, y III no manual con la de los pertenecientes a las clases III manual, IV y V, las diferencias no son estadísticamente significativas ni en Valencia ($p > 0.25$) ni en Oxford ($p > 0.25$).

3º) No existen diferencias, en cuanto a incapacidad subjetiva se refiere, entre los hemofílicos de Oxford y Valen-

cia pertenecientes a las clases sociales I, II y III no manual ($p > 0.5$). Lo mismo sucede entre los hemofílicos pertenecientes a las clases III manual, IV y V ($p > 0.8$).

La tabla IV. 3.9, relaciona la incapacidad subjetiva con el consumo de drogas analgésicas en Oxford y Valencia.

Logicamente, tanto en Valencia como en Oxford los enfermos que no toman drogas ó toman drogas blandas ó moderadas se consideran en menor proporción incapacitados que aquellos que toman drogas duras.

Ninguna posible diferencia en la tabla IV. 3.9 es significativa si exceptuamos el hecho altamente significativo ($p < 0.001$) de que muchos más enfermos en Valencia no toman droga alguna que en Oxford.

c) Nivel de escolarización alcanzado. (Títulos obtenidos)

Las tablas IV. 3.10 y IV.3.11, muestran la distribución de los hemofílicos estudiados de acuerdo a su más alto nivel de enseñanza obtenido, respectivamente para las áreas de Valencia y Oxford.

En el area de Oxford no pudimos obtener datos semejantes en la población en general que nos permitieran hacer las comparaciones correspondientes, mientras que esta comparación, posible en Valencia, nos permite observar que el 64% de los

hemofílicos no tenían ningún tipo de escolarización frente al 50% en la población general. En la discusión comentaremos como no debe tomarse esta observación como significativa de un grado menor de nivel educativo en los hemofílicos.

En el area de Oxford el grupo sin escolarización de los hemofílicos representa el 53.6% cifra muy semejante a la de Valencia.

d) Actividad física.

Hemos establecido cuatro grados de actividad en lo que se pudiera clasificar la actividad física realizada por los enfermos de hemofilia de nuestro estudio. Estos han sido :

- 1) de oficina con o sin automóvil.
- 2) de oficina con permanencia de pie y necesidad de caminar.
- 3) en el exterior con necesidad de caminar.
- 4) gran actividad física.

En las tablas IV. 3.12 y IV. 3.13, siguiendo la pauta de tablas anteriores comparemos para las areas de Valencia y Oxford respectivamente, el grado de actividad física desarrollado y el grado de incapacidad física.

Dos hechos pueden ser apreciados que se observan por igual en las dos areas, a) que la mayoría de los enfermos -

62% en Valencia y 70% en Oxford - en los grupos de edad económicamente activos desempeñan actividades que requieren un esfuerzo físico mínimo, esto es, trabajos que podríamos calificar de sedentarios; b) que no existe correlación entre la incapacidad física y el tipo de actividad física que desempeñan.

La tabla IV. 3.14 relaciona el nivel de actividad física realizado por los hemofílicos de Valencia y Oxford con la incapacidad subjetiva de dichos pacientes. No se aprecian diferencias significativas en ninguna de las dos áreas, si bien el porcentaje de los que se consideran a sí mismos incapacitados en el grupo de los que tienen una actividad sedentaria llegó a ser del 65.5% en Oxford y del 38.4% en Valencia. Las posibles diferencias en los otros grupos de actividad no han sido estudiados estadísticamente por ser las cifras muy pequeñas. En cualquier caso, no parece observarse diferencia entre las dos áreas.

e) Número de empleos desempeñados.

Una de las posibles consecuencias sociales de la hemofilia es el cambio frecuente de empleo de los hemofílicos. Por ello, hemos estudiado en detalle el número de empleos desempeñados por los hemofílicos en relación a su edad. Estos datos se presentan en las tablas IV. 3.15 y IV. 3.16.

Debe destacarse que no se observa un aumento del número de empleos con relación a la edad, pero sí es interesante anotar que el porcentaje de hemofílicos que han tenido más de 3 empleos es en Valencia del 33.3% mientras que en Oxford sólo es del 18%. Esta diferencia ha sido analizada frente a una característica básica en el empleo de este tipo de enfermos; el hecho de que el enfermo informe al empresario ó patrón de su padecimiento. Estos datos se detallan en la tabla IV. 3.17. En efecto, observamos que el 43% de los hemofílicos en Valencia no habían informado de su enfermedad, mientras que en Oxford dicho porcentaje es sólo del 16%. La diferencia es claramente significativa ($P < 0.05$).

f) Número de horas de trabajo perdidas.

Como expresión del problema social de la hemofilia interesa destacar como variable de importancia socio-epidemiológica, el número de horas de trabajo perdidas y analizar estas con respecto a clase social y a incapacidad física.

En las tablas IV. 3.18 y IV. 3.19, presentamos los datos correspondientes al número de horas de trabajo perdidas semanalmente por los hemofílicos pertenecientes a las distintas clases sociales.

En Valencia, los hemofílicos pertenecientes a las clases sociales I, II, y III- no manual perdieron una media de 2.14

horas por semana (D.E. = 2.85) frente a 3.64 horas (D.E. = 3.85) perdidas por semana por los hemofílicos de clase social III manual, IV. y V. La diferencia no es estadísticamente significativa ($P > 0.3$).

En Oxford, el mismo tipo de análisis muestra valores de 2.48 (D.E. = 2.77) y de 2.28 (D.E. = 3.18) correspondientes a los dos grandes grupos de clase social respectivamente. La diferencia tampoco es estadísticamente significativa ($P > 0.8$).

Comparando el número de horas perdidas por los hemofílicos de clase social I, II y III no manual en Oxford y Valencia, no se observaron diferencias. Lo mismo ocurrió con el otro gran grupo de clase social. Igualmente, no se observó ninguna relación entre horas de trabajo perdidas e incapacidad física.

g) Situación laboral.

En las tabs IV. 3.20 y IV. 3.21 presentamos la distribución de los hemofílicos económicamente activos, de las áreas de Valencia y Oxford, según estuvieran empleados ó parados en el período de estudio. Dicha distribución se compara con la correspondiente a la población activa masculina en su totalidad.

En las dos áreas puede apreciarse que el porcentaje de

parados es mucho mayor entre los hemofílicos que en la población en general. (14.3% frente al 2% en Valencia y 7.4% frente al 3.5% en Oxford). Ambas diferencias son estadísticamente significativas ($P < 0.001$ y $P < 0.05$ respectivamente).

Al comparar los porcentajes de parados en Valencia y Oxford, la diferencia no es significativa ($P = 0.212$).

h) Grado de satisfacción de los enfermos.

En la tabla IV. 3.22 se presentan los datos obtenidos en las dos áreas, como expresión de la satisfacción ó insatisfacción de los enfermos. El total de los 45 enfermos en Valencia y todos menos uno en Oxford, se mostraban muy satisfechos con el tratamiento que recibían. (VER este apartado en el capítulo de discusión).

IV. 4. Recursos.

a) Humanos.

De las personas que en 1976 trabajaban en el Centro de Hemofilia de Oxford, tres eran retribuidas por el Medical Research Council (Consejo de Investigaciones Médicas) y el resto por el National Health Service (Servicio Nacional de Salud). Dichas personas eran : El director del Centro, el jefe de técnicos de laboratorio y un ayudante de investigación.

En el area de Oxford el Centro de hemofilia contaba con el siguiente personal :

Un Director del Centro de Hemofilia

Un Jefe de Servicio

Un Jefe Clínico

Dos Residentes

Un Químico

Una Enfermera

Un Jefe de Técnicos de Laboratorio

Dos Técnicas de Laboratorio

Un Técnico Ayudante

Una Secretaria con dedicación exclusiva

Una Secretaria con dedicación parcial

b) Equipamiento. (página siguiente)

En este epígrafe se incluye únicamente el material utilizado en el tratamiento de los enfermos.

La lista completa se presenta en el Apéndice II.

IV. 5. A. Costes.

a) Sueldos del personal.

Los sueldos están basados en la escala de salarios de 1976.
(Una libra esterlina equivale a 150 pesetas).

Un Director del Centro de Hemofilia.....	12.000	Libras
Un Jefe de Servicio.....	10.300	"
Un Jefe Clínico.....	7.466	"
Dos Residentes.....	9.706	"
Un Químico.....	7.089	"
Una Enfermera.....	4.196	"
Un Jefe de Técnicos de Laboratorio.....	6.097	"
Dos Técnicos de Laboratotio.....	8.304	"
Un Técnico Ayudante.....	2.860	"
Una Secretaria con dedicación exclusiva..	3.010	"
Una Secretaria con dedicación parcial....	764	"

Subtotal..66.792 Libras

b) Material Terapéutico — FACTOR VIII.

El Ministerio de Sanidad y Seguridad Social no pudo facilitarnos la cifra exacta de coste del Factor VIII preparado por el Servicio Nacional de Salud. Estimaciones realizadas en Oxford, cifran este coste en 10 peniques por unidad de Fac-

tor VIII (15 pesetas, aproximadamente).

El coste de las 2.611.961 unidades de Factor VIII comercial utilizadas en Oxford en 1976 fué de 272.608 libras (41 millones de pesetas). A ello debemos añadir las 1.194.705 unidades de Factor VIII del concentrado del Servicio Nacional de Salud, con un costo aproximado de 120.000 libras (18 millones de pesetas).

El coste total del Factor VIII utilizado en 1976 en Oxford puede, por tanto, estimarse en 392.608 libras (59 millones de pesetas).

c) Costes de Hospitalización.

1 - De los enfermos ingresados en el Hospital Churchill.

El número de ingresos ocasionados por los hemofílicos del área de Oxford en este hospital fué de 227, con una estancia media de 6 días y un coste por día de 36 libras (5.400 pesetas).

Como la administración del hospital no poseía datos del coste por grupos específicos de pacientes, hemos calculado el coste total en base al costo medio de todos los pacientes. Este cálculo nos permite estimar un costo de 49.032 libras (7 millones de pesetas).

2 - De los enfermos ingresados en el Centro Ortopédico Nuffield.

Durante 1976, 28 enfermos de hemofilia A (22 adultos y 16 niños) fueron ingresados en el Centro Nuffield para ser intervenidos quirúrgicamente de sus lesiones articulares. Estos enfermos ocasionaron 46 ingresos (24 de ellos como urgencia). Dichos ingresos se dividían en 34 enfermos con ingreso único; 3 enfermos con dos ingresos y 2 enfermos con tres ingresos.

La duración media de la estancia de estos enfermos fué de 19.5 días y el coste por día de 33.6 libras.

El coste de estos pacientes, calculando en base al coste medio de todos los pacientes fué de 30.140 libras (5 millones de pesetas).

Por tanto, el coste total de hospitalización se estima en 79.172 libras (12 millones de pesetas).

d) Costes de Mantenimiento del Centro.

Como es obvio no se incluyen los costes ya analizados, sueldos del personal, material terapéutico y costes de hospitalización en los hospitales anteriormente mencionados.

La cifra total de coste de mantenimiento fué de 14.671

libras (2 millones de pesetas), pudiendo desglosarse esta cantidad en los siguientes apartados :

	<u>Libras</u>	<u>Pesetas</u>
Material de Cúras	463	69.000
Material de Laboratorio	846	127.000
Jeringas	1.884	283.000
Material Desechable	2.428	364.000
Material de Oficina	250	38.000
Material Fotográfico	500	75.000
Productos Químico-Farmacéuticos	2.000	300.000
Otro material no inventariable	3.000	450.000
Gastos de mantenimiento del edificio	400	60.000
Calefacción	1.500	225.000
Pagos obligados	1.400	210.000
	<hr/>	<hr/>
TOTAL	14.671	2.000.000

e) Costes de Transporte.

La evaluación de este apartado de costes se hizo teniendo en cuenta el número de veces que los enfermos acudieron a para Tratamiento, ya fuera ambulatorio ó hospitalización. Para cada enfermos se calculó la distancia de su lugar de residencia a Oxford.

El coste del transporte por milla recorrida se estima en una libra (150 pesetas). (2).

El coste total, referido solo a los enfermos que utilizaron ambulancias, se estimó como el producto de la distancia en millas (doble para tener en cuenta el viaje de regreso a sus domicilios) para cada enfermo por el número de veces que visitó el Centro ó acudió al Hospital.

La cifra así obtenida fué de 13.076 libras (2 millones de pesetas, aproximadamente).

f) Resumen total de Costas en 1976.

	<u>Libras</u>	<u>Pesetas</u>
Sueldos de Personal	65.792	10 millones
	392.608	59 "
	79.172	12 "
	14.671	2 "
	13.076	2 "
	<hr/>	<hr/>
TOTAL	565.319	85 millones

IV. 5.8. Consecuencias económicas de una nueva política terapéutica en la hemofilia : Tratamiento domiciliario.

Actualmente se acepta cada vez más el que la mayoría de los hemofílicos graves prefieren tratarse a sí mismos en sus casas ó en el trabajo que acudir al Centro de hemofilia para recibir las inyecciones del concentrado antihemofílico (2).

Esta nueva política terapéutica permite a los enfermos gozar de mayor libertad personal, perder menos tiempo en sus respectivas ocupaciones y sufrir menos dolor ya que el tratamiento es más inmediato. Así mismo, dicha política le permite al Servicio Nacional de Salud reducir los costes al disminuir las visitas al Centro. Estas ventajas podrían, sin embargo, ser contrarrestadas en el caso de que el consumo de Factor VIII aumentara notablemente con el tratamiento domiciliario.

La evaluación de esta disyuntiva fué posible ya que de los 95 enfermos en nuestro estudio, 50 fueron sometidos durante 1976 a tratamiento domiciliario.

a) Distribución por edades de los enfermos en terapia domiciliaria.

En la Tabla IV. 5.1. presentamos la distribución por eda-

des de los enfermos en tratamiento domiciliario y de los que no lo estaban.

La edad media de los hemofílicos en tratamiento domiciliario era de 22,2 años (D.E. = 11,51) mientras que los restantes enfermos presentaban una edad media de 30,6 (D.E. = 21,34). La diferencia es estadísticamente significativa ($P < 0,02$).

Si la edad fuera un factor asociado al consumo de Factor VIII, deberíamos esperar mayor consumo en los enfermos que recibían tratamiento en el Centro de Hemofilia, ya que son claramente más viejos .

En la Tabla IV. 5.2 mostremos el consumo de Factor VIII con relación a la edad de los enfermos. Puede apreciarse que la edad no influye en el consumo de Factor VIII, por lo cual no podemos afirmar que los tratados en el Centro de Hemofilia consumen mayor cantidad.

Por tanto, el siguiente paso, fué calcular la cantidad exacta consumida por ambos grupos de pacientes.

b) Consumo de Factor VIII.

Dicho consumo fué como sigue :

50 enfermos en tratamiento
domiciliario consumieron 1.304,228 unidades

Consumo medio anual 26,084 unidades
 45 enfermos tratados en el Centro
 consumieron 630,651 unidades
 Consumo medio anual 14,014 unidades

Por tanto, puede afirmarse que los enfermos en tratamiento domiciliario consumieron casi el doble de Factor VIII que los tratados en el Centro.

Este aumento de consumo en los pacientes sujetos a tratamiento domiciliario podría verse compensado, desde el punto de vista económico, por una reducción en el número de visitas realizadas al Centro. Por ello juzgamos de interés calcular el número exacto de visitas.

c) Número de visitas realizadas al Centro.

El número de visitas realizadas por cada grupo de enfermos fué contabilizado y los resultados son como siguen :

Media anual de visitas de enfermos en tratamiento domiciliario	13,56
Media anual de visitas de enfermos tratados en el Centro	16,37

DE acuerdo a estas observaciones — consumo doble de Factor VIII y casi el mismo número de visitas al Centro — no parece justificado el tratamiento domiciliario si lo que

se persigue es reducir los costos económicos. Esta conclusión coincide con anteriores estudios (3) que demostraban el mayor consumo de Factor VIII por parte de los hemofílicos sujetos al régimen de tratamiento domiciliario.

A raíz de estos resultados pareció necesario evaluar el número de visitas que estos enfermos realizaban al Centro antes de ser sometidos a tratamiento domiciliario para poder llegar a una conclusión más definitiva.

d) Número de visitas al Centro antes de ser sometidos a tratamiento domiciliario.

Se eligieron los años 1970 y 1971 para estudiar la frecuencia buscada ya que el régimen de tratamiento domiciliario comenzó en Oxford en 1972.

El promedio anual de visitas realizadas por los pacientes en tratamiento domiciliario antes de iniciar dicha modalidad de tratamiento fué :

1970	30 visitas/ paciente/ año
1971	36.2 visitas/ paciente/ año

El promedio anual de visitas realizadas por los pacientes que no fueron posteriormente sometidos a tratamiento domiciliario fué :

(página siguiente)

1970..... 14,2 visitas/paciente/año
1971..... 13,2 visitas/paciente/año

Los resultados muestran que el tratamiento domiciliario redujo enormemente el número de visitas que el primer grupo de pacientes realizaba al Centro antes de iniciarse la nueva modalidad de tratamiento.

Para valorar si el tratamiento domiciliario influyó de algún modo el consumo que de Factor VIII realizaron estos pacientes, se calculó el consumo promedio anual en 1970 y 1971.

e) Consumo promedio de Factor VIII antes de ser sometidos a tratamiento domiciliario.

- Pacientes en tratamiento domiciliario en 1976 :

- Consumo medio/año/enfermo (1970) 14,386 unidades
- Consumo medio/año/enfermo (1971) 16,000 unidades

- Pacientes tratados en el Centro en 1976 :

- Consumo medio/año/enfermo (1970) 7,569 unidades
- Consumo medio/año/enfermo (1971) 8,240 unidades

Estos datos muestran como el mayor consumo de Factor VIII por parte de los enfermos en tratamiento domiciliario no puede atribuirse a esta modalidad terapéutica ya que dicho consumo era, con anterioridad al inicio del tratamiento domiciliario, casi el doble en el primer grupo de pacientes.

Así mismo, tampoco puede atribuirse al régimen de tratamiento domiciliario el aumento de consumo entre 1970 y 1976,

puesto que dicho aumento se observa en ambos grupos de enfermos.

En resumen, el tratamiento domiciliario no ha aumentado el consumo pero, sin embargo, ha disminuído el número de visitas al Centro de tratamiento.

El ahorro que supone este tipo de tratamiento puede calcularse siguiendo la pauta del estudio colaborativo realizado en Oxford y St. Thomas Hospital (2).

* Coste de una visita al Centro de Hemofilia

Los costes de cada visita se evalúan por el coste del tiempo del personal dedicado a suministrarle al enfermo tratamiento, suministros ó consejos, a lo que se añade los gastos necesarios para que esa visita sea posible.

* Costes de mantenimiento del Centro de Hemofilia

Incluimos en este apartado el coste del tiempo dedicado a los enfermos en forma indirecta : mantener en orden los archivos, contestar preguntas telefónicas, mantener el almacén de equipos y medicamentos, trabajo de laboratorio y relaciones con otros departamentos del hospital motivadas por problemas de los enfermos.

* Costes de transporte

(página siguiente)

Los costes de los desplazamientos que los enfermos realizaban desde sus lugares de residencia ó trabajo al centro de tratamiento se calcularon en 12 peniques por milla (que corresponde a lo que abona el Servicio Nacional de Salud por coches de cilindrada inferior a 1300 cc.) ó bien incluyendo en el cálculo los costes reales pagados por los enfermos en los transportes públicos (2).

Los gastos de transporte más los gastos de personal dan una cifra combinada de 2,94 libras (440 pesetas) por enfermo y visita.

Si asumimos que la razón de visitas entre los dos grupos (los que en 1976 estaban en tratamiento domiciliario y los que eran tratados en el Centro) se hubiera mantenido como la existente en 1970-71 (es decir, 2.4) debíamos haber tenido una media de 39.28 visitas/enfermo/año en el grupo en tratamiento domiciliario si estos no se hubieran sometido a este nuevo régimen.

En realidad, el número de visitas fué 13.56, por lo que asumimos una diferencia favorable de 25.72 visitas/enfermo/año.

El régimen de tratamiento domiciliario supuso un ahorro, en el ejercicio de 1976, de 3.780 libras (600.000 pesetas),

calculando en base al siguiente modelo :

El coste estimado por paciente y tratamiento, multiplicado por el número de visitas ahorradas y multiplicado a su vez por el número de pacientes, nos da el ahorro que ha supuesto el tratamiento domiciliario.

Esto es, en cifras :

2,94 libras X 25,72 visitas X 50 enfermos = 3,780 libras.

REFERENCIAS

1. O.P.C.S. Classification of Occupations, London, HMSO, 1970
2. INGRAM, G.I.C. et al, (1979), Home Treatment in Haemophilia : Clinical, Social an Economic Advantages, Clin,Lab,Haemat., 1, 13-27
3. JONES, P., Proceedings of 3rd European Congress Of the World Federation of Haemophilia, London, 1976. In press.

CAPÍTULO V: DISCUSIÓN

CAPÍTULO V : DISCUSIÓN

V.1 Características de la Población.

a) Edad

Los resultados muestran que los hemofílicos de Valencia y Oxford son mucho más jóvenes que sus respectivas poblaciones masculinas y esto queda reflejado en sus respectivas medias de edad y en el porcentaje de personas que tienen una edad inferior a 30 años.

Claramente, la explicación más lógica es que los hemofílicos han fallecido en edades más tempranas que los varones normales.

La comparación entre Valencia y Oxford muestra que los hemofílicos de Valencia son mucho más jóvenes que los ingleses y esto podría indicar que debido a un mejor tratamiento los ingleses fallecieron en edades más tardías. Así mismo podría indicar que debido a una carencia de tratamiento efectivo en un pasado no lejano, los hemofílicos españoles de mayor edad no están acostumbrados a asistir a centros de tratamiento incluso ahora que un tratamiento efectivo se encuentra a su alcance.

El hallazgo más inesperado es que el porcentaje de hemofílicos de Oxford cuyas edades son inferiores a 4 años es

menos de la mitad que el porcentaje de varones normales en el mismo grupo de edad. Como este resultado, observado en 1976, podía deberse al azar, se estudió el año 1977 y aunque el porcentaje en dicho año supuso un 4.5% del total de hemofílicos, todavía era significativamente más bajo que el de la población masculina normal.

Resultado sorprendente también es que el porcentaje de hemofílicos de Valencia cuyas edades son inferiores a 4 años es mucho más alto que el porcentaje observado en Oxford. Esta diferencia es difícil de explicar pero las siguientes hipótesis pueden ser formuladas :

En primer lugar, como los casos leves de hemofilia que acontecen en la infancia se diagnostican incorrectamente con cierta frecuencia, se estudió la posibilidad de que esta diferencia porcentual no fuera real sino debida a errores diagnósticos producidos en España. Esta hipótesis fue rechazada puesto que los hemofílicos valencianos menores de 4 años eran en su mayoría casos graves.

En segundo lugar, el Centro de Hemofilia de uno de los Departamentos de Hematología de Valencia comenzó a funcionar en 1974 y pudo haber atraído una alta proporción de jóvenes hemofílicos cuyo tratamiento se estaba llevando a cabo en otros lugares.

En tercer lugar, si algún procedimiento quirúrgico (V.gr.: circuncisión) se practicara en niños españoles pero no en niños ingleses, la diferencia podría explicar un diagnóstico más precoz en los españoles, pero tal diferencia no ha sido encontrada.

Todas estas hipótesis han sido formuladas para tratar de explicar la diferencia porcentual en el número de hemofílicos menores de 4 años que existe entre Valencia y Oxford pero no explican el hecho de que el porcentaje de hemofílicos ingleses en este grupo de edad sea inferior al de la población normal.

La única explicación posible para este último hecho es que los hemofílicos de Oxford pertenecientes a este grupo de edad no están siendo detectados debidamente.

b) Estado Civil.

Para investigar si los hemofílicos se casaban en la misma proporción que los varones de la población normal, únicamente se incluyeron los varones adultos. Dicha actuación fue encaminada a desprendernos de la edad como factor distorsionante ya que los hemofílicos eran mucho más jóvenes que los varones de la población normal.

En Valencia y Oxford los hemofílicos adultos permanecían

solteros en un porcentaje significativamente más alto que en la población normal. Esto coincide con los resultados de Bronks (1) y refuerza su trabajo al haberse realizado nuestro estudio con la totalidad de hemofílicos y no con una muestra previamente seleccionada como fué su caso.

Estos resultados parecen indicar que bien por un mejor conocimiento de la enfermedad ó por un sentimiento de inferioridad los hemofílicos tienden a permanecer solteros. Así mismo podría indicar un rechazo de la sociedad hacia los hemofílicos y esto pudiera ser particularmente cierto en España.

c) Clase Social.

Tres consecuencias se desprenden de los resultados obtenidos. En primer lugar, los hemofílicos pertenecientes a clase social III suponen, aproximadamente, un porcentaje cercano al 50%. Dicho porcentaje es coincidente con el de la población normal pero la razón entre trabajadores manuales y no manuales dentro de esta clase social es muy distinto para la población normal que para la hemofílica. Es decir, mientras la mayoría de varones normales pertenecen a clase social III manual los hemofílicos se concentran en la clase social III no manual. Esto indica que los hemofílicos tienden a realizar trabajos sedentarios.

En segundo lugar, ninguno de los pacientes valencianos pertenecían a clase social I. Esto viene explicado por el hecho de que los hemofílicos españoles al no gozar de las mismas facilidades de enseñanza que los ingleses (v.gr.: clases particulares a domicilio subvencionadas por el estado) tuvieron, por sus frecuentes episodios hemorrágicos, una formación deficiente haciendo que su ingreso en la Universidad fuera problemático.

En tercer lugar, las ocupaciones incluidas en clase social V conllevan, por lo general, un alto grado de esfuerzo físico. No es de extrañar, por tanto, que los hemofílicos de Valencia y Oxford rechacen este tipo de ocupaciones y los pocos que lo ejercen son muy jóvenes.

d) Gravedad de la enfermedad.

El hecho de que el número de hemofílicos graves sea muy superior al de los moderados ó leves, tanto en Oxford como en Valencia, puede atribuirse a los siguientes factores :

1. Muchos casos leves de hemofilia no son diagnosticados y por tanto el porcentaje de hemofílicos en esta categoría es más bajo de lo que en realidad le correspondería.

2. La Hemofilia A puede presentarse con mayor gravedad en países como Inglaterra y España y con menor gravedad en

países como Suecia (43% de casos graves) (3).

3. Por poseer Oxford y Valencia, Centros de Hemofilia de reconocido prestigio, mucho enfermos graves pueden haberse visto atraídos hacia estas ciudades. Esta hipótesis puede verse parcialmente confirmada por el hecho de que más del 30% de los hemofílicos graves que vivían en Valencia y Oxford en 1976, habían cambiado su lugar de residencia para trasladarse a zonas cercanas a los Centros antes mencionados.

e) Antecedentes Familiares.

El porcentaje de hemofílicos carentes de antecedentes familiares de la enfermedad resultó ser aproximadamente el mismo en ambas zonas de estudio.

Estos resultados coinciden con los porcentajes de hemofilia "esporádica" presentados en una serie de trabajos (4,5, 6) y están en clara discordancia con los resultados obtenidos en otros estudios (7,8,9,10,11).

El hallazgo de que en el 56% de los pacientes graves la enfermedad apareció por primera vez en su generación, sugiere la posibilidad de que la mutación sea más grave en los enfermos carentes de antecedentes familiares de hemofilia.

f) Anticuerpos.

Suponiendo que a pesar de que la técnica para la deter-

minación de anticuerpos contra el factor VIII era la misma en Valencia y Oxford esta se realizara de forma incorrecta en Valencia, el porcentaje de falsos positivos sería mayor en Valencia ya que dicha técnica no produce falsos negativos.

La diferencia no puede atribuirse a la cantidad de material terapéutico suministrada a los enfermos, puesto que los pacientes valencianos consumieron, como indicamos anteriormente, casi el doble de Factor VIII que los pacientes de Oxford.

Como los anticuerpos pueden aparecer un año y desaparecer al siguiente, el hecho de que únicamente un paciente valenciano hubiera desarrollado anticuerpos en el periodo de estudio puede atribuirse al azar.

V.2. Utilización de los servicios sanitarios.

a) Medios de transporte.

El hecho de que mientras el 47% de los pacientes de Oxford utilizaron medios de transporte facilitados por la Seguridad Social todos los pacientes de Valencia utilizaron transporte privado puede ser explicado como sigue :

1. La red de ferrocarriles de la provincia de Valencia es muy superior a la existente en Oxford y por ello los hemofílicos valencianos prefieren tomar el tren antes que esperar varias horas la llegada de una ambulancia.

2. En muchos casos, los españoles no están enterados de las facilidades que les concede la Seguridad social y por ello, lógicamente, no las utilizan.

b) Beneficios de la Seguridad Social.

La diferencia entre Valencia y Oxford en cuanto a beneficios de la Seguridad Social se refiere, es fácilmente explicable por la diferente disponibilidad de dichos beneficios.

Mientras que la mayoría de los pacientes de Oxford tenían derecho a algún tipo de beneficio, los de Valencia tenían que estar seriamente incapacitados para que dicho bene-

ficio le fuera otorgado.

c) Utilización de medicamentos analgésicos y material terapéutico.

La información recogida en las entrevistas se comprobó con la existente en las historias clínicas archivadas en los Centros de Hemofilia. Se observaron ciertas discrepancias ya que algunos de los enfermos de Oxford, que habían contado al entrevistador estar tomando drogas duras, no lo habían indicado a los médicos del Centro de Hemofilia.

Las pautas de consumo de potentes medicamentos analgésicos de los hemofílicos de Oxford, concuerdan con lo que se ha descrito como tendencias generales en la utilización de medicamentos. Es decir, que la utilización aumenta con la edad, con la sensación subjetiva de gravedad que el enfermo tiene y cuando la cronificación de la enfermedad se acompaña de incapacidad física (12).

Esta pauta de utilización no se data en Valencia puesto que el consumo de medicamento analgésicos no estaba asociado con ninguna variable.

Nuestro estudio no ha conseguido explicar la sorprendente diferencia en utilización de medicamentos entre Valencia y Oxford pero fundamentalmente dos motivos pueden haber contri-

buido a que se produzca dicha diferencia.

En primer lugar, los pacientes de Oxford tienen acceso a una cantidad prácticamente ilimitada de potentes analgésicos por medio de sus médicos de cabecera. (Es interesante señalar que algunos hemofílicos de Oxford cambiaron de médico de cabecera cuando este se negó a seguir recetando dichos medicamentos). Esta situación no es comparable a la de Valencia en donde los enfermos encuentran muchas más dificultades en conseguir estos medicamentos. Por tanto, el diferente acceso puede explicar un consumo diferente.

En segundo lugar, por alguna razón que requiere un estudio más profundo, los hemofílicos españoles sufren menos dolor que los ingleses. De hecho, al ser entrevistados, muchos hemofílicos valencianos afirmaron que no tomaban analgésicos potentes porque casi nunca tenían dolores.

Como los pacientes valencianos consumían como promedio casi el doble de Factor VIII y tomaban mucho menos analgésicos que los pacientes de Oxford, la posibilidad de que estos últimos tomaran los analgésicos para compensar un déficit crónico con el aporte de Factor VIII fué considerada. Tras la investigación llevada a cabo dicha posibilidad fué rechazada, al comprobarse que los pacientes ingleses que consumían mayor cantidad de analgésicos eran también los que utilizaban mayor

cantidad de Factor VIII.

Las diferencias observadas en el consumo de Factor VIII entre los pacientes de Valencia y Oxford ni pueden ser atribuidas a la mayor media de edad de los ingleses, ya que la edad no está asociada a un mayor consumo de material terapéutico. Dichas diferencias pueden ser debidas a:

a) Diferentes modalidades terapéuticas (Los Centros de Hemofilia de diversos países calculan de modo diferente la dosis correcta que debe ser administrada) (3).

b) Los pacientes de Oxford, si se los compara con los de Valencia ó los de otros países, no están recibiendo la cantidad de Factor VIII adecuada para su enfermedad.

El principal problema con el que nos encontramos para poder realizar esta última afirmación, es que los métodos objetivos para valorarlo no pueden utilizarse por el momento ya que la terapia moderna comenzó en 1968 y deberemos esperar todavía varios años para observar si diferentes dosis de Factor VIII dan lugar a diferentes resultados clínicos.

En otras palabras, hasta que los pacientes cuyo único tratamiento ha sido con Factor VIII alcancen la edad en que la invalidez apareció en generaciones anteriores privadas de Factor VIII, no podemos determinar la efectividad del t ra-

tamiento en la prevención de la incapacidad física.

V.3. Resultado.

a) Incapacidad física.

Tanto en Valencia como en Oxford, el grado de incapacidad física que presentaban los pacientes estaba asociado con la edad, en el sentido de que la incapacidad aumentaba con la edad.

A pesar de que en el pasado la calidad del tratamiento recibido por los pacientes valencianos ha sido inferior a la de los ingleses, no se han observado diferencias entre ellos en cuanto al grado de incapacidad física se refiere. Esto plantea el problema de la efectividad del tratamiento en la hemofilia. Para resolver dicho problema es necesario subdividir la población de hemofílicos en grupos de edad.

Consideramos, en primer lugar, el grupo de hemofílicos cuyas edades son inferiores a 15 años. Estos pacientes, habiendo sido tratados con Factor VIII a lo largo de casi toda su vida, tienen un grado de incapacidad física inferior a 10 puntos del baremo. Esta ausencia de incapacidad física puede ser debida a la efectividad del tratamiento ó a su corta edad, pero por el momento, como indicamos anteriormente, no puede ser valorado.

El segundo grupo (formado por pacientes de veinte y treinta años) comenzó a ser tratado con Factor VIII cuando la in-

capacidad física comenzaba a aparecer en mucho de ellos. Estos pacientes se encuentran en la actualidad relativamente incapacitados y algunos de ellos verdaderamente tullidos.

La comparación entre Valencia y Oxford pa recería indicar que el tratamiento antiguo no ha resultado, por lo que respecta a prevenir la incapacidad física, muy efectivo. Reflejo de ello es el hecho de que los españoles de esta edad- apenas tratados- tienen un grado de incapacidad física muy similar al de los pacientes ingleses que, en conjunto, estuvieron mejor t ratados.

El tercer grupo (constituido por pacientes con edades superiores a cuarenta años) son supervivientes.

El hecho de que muchos menos hemofílicos valencianos que ingleses alcanzaron estas edades, indica que el tratamiento efectuado a los ingleses tuvo un impacto, si no previniendo la incapacidad, sí, al menos, reduciendo drásticamente la mortalidad.

b) Sensación subjetiva de incapacidad.

La mayoría de pacientes cuyo grado de incapacidad física es inferior a 10 puntos del baremo, no se consideran así mismos incapacitados. Además, como la mayoría de estos pacientes son niños, tienen una menor percepción de la enfermedad.

La diferencia observada en este parámetro entre Valencia y Oxford debe ser considerada con cautela ya que la traducción de un idioma a otro resultó particularmente difícil (Pregunta 31, tarjeta 2, Apéndice 1).

La palabra inglesa "disabled" tiene en español diferentes connotaciones y muchos pacientes pueden haber evitado el clasificarse como inválidos ó minusválidos.

c) Títulos obtenidos.

Las comparaciones entre los hemofílicos y sus respectivas poblaciones normales ó entre los hemofílicos de Valencia y Oxford no fueron posibles ya que no se disponía de suficientes datos.

Los hemofílicos Valencianos estaban peor cualificados que su población general, pero esto carece de valor si se considera que muchos hemofílicos eran niños y por tanto aún no habían podido conseguir ningún título.

d) Empleos desempeñados.

Como los pacientes de mayor edad podían haber desempeñado un mayor número de empleos, simplemente por el hecho de haber estado más años trabajando, se correlacionó el número de empleos con la edad de los pacientes. El resultado fué negativo, es decir, no existe correlación entre estas dos varia-

bles.

Como vimos en el capítulo de resultados, la variable más influyente en el número de empleos desempeñados resultó ser el conocimiento ó desconocimiento que de la enfermedad de sus trabajadores poseyeran los patronos.

Aquellos pacientes, tanto en Valencia como en Oxford, que previamente habían notificado su enfermedad a su patrón, cambiaron de trabajo con mucha menor frecuencia que los que no lo hicieron.

La diferencia observada, en cuanto al número de trabajos, entre Valencia y Oxford puede deberse al hecho de que las industrias británicas tienen la obligación legal de emplear un número determinado (3%) de personas incapacitadas. Esto no es así en España y consiguientemente los hemofílicos silencian su enfermedad, lo que a la larga, por pérdidas de jornadas laborales, redundará en su perjuicio ya que son despedidos.

e) Actividad física.

Como era de esperar la mayoría de hemofílicos ejercían actividades sedentarias.

Resulta interesante destacar que los pacientes cuyas actividades pertenecen a la primera categoría (oficina ó coche) se consideraban incapacitados en un porcentaje muy superior a

aquellos que ejercían profesiones en las que se necesitaba un considerable ejercicio físico. Probablemente, al ejercer estas actividades que conllevan un esfuerzo físico disminuya en estos pacientes su sensación de incapacidad pero muy bien puede ser al contrario, es decir, por no considerarse incapacitados se dedicaron a estas actividades.

f) Número de horas de trabajo perdidas.

Como vimos en el capítulo de resultados, el número de horas de trabajo que los hemofílicos de Valencia y Oxford perdieron por semana, no estaba relacionado con su grado de incapacidad física ni con la clase social a que pertenecieran.

El número de horas perdidas estaba, lógicamente, relacionado con la frecuencia de episodios hemorrágicos.

La ausencia de diferencia en el número de horas de trabajo perdidas entre los hemofílicos pertenecientes a las clases sociales I, II y III no manual y los pertenecientes a las clases III manual, IV y V, parece indicar que la frecuencia de episodios hemorrágicos es aproximadamente la misma en ambos grupos. Esto a su vez implica que las personas que desempeñan actividades sedentarias tienen una frecuencia media de hemorragias similar a la de los que ejercen actividades que conllevan un alto grado de esfuerzo físico.

g) Situación laboral.

Los pacientes que se encontraban en paro en el momento de realizar nuestro trabajo, no presentaban ningún tipo de característica que permitiera diferenciarlos de los demás hemofílicos. Pertenecían, tanto en Valencia como en Oxford, a todas las clases sociales y sus edades oscilan entre los 20 y los 42 años.

Todos los pacientes, excepto uno, atribuyen su condición de parados a su enfermedad.

Los resultados muestran claramente que los hemofílicos, a pesar de las disposiciones laborales que puedan favorecerlos, se encuentran en la actualidad parados en un porcentaje significativamente más alto que los varones de la población normal.

Sin duda, esto se debe también, al desconocimiento que de la enfermedad tienen los patronos. (Algunos hemofílicos comentaban que sus encargados pensaban que ellos podían desangrarse sin remedio en el lugar de trabajo).

h) Grado de satisfacción del paciente.

El insólitamente alto porcentaje de pacientes satisfechos con su tratamiento, puede explicarse parcialmente por un proceso de auto selección. Es decir, muchos pacientes que vivían

fuera de las zonas de nuestro estudio pero que eran tratados muy satisfactoriamente en ellas, cambiaron su residencia a estas zonas. Esta afirmación puede verse reforzada por el hecho de que al requerírseles su opinión sobre el tratamiento llevado a cabo en otros lugares, casi invariablemente lo califican como muy malo.

También puede ser explicado porque los hemofílicos son pacientes muy especiales que requieren tratamiento inmediato a su episodio hemorrágico.

El Centro de Hemofilia de Oxford y los Centros de Valencia les prestan un servicio continuado a lo largo de las 24 horas del día por lo que pueden ser tratados sin retraso en cualquier momento. Además los hemofílicos son personas que encuentran en su vida diaria mucho más problemas que una persona normal (alojamiento, trabajo, escuela, etc...) y tanto el Centro de Oxford como los de Valencia participan en estos problemas y tratan de resolverlos. Por ello, los pacientes les están profundamente agradecidos.

V.4.A. Recursos y Coste.

Los recursos utilizados, incluyendo el personal, así como los costes del Servicio fueron presentados en el Capítulo IV. Ningún comentario puede ser establecido al no realizarse comparaciones.

V.4.B. Implicaciones económicas del tratamiento domicilia- rio.

Todos los pacientes de Oxford utilizaron en 1976 una cantidad de Factor VIII que resultó ser el doble de la que habían utilizado en el período 70-71. Este fenómeno implica claramente un aumento drástico del consumo total y es debido fundamentalmente a una mayor disponibilidad de material terapéutico.

Las implicaciones económicas y de planificación que plantea esta situación nos lleva a considerar la posibilidad de que esta tendencia creciente se mantenga a lo largo de los próximos años.

Con los datos que disponemos parece que esta tendencia se ha estabilizado ya que el consumo de Factor VIII (sin ningún tipo de restricción) no ha variado desde 1976. Sin embargo, como la "dosis correcta" está aún por establecer, la posibilidad de que se produzca un nuevo aumento de consumo no debe ser descartada.

Los pacientes sujetos a tratamiento domiciliario consumen más Factor VIII que los que no lo están y esto se explica también por un proceso de selección.

Precisamente aquellos pacientes que con anterioridad a 1972 utilizaban mayor número de recursos y suponían mayor coste para el Servicio fueron los que comenzaron el tratamiento domiciliario.

El ahorro económico que supone el tratamiento domiciliario es en la actualidad de poca cuantía, pero podría aumentar si se redujera la escala ó tamaño de los Centros de Hemofilia por un cambio de la política de tratamiento.

En cualquier caso, el mayor beneficiario del tratamiento domiciliario no es la Seguridad Social sino la sociedad en general que puede beneficiarse de personas que ya no necesitan perder jornadas laborales ni desplazarse de modo continuo a los Centros de Hemofilia.

REFERENCIAS

1. BRONKS, I.G., BLACKBURN, E.K. (1968), A socio-medical study of haemophilia and related states, Brit.J.Prev. Soc.Med., 22, 68-72
2. KAUFERT, J.M. (1978), Social and attitudinal factors in home treatment of haemophilia (unpublished)
3. RAMGREN, O. (1962), Haemophilia in Sweden, Medico-social aspects, Acta Medica Scandinavica, Supplementum 379
4. OTTOLANDER, G.J.H. den (1965), The incidence of haemophilia A and B in the Netherlands, Vox Sang., 5, 121
5. SOULIER, J.P. (1955), Transmission de l'hémophilie, Remarques tirées de l'étude de 151 cas., V.Kongr. Europ. Gesellsch.f.Hämat., Freiburg pp. 382-396
6. RAMGREN, O. et al (1962), Haemophilia in Sweden, Hereditary Investigations, Acta Medica Scandinavica, 171
7. DEUTSCH, E. (1958), Verschiedene Formen der Haemophilie, Tromb.Diath.Haem., 1, 93
8. IKKALA, E. (1960), Haemophilia, Scand.J.Lab.Clin.Invest. Suppl., 45
9. NELSON, M.G. et al. (1959), Haemophilia in Northern Ire-

land, Ulster Med.J., 28, 11

10. PAVLOVSKY, A. et al. (1958). Emofilia; Considerazioni sulla sua evoluzione, Proc.VII.congr.Intern.Soc.Haemat., Rome, pp. 181-189
11. PITNEY, W.R. (1957), Mild haemophilia; a clinical and laboratory study, Aust. Ann. Med., 6, 44
12. KOHN, R., WHITE, K.L. (eds.), Health Care - An International Study, London, Oxford U.P. 1976
13. JONES, P., Proceedings of 3rd European Congress Of the World Federation of Haemophilia, London, 1976, In press

CAPITULO VI:
CONCLUSIONES
Y
RECOMENDACIONES

CAPÍTULO VI : CONCLUSIONES Y RECOMENDACIONES

a) Las tasas de prevalencia de la enfermedad observadas en Valencia y Oxford, coinciden con las estimaciones de prevalencia de hemofilia presentadas en otros estudios. Sin embargo, Oxford tiene una tasa de prevalencia superior a la estimada para el resto de Inglaterra, lo que puede deberse al hecho de que teniendo su Centro de Hemofilia una gran reputación, muchos enfermos hayan trasladado su residencia a dicha región.

Por otra parte, la tasa de prevalencia en el grupo de edad de 0 a 4 años es en Oxford muy inferior a lo que podría esperarse. Nuestro estudio no ha conseguido explicar satisfactoriamente este hallazgo pero la posibilidad de que los pacientes pertenecientes a este grupo de edad no estén siendo detectados debidamente no puede descartarse. Una mejor coordinación entre los servicios pediátricos que prestan asistencia a niños de esta edad podría permitir una identificación más rápida de estos pacientes.

Los hemofílicos han estado sometidos en el pasado a tasas de mortalidad superiores a las de la población general. Consecuencia de ello es que en la actualidad la población hemofílica es mucho más joven que la población general. Sin

duda, los nuevos tratamientos harán que la esperanza de vida de los hemofílicos se aproxime en gran medida a la de la población normal.

b) El consumo promedio de material terapéutico es sensiblemente inferior en los enfermos de Oxford que en los de Valencia e incluso en los de otros países.

Esta diferencia de consumo es muy importante en relación con el costo del tratamiento y existe por ello una necesidad parento ría de llevar a cabo estudios clínicos comparativos para determinar si esta diferencia de consumo reviste, a largo plazo, importancia clínica.

El consumo de medicamentos analgésicos muestra, por el contrario, una perspectiva distinta. Mientras ningún paciente español toma drogas consideradas como "duras", una proporción considerable de los hemofílicos de Oxford toman regularmente drogas cuyo potencial adictivo es harto conocido. La posibilidad (realidad en algunos casos) de crear drogadicción entre los pacientes ingleses debe ser cuidadosamente valorada, y por ello, los médicos de cabecera y de ambulatorio deberían consultar a los Centros de Hemofilia antes de recetar este tipo de drogas duras.

c) La evaluación de la efectividad del tratamiento requiere la subdivisión de la población hemofílica en dos gru-

pos.

En el primer grupo incluimos a los hemofílicos jóvenes quienes por no estar incapacitados y gracias a la introducción de la terapia domiciliaria, pierden muy poco tiempo de escuela. La valoración completa del impacto que la moderna terapia ha tenido sobre este grupo de pacientes no puede realizarse por el momento y deberá proponerse hasta que estos enfermos alcancen la edad en que la incapacidad, con sus efectos colaterales, apareció en la generación anterior.

En el segundo grupo, constituido por hemofílicos cuyo tratamiento con factor VIII comenzó hace pocos años, el resultado del tratamiento anterior no es muy satisfactorio ya que dicho tratamiento aunque redujo la mortalidad no previno la incapacidad. Estos enfermos permanecen solteros en proporción muy superior a la de la población normal, deben cambiar de empleo con relativa frecuencia y se encuentran en paro en una proporción también muy superior a la de la población normal.

Los Centros de Hemofilia ofrecen en la actualidad consejo genético así como información sobre las ocupaciones más adecuadas para los hemofílicos. Esta función preventiva, junto con campañas de información destinadas a los empresarios y población en general, reducirá sin duda la tasa de

desempleo y la proporción de hemofílicos que permanecen solteros.

d) El costo económico de la asistencia está fuertemente influenciado por los enfermos graves y muy particularmente por aquellos que desarrollaron anticuerpos ó carecen de antecedentes familiares de hemofilia.

La identificación de pacientes con episodios hemorrágicos frecuentes y alto consumo de factor VIII debe llevarse a cabo de manera prioritaria para instaurar en estos pacientes la terapia domiciliaria.

El tratamiento domiciliario, siendo muy beneficioso para el paciente, lo será también para la sociedad, al contribuir a una enorme reducción de los costos asistenciales.

e) Las únicas diferencias observadas entre los hemofílicos de Valencia y Oxford han sido las referentes a edad (más jóvenes los de Valencia); consumo de factor VIII (mayor en Valencia) y toma de medicamentos analgésicos (muy superior en Oxford).

T A B L A S

TABLA IV. 1.1

Distribución por edades de los hemofílicos y de la población total del sexo masculino residentes en Valencia en 1.976.

GRUPOS DE EDAD (en años)	HEMOFÍLICOS EN VALENCIA	POBLACIÓN TOTAL DEL SEXO MASCULINO EN VALENCIA *
0-4	10 (18.5)	91,691 (9.7)
5-14	16 (29.6)	175,330 (18.6)
15-29	17 (31.4)	215,561 (22.8)
30-44	6 (11.2)	180,141 (19.1)
45-64	5 (9.3)	196,406 (20.8)
65-74		58,773 (6.2)
75+		24,895 (2.6)
TOTAL	54 (100)**	942,797 (100)
MEDIA DE EDAD	18 años	32.3 años

t-Test ,de media = 7.33 (53 G.L.) $P < 0.001$

* Publicaciones del Instituto Nacional de Estadística 1.976

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

TABLA IV. 1.2

Distribución por edades de los hemofílicos y de la población total del sexo masculino residentes en Oxford en 1.976.

GRUPOS DE EDAD (en años)	HEMOFÍLICOS EN OXFORD	POBLACIÓN TOTAL SEXO MASCULINO RESIDENTE EN OXFORD *
0-4	6 (3.2)	79,200 (7)
5-14	43 (23.3)	194,000 (17.3)
15-29	58 (31.4)	278,800 (24.8)
30-44	45 (24.3)	225,600 (20.1)
45-64	23 (12.4)	237,500 (21.1)
65-74	6 (3.2)	76,900 (6.8)
75+	4 (2.1)	31,700 (2.8)
TOTAL	185 (100)**	1,123,700 (100)
MEDIA DE EDAD	28.1 años	33.5 años

T-Test de medias = 4.03 (184 G.L.) P < 0.001

* Estimaciones sobre la población Inglesa (Departamento de Sanidad y Seguridad Social, 1.978)

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

TABLA IV. 1.3

Tasas de Prevalencia de hemofilia específicas por edades por 100,000 habitantes en Valencia y Oxford en 1.976.

GRUPOS DE EDAD (en años)	TASAS DE PREVALENCIA ESPECÍFICAS POR EDADES x 100,000 HABITANTES	
	OXFORD	VALENCIA
0-4	7.6	11.
5-14	22.1	9.1
15-29	20.8	7.8
30-44	20	3.3
45-64	9.7	2.5
65-74	7.8	
75+	12.6	

TABLA IV. 1.4

Comparación por estado civil entre los hemofílicos de Valencia y la población total del sexo masculino residente en Valencia en 1.976 (sólo varones adultos)

ESTADO CIVIL	HEMOFÍLICOS EN VALENCIA	POBLACIÓN TOTAL SEXO MASCULINO RESIDENTE EN VALENCIA ***
SOLTERO	15 (53.6)	196,750 (29)
CASADO	12 (42.8)	453,850 (67.1)
VIUDO	* 1 (3.6)	23,002 (3.5)
DIVORCIADO	1 (3.6)	2,174 (0.4)
TOTAL	28 (100)**	675,776 (100)

$$\chi^2 = 8.11 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P < 0.01$$

* Indica agrupamiento para χ^2 .

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes de varones adultos.

*** Publicaciones del Instituto Nacional de Estadística de 1.976.

TABLA IV. 1.5.

Comparación por estado civil entre los hemofílicos de Oxford y la población total del sexo masculino residente en Oxford en 1.976 (sólo varones adultos)

ESTADO CIVIL	HEMOFÍLICOS EN OXFORD	POBLACIÓN TOTAL SEXO MASCULINO RESIDENTE EN OXFORD***
SOLTERO	61 (45)**	232,645 (27.3)
CASADO	* [71 (52)	* [584,260 (68.7)
VIUDO	* [2 (1.5)	* [26,122 (3)
DIVORCIADO	* [2 (1.5)	* [7,793 (1)
TOTAL	136 (100)	850,820 (100)

$$\chi^2 = 20.1 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P < 0.001$$

* Indica agrupamiento para χ^2

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes de varones adultos.

*** Estimaciones extrapoladas del censo de 1.971.

TABLA IV. 1.6

Comparación por clase social entre los hemofílicos de Valencia y la población total del sexo masculino residente en Valencia (sólo población activa masculina)

CLASE SOCIAL	HEMOFÍLICOS EN VALENCIA	POBLACIÓN MASCULINA RESIDENTE EN VALENCIA ^{***}
I		31,382 (5.3)
II	* 4 (14.3)	59,211 (10)
III no-manual	4 (14.3)	34,342 (5.8)
III manual	12(42.6)	94,737 (16)
IV	6 (21.4)	143,882 (24.3)
V	2 (7.2)	228,554 (38.6)
TOTAL	28 (100) ^{**}	592,108 (100)

$$\chi^2 = 0.945 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P > 0.25$$

* Indica agrupamiento para χ^2

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes de la población masculina activa.

*** Publicaciones del Instituto Nacional de Estadística de 1.976.

TABLA IV. 1.7

Comparación por clase social entre los hemofílicos de Oxford y la población del sexo masculino residente en Oxford (sólo población masculina activa)

CLASE SOCIAL	HEMOFÍLICOS EN OXFORD	POBLACIÓN MASCULINA RESIDENTE EN OXFORD***
I	12 (11.2)	54,760 (7.4)
II	* 20 (18.6)	151,700 (20.5)
III no-manual	23 (21.5)	86,580 (11.7)
III manual	32 (30)	273,800 (37)
IV	18 (16.9)	125,060 (16.9)
V	2 (1.8)	48,100 (6.5)
TOTAL	107 (100)**	740,000 (100)

$$\chi^2 = 6.21 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P < 0.02$$

* Indica agrupamiento para χ^2

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes de la población masculina activa.

*** Economic Activity County Leaflets D.P.C.S. 1.975

TABLA IV. 1.8

Tasas de Prevalencia de hemofilia específicas por clase social por 100,000 habitantes en Valencia y Oxford en 1,976

CLASE SOCIAL	TASAS DE PREVALENCIA ESPECÍFICAS POR CLASE SOCIAL x 100,000 HABITANTES
	OXFORD
I+II+III no-manual	18,76
III manual + IV +V	11,63

CLASE SOCIAL	TASAS DE PREVALENCIA ESPECÍFICAS POR CLASE SOCIAL x 100,000 HABITANTES
	VALENCIA
I+II+III no-manual	6,40
III manual + IV + V	4,28

TABLA IV. 1.9

Comparación por gravedad de la enfermedad entre los pacientes de Oxford y Valencia.

GRAVEDAD DE LA ENFERMEDAD	NUMERO DE PACIENTES	
	OXFORD	VALENCIA
GRAVE ¹	116 (62.7)	31 (57.4)
MODERADO ²	25 (13.5)**	14 (25.6)
LEVE ³	* 44 (23.8)	9 (17)
TOTAL	185 (100)	54 (100)

$$\chi^2 = 0.297 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P > 0.5$$

* Indica agrupamiento para χ^2

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

1 GRAVE : Menos del 2 % de factor VIII

2 MODERADO : Entre 2% y 6% de factor VIII

3 LEVE : Más del 6% de factor VIII

TABLA IV. 1. 10

Número de pacientes con presencia o ausencia de antecedentes familiares de hemofilia en Oxford y Valencia.

ANTECEDENTES FAMILIARES	NÚMERO DE PACIENTES	
	OXFORD	VALENCIA
CON ANTECEDENTES FAMILIARES	122 (65)	41 (76)
SIN ANTECEDENTES FAMILIARES	54 (29) ^{***}	13 (24)
INFORMACIÓN DESCONOCIDA	9 (5) ^{***}	
TOTAL	185 (100)	54 (100)

$$\chi^2 = 0.583 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P > 0.25$$

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

*** Excluido de χ^2 .

TABLA IV. 1.11

Determinación de anticuerpos contra Factor VIII

OXFORD Y VALENCIA 1.976

ANTICUERPOS	CENTROS	
	OXFORD	VALENCIA
PRESENCIA	10 (5.7)**	1 (1.8)
AUSENCIA	175 (94.3)	53 (98.2)
total	185 (100)	54 (100)

$$\chi^2 = 0.529 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P > 0.25$$

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

TABLA IV. 2.1

HEMOFÍLICOS

EN					
VALENCIA	—————	54	—	GRAVES	————— 31
			—	MODERADOS	————— 14
			—	LEVES	————— 9
					ENTREVISTADOS
					ENTREVISTADOS*
					NO ENTREVISTADOS

(* véase el Texto)

HEMOFÍLICOS

EN																						
OXFORD	—————	185	—	GRAVES	— 116	<table border="0"> <tr> <td>—</td> <td>95 ENTREVISTADOS</td> <td>—</td> <td>**</td> </tr> <tr> <td>—</td> <td>21 NO ENTREVISTADOS</td> <td>—</td> <td>***</td> </tr> <tr> <td>—</td> <td>MODERADOS — 25 NO ENTREVISTADOS</td> <td>—</td> <td>****</td> </tr> <tr> <td>—</td> <td>LEVES — 44 NO ENTREVISTADOS</td> <td>—</td> <td></td> </tr> </table>	—	95 ENTREVISTADOS	—	**	—	21 NO ENTREVISTADOS	—	***	—	MODERADOS — 25 NO ENTREVISTADOS	—	****	—	LEVES — 44 NO ENTREVISTADOS	—	
—	95 ENTREVISTADOS	—	**																			
—	21 NO ENTREVISTADOS	—	***																			
—	MODERADOS — 25 NO ENTREVISTADOS	—	****																			
—	LEVES — 44 NO ENTREVISTADOS	—																				
			—	MODERADOS	— 25 NO ENTREVISTADOS																	
			—	LEVES	————— 44 NO ENTREVISTADOS																	

** 5 Fallecieron antes de iniciarse el estudio

*** 8 Abandonaron la región en el período 1.976-77

**** 8 Estaban siendo tratados regularmente en Northampton

TABLA IV. 2.2

Distribución por edades de los hemofílicos residentes
en la región de Oxford en 1.976

GRUPOS DE EDAD (en años)	ENTREVISTADOS	NO ENTREVISTADOS
0-4	4 (4.3)	2 (2.8)
5-14	22 (23.2)	21 (23.5)
15-29	35 (37)	23 (25.5)
30-44	22 (23.2)	23 (25.5)
45-64	8 (8.4)	15 (16.6)
65-74	1 (1)	5 (5.5)
75+	3 (3.2)	1 (1.1)
TOTAL	95 (100)*	90 (100)
MEDIA DE EDAD	26.25 años	29.8 años

t-Test de medias = 1.33 (183 G.L.) $P > 0.1$

* Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

TABLA IV. 2.3

Comparación por estado civil entre los hemofílicos entrevistados y no entrevistados en la región de Oxford.

ESTADO CIVIL	ENTREVISTADOS	NO ENTREVISTADOS
SOLTERO	60 (63)	51 (56.6)
CASADO	34 (35.8)	36 (40)
VIUDO	* [[2 (2.2)
DIVORCIADO Y SEPARADO	1 (1.2)	1 (1.2)
TOTAL	95 (100)**	90 (100)

$$\chi^2 = 0.563 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P > 0.25$$

* Indica agrupamiento para χ^2

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

TABLA IV. 2.4

Comparación por clase social entre los hemofílicos entrevistados y no entrevistados en la región de Oxford.

CLASE SOCIAL	ENTREVISTADOS	NO ENTREVISTADOS
I	6 (6.3)	6 (6.6)
II	* 11 (11.5)	9 (10)
III no-manual	12 (12.6)**	11 (12.2)
III manual	18 (19)	14 (15.5)
IV	6 (6.3)	12 (13.3)
V	1 (1)	1 (1.1)
TOTAL	54 (57)***	53 (59)***

$$\chi^2 = 0.083 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P > 0.9$$

* Indica agrupamiento para χ^2

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes

*** Un 43% de estudiantes, parados y jubilados entre los entrevistados y un 41% entre los no entrevistados han sido excluidos de χ^2 (Los parados excluidos nunca habían trabajado)

TABLA IV. 2.5

Comparación por gravedad de la enfermedad entre los hemofílicos entrevistados y no entrevistados en la región de Oxford.

GRAVEDAD DE LA ENFERMEDAD	ENTREVISTADOS	NO ENTREVISTADOS
GRAVE	95 (100)	21 (23.3)
MODERADO	0	25 (27.7)
LEVE	0	44 (49)
TOTAL	95 (100)*	90 (100)

* Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

TABLA IV. 2.6

Medios de transporte utilizados por los hemofílicos en sus desplazamientos a los centros de tratamiento.

MEDIOS DE TRANSPORTE	CENTROS	
	OXFORD	VALENCIA
AMBULANCIA	18 (19) ^{***}	0
COCHE PARTICULAR	72 ^{***} (75.7)	22 (49)
TRANSPORTE PÚBLICO	5 (5.2)	23 (51)
TOTAL	95 (100)	45 (100)

*** Las cifras entre paréntesis indican porcentajes totales de hemofílicos entrevistados.

*** 20 coches de los 72 eran minis suministrados por el Ministerio de Sanidad Inglés.

TABLA IV. 2.7

Comparación de los beneficios de la Seguridad social obtenidos por los hemofílicos de Oxford y Valencia.

BENEFICIOS DE LA SEGURIDAD SOCIAL	CENTROS	
	OXFORD	VALENCIA
NINGUNO	37 (39)*	35 (78)
ALGUNO	58 (61)	10 (22)
TOTAL	95 (100)	45 (100)

$$\chi^2 = 16.91 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P < 0.001$$

* Las cifras entre paréntesis son porcentajes totales de hemofílicos entrevistados.

TABLA IV. 2.8

Frecuencia y características de los medicamentos tomados de acuerdo al baremo por grupos de edad en OXFORD Y VALENCIA.

GRUPOS DE EDAD (en años)	BAREMO DE MEDICAMENTOS									
	OXFORD					VALENCIA				
	0	1-4	5-9	10-16	TOTAL	0	1-4	5-9	10-16	TOTAL
0-4	3	1			4	8				8
5-9	*	9			9	4	2			6
10-14	3	9		1	13	3	3			6
15-19	2	7		2	3	2	3	1		6
20-24	2	2		4	4	4	2			6
25-29		2		3	4	1	1			2
30-34	1	2		1	4	3	1			4
35-39	1	1		3	3	2				2
40-44		1		2	3					
45-49		1		1	1	3	1			4
50-54						1				1
55-59	1	1		1	1					4
60-64		1								1
65-69		1								1
70-74										
75-79		1		1						2
80-84	1									1
TOTAL	14	39	19	23	95	31	13	1		45

χ^2 Oxford = 26.33 (3 G.L.) P < 0.001 C = 0.47

* Indica agrupamiento para χ^2

TABLA IV. 2.9

Asociación entre el consumo de Factor VIII y el de otros medicamentos en Oxford.

UNIDADES DE FACTOR VIII	BAREMO DE MEDICAMENTOS				TOTAL
	0	1-4	5-9	10-14	
0-5,999	7	11	5	5	28
6,000-15,999	5	15	8	4	29
16,000-25,999		4	4	3	11
26,000-35,999		4	* 4	2	10
36,000-45,999		3		4	7
46,000+	2	2	1	5	10
TOTAL	14	39	19	23	95

$$\chi^2 = 10.40 \quad (6 \text{ G.L.}) \quad C = 0.31 \quad P > 0.1$$

* Indica agrupamiento para χ^2 .

TABLA IV. 2.10

Asociación entre el consumo de Factor VIII e incapacidad física.

UNIDADES DE FACTOR VIII	BAREMO DE INCAPACIDAD FÍSICA												TOTAL
	0-5	6-10	11-15	16-20	21-25	26-30	31-35	36-40	41-45	46-50	51-55	56-60	
0-5,999	14	2	2	1	2	1	2		1	1	1	1	28
6,000-15,999	9	7	2	2	6		1		1		1		29
16,000-25,999	2	2	2	2		1	2						11
26,000-35,999 *			4	2	2	1	2					1	10
36,000-45,999	1	2		2	1							1	7
46,000+	3		3		2			1			1		10
TOTAL	29	13	13	7	13	3	7	1	2	1	3	3	95

$$\chi^2 = 1.622 \quad (2 \text{ G.L.}) \quad C = 0.13 \quad P > 0.3$$

* Indica agrupamiento para χ^2 .

TABLA IV. 3.1

Correlación entre el grado de incapacidad física y la edad de los pacientes.

GRUPOS DE EDAD (en años)	BAREMO DE INCAPACIDAD FÍSICA EN VALENCIA													TOTAL	
	0-5	6-10	11-15	16-20	21-25	26-30	31-35	31-35	36-40	41-45	46-50	51-55	56-60		
0-4	8														8
5-9	5	1													6
10-14	3	2		1											6
15-19	1	1	1	1	1		1								6
20-24			1	1	4										6
25-29				2											2
30-34	1	2	1												4
35-39	1			1											2
40-44															
45-49				1	1	1					1				4
50-54	1														1
55-59															
60-64															
65-69															
70-74															
75-79															
80-84															
TOTAL	20	6	3	7	5	1	1				1				45

$r = 0,58$

$P < 0,001$

TABLA IV. 3.2
 Correlación entre el grado de incapacidad física y la edad de los pacientes
 - OXFORD-

GRUPOS DE edad (en años)	BAREMO DE INCAPACIDAD FÍSICA EN OXFORD												TOTAL	
	0-5	6-10	11-15	16-20	21-25	26-30	31-35	36-40	41-45	46-50	51-55	56-60		
0-4	4													4
5-9	8	1												9
10-14	8	5												13
15-19	5	3	5	1										14
20-24		2	3	3	2		2							12
25-29			2	2	2	1	1	1						9
30-34	1	1	1		3		1				1			8
35-39	3				1	1	1			1		1		8
40-44		1			3				1		1			6
45-49					1	1			1					3
50-54														
55-59			1	1			1				1			4
60-64												1		1
65-69												1		1
70-74														
75-79			1				1							2
80-84					1									1
TOTAL	29	13	13	7	13	3	7	1	2	1	3	3		95
$r = 0.633$													$P < 0.001$	

TABLA IV.3.3

Asociación entre el grado de incapacidad física y la frecuencia y características de los medicamentos tomados en VALENCIA.-

BAREMO DE MEDICAMENTOS	BAREMO DE INCAPACIDAD FÍSICA												TOTAL
	0-5	6-10	11-15	16-20	21-25	26-30	31-35	36-40	41-45	46-50	51-55	56-60	
0	18	2		5	4	1	1						31
1-4	2	4	2	2	2					1			13
5-9			1										1
10-16													
TOTAL	20	6	3	7	6	1	1			1			45

TABLA IV. 3.4

Asociación entre el grado de incapacidad física y la frecuencia y características de los medicamentos tomados.- OXFORD .-

BAREMO DE MEDICAMENTOS	BAREMO DE INCAPACIDAD FÍSICA												
	0-5	6-10	11-15	16-20	21-25	26-30	31-35	36-40	41-45	46-50	51-55	56-60	TOTAL
0	* 9	1	1		1		1				1		14
1-4	16	9	4	1	3	1	3					2	39
5-9	2	2	4	2	4	1	2		1		1		19
10-16	2	1	4	4	5	1	1	1	1	1	1	1	23
TOTAL	29	13	13	7	13	3	7	1	2	1	3	3	95

$$\chi^2 = 18.01 \quad (2 \text{ G.L.}) \quad C = 0.4 \quad P < 0.001$$

* Indica agrupamiento para χ^2 .

TABLA IV. 3.5

Asociación entre clase social e incapacidad física (sólo población masculina activa)
 -. VALENCIA .-

CLASE SOCIAL	BAREMO DE INCAPACIDAD FÍSICA													TOTAL
	0-5	6-10	11-15	16-20	21-25	26-30	31-35	36-40	41-45	46-50	51-55	56-60		
I														
II	1			1		1								3
III No-Manual		1		1	1		1							4
III Manual	1		2	1	3					1				8
IV	1	1		2	1									5
V	1													1
TOTAL	4	2	2	5	5	1	1			1				21

TABLA IV. 3.6

Asociación entre clase social e incapacidad Física (sólo población masculina activa) -. OXFORD .-

CLASE social	BAREMO DE INCAPACIDAD FÍSICA												TOTAL
	0-5	6-10	11-15	16-20	21-25	26-30	31-35	36-40	41-45	46-50	51-55	56-60	
I			1	1	1	1					1		6
II	2	1	1	1	3	1		1			1		11
III No-Manual	2	2	5		2							1	12
III Manual	1	1	4	2	6	1	1		1				18
IV	1		1			1	1					2	6
V		1											1
TOTAL	6	5	12	4	12	4	3	1	1	1	2	3	54

$$\chi^2 = 0.845 \quad (2 \text{ G.L.}) \quad C = 0.125 \quad P > 0.9$$

* Indica agrupamiento para χ^2 .

TABLA IV. 3.7

Número de pacientes con sensación subjetiva de incapacidad en cada uno de los grupos de incapacidad física.- OXFORD Y VALENCIA.

BAREMO DE INCAPACIDAD FÍSICA	INCAPACIDAD SUBJETIVA					
	OXFORD			VALENCIA		
	NO	SI	TOTAL	NO	SI	TOTAL
0-5	23] *	6]	29	20] *	3]	20
6-10	7]	6]	13	3]	3]	6
11-15	6]	7]	13	1]	2]	3
16-20	5]	2]	7	2]	5]	7
21-25	4]	9]	13	1]	5]	6
26-30	1]	2]	3	1]		1
31-35	5]	2]	7	1]		1
36-40		1]	1			
41-45	1]	1]	2			
46-50	1]		1	1]		1
51-55		3]	3			
56-60	1]	2]	3			
TOTAL	54(56.8)	41(43.2)	95	30(66.6)	15(33.3)	45

* Indica agrupamiento pa ra χ^2 χ^2 con datos de Valencia = 10.94 (1 G.L.) $P < 0.001$
 χ^2 con datos de Oxford = 5.50 (1 G.L.) $P < 0.02$ χ^2 global = 0.853 (1 G.L.) $P > 0.25$

TABLA IV. 3.8

Número de pacientes con sensación subjetiva de incapacidad en cada cada clase social.- OXFORD Y VALENCIA (sólo población masculina activa)

CLASE social	INCAPACIDAD SUBJETIVA					
	OXFORD			VALENCIA		
	NO	SI	TOTAL	NO	SI	TOTAL
I	[4	[2	6			0
II	[3	[8	11	[2	[1	3
III No-Manual	* [4	[8	12	* [2	[2	4
III Manual	[10	[8	18	[4	[4	8
IV	[3	[3	6	[3	[2	5
V	[1	[]	1	[1	[]	1
TOTAL	25(46.2)	29(53.8)	54	12(57)	9(43)	21

$\chi^2 = 1.11$ (1 G.L.) $P > 0.25$ $P \text{ Exacto} = 0.28$ (1 G.L.)
 χ^2 en C.S. I, II, III N M Oxford y Valencia = $P \text{ Exacto} = 0.217$
 χ^2 en C.S. III Manual, IV, V = 0.072 (1 G.L.) $P > 0.9$
 * Indica agrupamiento para χ^2

TABLA IV. 3.9

Número de pacientes con sensación subjetiva de incapacidad en cada una de las categorías de consumo de medicamentos.

OXFORD Y VALENCIA

INCAPACIDAD SUBJETIVA	BAREMO DE MEDICAMENTOS									
	OXFORD					VALENCIA				
	0	1-4	5-9	10-16	TOTAL	0	1-4	5-9	10-16	TOTAL
NO	10	22	12	10	54	24	6			30
SI	4	17	7	13	41	7	7	1		15
			*							
TOTAL	14	39	19	23	95	31	13	1		45

$$\chi^2 = 38.60 \quad (1 \text{ G.L.}) \quad P < 0.001$$

* Indica agrupamiento para χ^2 .

TABLA IV. 3.10

Títulos obtenidos por los hemofílicos en el curso de su educación.

-.VALENCIA.-

	TÍTULOS OBTENIDOS						TOTAL
	NINGUNO	ESTUDIOS PRIMARIOS	BACHILLER ELEMENTAL	BACHILLER SUPERIOR	TÉCNICO	TÍTULO UNIVERSITARIO	
HEMOFÍLICOS EN VALENCIA	29(64)	10(22.2) ^{**}		2(4.4)	4(8.8)		45
POBLACIÓN MASCULINA TOTAL* (en miles)	479.9(50)	308.3(32.6)	63.3(6.7)	39.6(4.1)	16.4(1.73)	37.7(3.9)	945.3

* Publicaciones del I.N.E. 1973

** Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

TABLA IV. 3.11

Títulos obtenidos por los hemofílicos en el curso de su educación.

-.OXFORD.-

	TÍTULOS OBTENIDOS						TOTAL
	NINGUNO	ESTUDIOS PRIMARIOS	BACHILLER ELEMENTAL	BACHILLER SUPERIOR	TÉCNICO	TÍTULO UNIVERSITARIO	
HEMOFÍLICOS EN OXFORD	51(53.6)*	1(1.05)	9(9.4)	11(11.5)	15(15.8)	8(8.4)	95

* Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

TABLA IV. 3.12

Relación entre el grado de incapacidad física y el nivel de actividad física realizado por los pacientes.- VALENCIA.

ACTIVIDAD FÍSICA	BAREMO DE INCAPACIDAD FÍSICA												
	0-5	6-10	11-15	16-20	21-25	26-30	31-35	36-40	41-45	46-50	51-55	56-60	TOTAL
Oficina ó automóvil Oficina y caminando En el exterior	2		1	4	4	1	1						13
caminando	1		1										2
Gran actividad física	1	2		1	1					1			6
TOTAL	4	2	2	5	5	1	1			1			21

TABLA IV. 3.13

Relación entre el grado de incapacidad física y el nivel de actividad física realizado por los pacientes.- OXFORD.

ACTIVIDAD FÍSICA	BAREMO DE INCAPACIDAD FÍSICA												
	0-5	6-10	11-15	16-20	21-25	26-30	31-35	36-40	41-45	46-50	51-55	56-60	TOTAL
Oficina ó automóvil	1	2	6	4	7	2	2				1	1	26
En Oficina y caminando	1	2	2		2	1	1		1	1	1		12
En el exterior caminando	3		2		2							2	9
Gran actividad física	1	1	2		1	1		1					7
TOTAL	6	5	12	4	12	4	3	1	1	1	2	3	54

TAJLA IV. 3.14

Número de pacientes en los diferentes niveles de actividad física que tienen sensación subjetiva de incapacidad.

ACTIVIDAD FÍSICA	INCAPACIDAD SUBJETIVA					
	OXFORD			VALENCIA		
	NO	SI	TOTAL	NO	SI	TOTAL
Oficina ó automóvil	9	17	26	8	5	13
En oficina y caminando	5	7	12			
En el exterior y caminando	6	3	9	1	1	2
Gran actividad física	5	2	7	3	3	6
TOTAL	25	29	54	12	9	21

χ^2 con datos de la categoría oficina / coche = 1.577

(1 G.L.) $P > 0.1$

TABLA IV. 3.15

Cambios de empleo por grupos de edad.-

--.VALENCIA.--

GRUPOS DE EDAD	NÚMERO DE EMPLEOS										TOTAL	
	(en años)	1	2	3	4	5	6	7	8	9		10
15-25	3	3	1			1						8
26-35	2		1	1	1	1						6
36-45	2			1				1				4
46-55	2								1			3
56-65												
TOTAL	9	3	2	2	1	2	1	1				21

TABLA IV. 3.16

Cambios de empleo por grupos de edad.-

--.OXFORD.--

GRUPOS DE EDAD (en años)	NÚMERO DE EMPLEOS										TOTAL
	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	
15-25	8	4	4			1		1		1	19
26-35	8	4	2	2	1						17
36-45	6	3	1	1		1					12
46-55	3		1								4
56-65	1			1							2
TOTAL	26	11	8	4	1	2		1		1	54

TABLA IV. 3.17

NÚMERO DE EMPLEOS	CONOCIMIENTO POR PARTE DE LA EMPRESA DE LA ENFERMEDAD DE SU TRABAJADOR					
	OXFORD			VALENCIA		
	NO	SI	TOTAL	NO	SI	TOTAL
	1	1	25	26	2	7
2	1	8	9		3	3
3	2	4	6	1	1	2
4	1	3	4	1	1	2
5	1		1	1		1
6		2	2	2		2
7				1		1
8	1		1			
9				1		1
10	1		1			
		*				
TOTAL	8(16)	42(84)	50**	9(43)	12(47)	21

$\chi^2 = 4.476$ (1 G.L.) $P < 0.05$

* Indica agrupamiento para χ^2 .

** 50 en lugar de 54 puesto que 4 pacientes eran empleados autónomos.

TABLA IV. 3.18

Número de horas de trabajo perdidas por semana en las diferentes clases sociales. VALENCIA,--

CLASE SOCIAL	NÚMERO DE HORAS DE TRABAJO PERDIDAS POR SEMANA											TOTAL
	0	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	
I	*											
II	1	1							1			3
III NM	2	1	1									4
III M	4	1			1			1		1		8
IV			1	2					1		1	5
V	1											1
TOTAL	8	4	3		1			3		2		21

$t = 0.908$ (19 G.L.) $P > 0.3$

* Indica agrupamiento para t-Test de medias.

TABLA IV. 3.19

Número de horas de trabajo perdidas por semana en las diferentes clases sociales. OXFORD.-

CLASE SOCIAL	NÚMERO DE HORAS DE TRABAJO PERDIDAS POR SEMANA											TOTAL
	0	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	
I	3			1	1				1			6
II	* 4	2	3		1						1	11
III NM	3	1	2	1	2	1	1		1			12
III M	9	1	4			1			1	1	1	18
IV	3		1	2								6
V									1			1
TOTAL	22	4	10	4	4	2	1		4	1	2	54

$t = 0.250$ (52 G.L.) $P > 0.8$

* Indica agrupamiento para t-Test de medias.

TABLA IV. 3.20

Situación laboral de los hemofílicos en Valencia.

SITUACIÓN LABORAL	HEMOFÍLICOS EN VALENCIA (Población activa)	POBLACIÓN ACTIVA MASCULINA EN VALENCIA ***
En activo	18 (85.7)	581,253 (98)
En paro	3 (14.3)****	10,855 (2)
TOTAL	21 (100)*	592,108 (100)

$$u = 4,25 \quad P < 0,001$$

* Las cifras entre paréntesis son porcentajes de la población activa masculina.

** Publicaciones del I.N.E. 1976.

*** Pacientes que anteriormente tuvieron al menos un empleo.

TABLA IV. 3.21

Situación laboral de los hemofílicos en Oxford.

SITUACIÓN LABORAL	HEMOFÍLICOS EN OXFORD (Población activa)	POBLACIÓN ACTIVA MASCULINA EN OXFORD**
En activo	50 (92.6)	714,351 (96.5)
En paro	4 (7.4)***	25,649 (3.5)
TOTAL	54 (100)*	740,000 (100)

u = 1.6

P < 0.05

* Las cifras entre paréntesis son porcentajes de la población activa masculina.

** Department of Employment Gazette.

*** Pacientes que anteriormente tuvieron al menos un empleo.

TABLA IV. 3.22

Grado de satisfacción del paciente con respecto a su tratamiento en los centros asistenciales.

GRADO DE SATISFACCIÓN DEL PACIENTE	OXFORD	VALENCIA
Muy satisfecho	94 (99)	45 (100)
Insatisfecho	1 (1)	
TOTAL	95 (100)*	45 (100)

* Las cifras entre paréntesis son porcentajes.

TABLA IV. 8.1

Distribución por edades de los 95 pacientes entrevistados.

GRUPOS DE EDAD (en años)	TRATAMIENTO DOMICILIARIO	TRATAMIENTO EN EL CENTRO
0-4		4
5-14	15	7
15-29	24	11
30-44	8	13
45-64	3	6
65-74		1
75+		3
TOTAL	50	45
MEDIA DE EDAD	22.2 años	30.6 años

t test de medias = 2.429 (93 G.L.) $P < 0.02$

TABLA IV. 5.2

Consumo de Factor VIII por grupos de edad.

UNIDADES DE FACTOR VIII	GRUPOS DE EDAD								
	0-4	5-14	15-29	30-44	45-64	65-74	75+	TOTAL	
0-5,999	*	[3 6]	[5]	[7	5	1	1	28	
6,000-15,999		[1 9]	[12]	[5	1		1	29	
16,000-25,999		3]	[4]	[3	1			11	
26,000-35,999			[7]	[1	2			10	
36,000-45,999		2]	[3]	[2				7	
46,000+		2]	[4]	[3			1	10	
TOTAL		4	22	35	21	9	1	3	95

$$\chi^2 = 4.425 \quad (4 \text{ G.L.}) \quad C = 0.21 \quad P > 0.3$$

* Indica agrupamiento para χ^2

BIBLIOGRAFIA

BIBLIOGRAFIA

1. ABRAHAMSON, J.H. Survey Methods in Community Medicine, London, Churchill and Livingstone, 1977
2. AGHESON, R.M. (ed.) Seminars in Community Medicine : Health information, planning and monitoring, London, Oxford University Press, 1976
3. ALA, F.A., DENSON, K.W.E. (eds.) Haemophilia. Proceedings of the VII Congress of the World Federation of Haemophilia, Tehran, 1971
4. ALDORT, L.M. (1975), Recent advances in haemophilia, New York, New York Academy of Sciences
5. ALLAIN, J.P. et al. (1976), Antibodies to factor VIII. Patterns of immune response to factor VIII in hemophilia A.
Blood, 47, 6, 973-82
6. ALLAIN, J.P. (1977), Management of hemophilia in France
Thromb. Haemostas, 35, 3, 553-8
7. AMERICAN ACADEMY OF ORTHOPAEDIC ASSOCIATIONS (1965), Joint Motion : Method of Measuring and Recording

8. ARMITAGE, P. Statistical Methods in Medical Research, Oxford Blackwells Scientific Publications, 1975
9. ARONSTAM, A. et al. (1976), Prophylaxis in hemophilia : a double-blind controlled trial. Br. J. Haematol., 33, 1, 81-90
10. AZNAR, J.A. et al., (1978), Valoración del diagnóstico del estado portador de hemofilia A y B. Sangre, 23, 5, 699-707
11. BENNETT, A., RITCHIE, K. Questionnaires in Medicine: Their design and use, London, NPHT, 1975
12. BENTLEY, G. (1976), Incidence, inheritance and management Nurs. Times, 71, 49, 1926-7
13. BIGGS, R. RIZZA, C.R. (1976), the sporadic case of Haemophilia A, Lancet, 2, 431-33
14. BIGGS, R. (1977), Haemophilia treatment in the United Kingdom from 1969-74. Brit. J. Haematology, 35, 487-504
15. BIGGS, R., SPOONER, R.J.D. (1977) Haemophilia Centre Directors Annual Statistics for 1975. Brit. J. Haematology, 36, 447-449
16. BIGGS, R. Haemophilia and its related conditions: A brief guide to diagnosis and treatment. London, H.M.S.O., 1974

17. BIGGS, R. (ed) The treatment of haemophilia A and B and Von Willebrand's Disease, Oxford, 1978
18. BIGGS, R. (1974), Lancet, 1, 1339
19. BRACKMANN, H.H. et al. (1977), Home care of hemophilia in West Germany
Thromb. Haemostas., 35, 3, 544-52
20. BRONKS, I.G., BLACKBURN, E.K. (1968), A socio-medical study of haemophilia and related states, Brit.J.Prev. Soc.Med., 22, 68-72
21. CASH, J.D., SPENCELY, M..(1976), British Medical Journal, 2, 682-84
22. CARTER, F. et al. (1976), British Medical Journal, 2, 465-67
23. CARTER, F. et al. (1975), British Medical Journal, 2, 256
24. DEJMEK, J. et al. (1976), hemophilia in Slovakia. Population situation.
Vnitr. Lek., 22, 7, 693-702
25. DEUTSCH, E. (1968), Verschiedene Formen der hamophilie.
Tromb. Drath. Haem., 1, 93
- 26 DITTMER, J. et al. (1977), Vierjährige Erfahrungen bei

der behandlung und Beschulung häpophiler Kinder,

Aerztl. Jugendkd., 67,2, 106-10

27. DORMANDY, K.M. (1974). Lancet, 2, 155
28. DORMANDY, K.M. et al. (1976) the suppression of factor VIII antibodies in hemophilia.
Pathol. Biol. (Paris), 23, suppl, 17-23
29. DUTHIE, R.B. et al. The management of musculo-skeletal problems in the haemophilias, Oxford, 1972
30. ELSTON, R.C. et al. (1976), Probabilistic classification of hemophilia A carriers by discriminat analysis
Thromb. Resp., 8, 5, 683-95
31. EYSTER, M.E. et al. (1976), Carrier detection in classic hemophilia by combined measurement of immunologic (VIII AGN) and procoagulant (VIII AHF) activities
Am. J. Clin. Pathol., 65,6, 975-81
32. FRATANTONI, J.C. ARONSON, D.L., Unsolves problems in haemophilia, Maryland, 1976
33. GRAHAM, J.B. et al. (1977), the phenotypic range of hemophilia A carriers.
Am. J. Hum. Genet., 28,5, 482-8
34. HATHAWAY, H.S. et al. (1976), Carrier detection in

classical haemophilia.

Pediatrics, 57, 2, 251-4

35. IKKALA, E. (1960), Haemophilia. Scand. J. Lab. Clin. Invest. Suppl., 45
36. INGRAM, G.I.C. et al (1979), Home treatment in haemophilia: clinical, social and economic advantages, Clin. Lab. Haemat., 1, 13-27
37. INGRAM, G.I.C. (1974), Lancet, 2, 56
38. INGRAM, G.I. (1976), the history of haemophilia J. Clin. Pathol., 29, 6, 469-79
39. JESDINSKY-BUSCHER, C. et al. (1976), Detection of carriers of hemophilia by hemorrhagometry Thromb. Diath. Haemorrh., 34, 2, 611
40. JONES, P. et al. (1978), British Medical Journal, 1, 1447-1450
41. JONES, P. Proceedings of 3rd European Congress of the World Federation of Haemophilia, London, 1976. In press.
42. JONES, P. (1974), Lancet, 2, 155
43. JONES, P. Living with haemophilia, Lancaster, M.T.P., 1974
44. KASPER, C.K. et al. (1976), A more uniform measurement

of factor VIII inhibitors

Thromb. Diath. Haemorrh., 34, 2, 612

45. KAUFERT, J.M. (1978), Social attitudinal factors in home treatment of haemophilia (unpublished)
46. KERR, C.B. The management of haemophilia, Sydney, 1963
47. KISKER, C.T. (1976), Modern concepts of hemophilia
South. Med. J. , 69, 2, 230-2
48. KOEPPEN, K.M. (1976), Soziales Verhalten und Belastbarkeit Hämophiler
Med. Welt. , 27, 43, 2033-6
49. KOHN, R., WHITE, K.L. (eds.) Health Care - An International Study, London, Oxford University Press, 1976
50. LE QUESNE, B. et al. (1974), Lancet, 2, 507
51. LEVINE, P.H. et al. (1976), Comprehensive health care clinic for hemophiliacs.
Arch. Intern. Med. , 136, 7, 792-4
52. LEVINE, P.H. (1976), Cost-effectiveness of replacement therapy in animal models of hemorrhagic disorders : Lessons with experience with *H. sapiens*, pp.114-7 in: Animal models of thrombosis and hemorrhagic diseases
N.I.H., Bethesda, 1976

53. LEWIS, J.H. et al. (1976), Death in hemophilia
JAMA, 236, 11, 1238-9
54. LOGAN, R. et al. Dynamics Of Medical Care, London,
L.S.H. & T.M. Memoir 14, 1972
55. MANCINI, A.F. et al. (1976), Determinazione dell'inibi-
tore del fattore VIII negli emofilici
Minerva Pediatr. 28, 36, 2181-5
56. MANDALAKI, T. (1977), Management of hemophilia in
Greece Thromb. Haemostas 35, 3, 544-52
57. MANNUCI, P.M. et al. (1977), hemophilia care in Italy
Thromb. Haemostas, 35, 3, 531-6
58. MARTIN-VILLAR, J. et al. (1977), Management of hemophi-
lia in Spain
Thromb. Haemostas, 35, 3, 537-43
59. MELI, E. (1976), the care of the hemophilic. Our
contribution Schweiz Med. Wochenschr. 105, 37, 1184-7
60. MEYER, D. et al. (1976) Problems in detection of ca-
rriers of hemophilia.
J.Clin. Pathol., 28, 9, 690-5
61. MORENO TORRE, J.J.; CRUZ ROCHE, R. (1975) algunos as-
pectos de la caracteriologia del hemofílico.
Med. Clin., 65, 6, 287

62. MOSER, KALTON, G. Survey methods in Social Investigation, London, Heinemann, 1971
63. NELSON, M.G. et al. (1969), Haemophilia in Northern Ireland, Ulster Med. J., 28, 11
64. NILSON, I.M., et al. (1976), Hemophilia prophylaxis in Sweden Acta Paediatr. Scand., 65, 2, 129-35
65. NILSSON, I.M. (1977), Management of hemophilia in Sweden. Thromb. Haemostas., 35, 3, 510-21
66. D.P.C.S. Classification of Occupations, London, HMSO, 1970
67. OPPENHEIM, A.N. Questionnaire design and attitude measurement, London, Heinemann, 1976
68. ORTEGA, F.; MARTIN VILLAR, J. et al. (1978), Epidemiología, y métodos de detección de inhibidores en hemofilia. Sangre, 23, 5, 688-698
69. OTTOLANDER, G.J.H. den (1955), The incidence of haemophilia A and B in the Netherlands. Vox Sang., 5 121
70. PAMLOVSKY, A. et al. (1958), Emofilia, Considerazioni sulla sua evoluzione, Proc. VII Congr. Intern. Soc. Haemat., Rome, pp. 181-189

71. PEARSON, H.A. (1975), Treatment of hemophilic children who have factor VIII inhibitors
J. Pediatr., 88, 2, 367-8
72. PITNEY, W.R. (1957), Mild haemophilia - A clinical and laboratory study, Aust. Ann. Med., 6, 44
73. PRENTICE, C.R. et al. (1976), Calculation of predictive odds for possible carriers of hemophilia.
Thromb. Diath. haemorrh., 34, 3, 740-7
74. RABINER, S.F., TELFER, M.E. (1970), New England Journal of Medicine, 283, 1011
75. RAMGREN, O. (1962), Haemophilia in Sweden, Medico-social aspects.
Acta Medica Scandinavica, Suppl. 379
76. RAMGREN, O. et al. (1962), Haemophilia in Sweden, Hereditary investigations, Acta Medica Scandinavica, Vol. 171
77. RAMSAY, D.M. et al (1976), A five-year study of a hemophilia reference centre J. Clin. Pathol., 29, 9, 696-700
78. RATNOFF, O.D., et al. (1976), Detection of hemophilia carriers Br. J. Haematol., 31, 3, 411

79. RICKARD, K.A. (1977) Hemophilia in Australia
Thromb. Haemostas., 35, 3, 566-9
80. RIZZA, C.R. (1977), Nursing Times, 22.9.77
81. RIZZA, C.R., SPOONER, R.J.D. (1977), British Journal of Haematology, 37, 53-66
82. RIZZA, C.R. (1976), The management of haemophilia in the United Kingdom, Thromb. and Hemost., 35, 559
83. RIZZA, C.R. et al. (1976), Detection of carriers of hemophilia : a "blind" study.
Br. J. haematol. 30, 4, 447-56
84. SOULIER, J.P. (1955), Transmission de l'hémophilie, Remarques tirées de l'étude de 151 cas. V. Kong r. Europ. Gesellsch. f. Hämat., Freiburg 382-396
85. SPIRO, R. et al. (1976), Survey of amniocentesis for fetal sex determination in hemophilia carriers.
Clin. Genet., 10, 6, 337-42
86. STEINHAUSEN, H.C. (1976), A psycho-clinical investigation in adult hemophilics.
J. Psychosom. Res., 19, 4, 295-302
87. TITMUS, R. The Gift Relationship, London, 1970

88. TUSELL, J. et al. (1978), Incidencia de l'hemofilia
en edat pediàtrica a Catalunya.

Butlletí Soc. Cat. Pedr., 38, 55-59

A P E N D I C E I

CONFIDENTIAL

Evaluation of clinical and social
outcome of haemophiliacs.

OXFORD HAEMOPHILIA CENTRE

Card 2

Study Number

(1)	(2)
<input type="text"/>	<input type="text"/>

Date of Interview

<input type="text"/>	<input type="text"/>	<input type="text"/>	<input type="text"/>	<input type="text"/>	<input type="text"/>
(3)	(4)	(5)	(6)	(7)	(8)

GENERAL BACKGROUND

PERSONAL IDENTIFICATION

(Surname)

(Forename)

Address -----

DATE OF BIRTH

<input type="text"/>	<input type="text"/>	<input type="text"/>	<input type="text"/>	<input type="text"/>	<input type="text"/>
(9)	(10)	(11)	(12)	(13)	(14)

MARITAL STATUS

- | | | |
|--------------|-------------|------------|
| 1) Single | 2) Married | 3) Widower |
| 4) Separated | 5) Divorced | 6) Other |

<input type="text"/>
(15)

CHILDREN

Number of sons

<input type="text"/>	(16)
<input type="text"/>	(17)

Number of daughters

SIBLINGS

Number of brothers

<input type="text"/>	(18)
<input type="text"/>	(19)

Number of sisters

DISABILITY

SPECIAL AIDS TO MOBILITY

Do you possess any of the following items?

- | | | |
|-----------------------------|-------|--------|
| Invalid Trycicle | 1) No | 2) Yes |
| DHSS Mini | 1) No | 2) Yes |
| Adapted controls to own car | 1) No | 2) Yes |
| Wheelchair | 1) No | 2) Yes |
| Walking frame | 1) No | 2) Yes |
| Crutches | 1) No | 2) Yes |
| Walking stick | 1) No | 2) Yes |
| Calipers/Splints | 1) No | 2) Yes |

	(20)
	(21)
	(22)
	(23)
	(24)
	(25)
	(26)
	(27)

SUBSEQUENT DISABILITY

- | | | |
|--|-------|--------|
| Have you ever been jaundiced? | 1) No | 2) Yes |
| Have you ever been diagnosed as having : | | |
| a) Cirrhosis ? | | |
| b) Hypertension? | 1) No | 2) Yes |
| c) Renal Disease? | | |

	(28)
--	------

	(29)
--	------

	(30)
--	------

If yes, please specify which -----

SUBJECTIVE DISABILITY

- | | | |
|---|-------|--------|
| Do you consider yourself to be disabled? | 1) No | 2) Yes |
| Do you suffer from pain that necessitates your taking pain-killers? | 1) No | 2) Yes |
| If yes, please specify which ----- | | |

	(31)
--	------

	(32)
--	------

		(33) (34)
--	--	-----------

	(35)
--	------

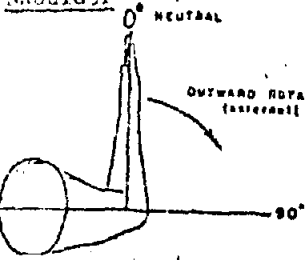
	(36)
--	------

- | | |
|--------------------|------------------------|
| How often a) ----- | 1) Every day? |
| b) ----- | 2) Once or twice/week? |

Shoulder

NEUTRAL

OUTWARD ROTATION (EXTERNAL)



1) External rotation. Measure from neutral position. Normal range - 70°. (p.38) Fig.i.

Right		Left	
From	To	From	To

(37)(38) (39)(40)

Figure 1

ii) Glenohumeral abduction. Fix the scapula with one hand and elevate the arm passively with the other hand. Measure from vertical. Normal range - 80°. (p.40) Fig.ii.

Right		Left	
From	To	From	To

(41)(42) (43)(44)

LIMITED MOTION

Flexion and extension. Measure limits of range where full extension = 0°. Normal range - 150° (p.10) Fig.iii.



Right		Left	
From	To	From	To

(45)(46)(47) (48)(49)(50)

Abduction. Fix the pelvis by abducting contralateral leg. The pelvis begins to move, then retain the leg in that position to anchor pelvis; then measure abduction on the ipsilateral side. Take neutral position = 0°. Normal range - 60°. (p.62) Fig.iv.

Right		Left	
From	To	From	To

(51)(52) (53)(54)

ii) Flexion. Normal range - 120°. (p.56) Fig.v. Degree of fixed flexion (if present) will be recorded separately.

Right		Left	
From	To	From	To
Fxd flexion		Fxd flexion	

(55)(56)(57) (58)(59)(60)

(61)(62)(63) (64)(65)(66)

ANKLE

Flexion and extension. Measure limits of range where full extension = 0°. Normal range - 135°. (p.66) Fig.vi. Method: align the goniometer to the greater trochanter, the midpoint of the lateral malleolus of the ankle. Degree of fixed flexion (if present) will be recorded

(67)(68)(69) (70)(71)(72)
(73)(74)(75) (76)(77)(78)

Left	From	To	Ext flexion

Right	From	To	Ext flexion

Figure vi



C-SOCIAL INTEGRATION

Patient number

(1)	(2)

I-EDUCATION

Did you attend primary school?

1) No

2) Yes

	(3)
--	-----

If yes, was it

1) Private

	(4)
--	-----

2) State

Did you attend secondary school?

1) No

2) Yes

	(5)
--	-----

If yes, what sort of school was it? _____

	(6)
--	-----

Did you attend a school for physically handicapped? 1) No 2) Yes

	(7)
--	-----

If yes, was it

1) Day school

	(8)
--	-----

2) Boarding school

Did you have home tuition?

1) No

2) Yes

	(9)
--	-----

If yes, was it for

1) Short periods

	(10)
--	------

2) Long periods

Further Education

1) Apprenticeship, Professional training

	(11)
--	------

2) Technical College or equivalent

3) University

4) Not applicable

Which of the following qualifications have you attained during the course of your education?

1) No qualifications at present time

2) C.S.E.

	(12)
--	------

3) C.C.E. "O" levels

4) C.C.E. "A" levels

5) Technical or professional qualifications

(Please specify) _____

6) University degree

I.5.

Estimate the approximate proportion of time which was lost due to bleeding episodes during each phase of your education

Primary1) $\frac{1}{4}$ or less 2) $\frac{1}{2}$ 3) More than $\frac{1}{2}$ 4) N.A.

(13)

Secondary1) $\frac{1}{4}$ or less 2) $\frac{1}{2}$ 3) More than $\frac{1}{2}$ 4) N.A.

(14)

Further Education .1) $\frac{1}{4}$ or less 2) $\frac{1}{2}$ 3) More than $\frac{1}{2}$ 4) N.A.

(15)

-EMPLOYMENT

Are you currently 1) at School?

2) Training College/University?

3) Employed?

4) Self-employed?

(16)

5) Unemployed?

6) Retired?

Brief description of job -----

(17)

Does your haemophilia impose any problems in carrying out your job?

1) No

2) Yes

(18)

(19)

If yes, how? -----

(20)

How many hours per week do you regularly work? -----

(21) (2)

With reference to your current job, please estimate the approximate average number of hours lost per week due to your haemophilia -----

(22) (2)

How many jobs (including current one) have you had in the past five years? -----

(23) (2)

If more than the current one, please give a brief description of the other (s) -----

Was your haemophilia a contributory factor for taking or leaving any of these jobs ?

1)No 2)Yes

(31)

Does your employer know of your haemophilia? 1)No 2)Yes 3)NA

(32)

Please give total time(in months)that you were not employed during the past three years -----

(33)(34)

If you are currently unemployed, do you consider that your haemophilia is the most important factor for it? 1)No 2)Yes

(35)

If you are at present receiving any Social Security Benefit, please specify the type of benefit received

1)Unemployment benefit 1)No 2)Yes

(36)

2)Supplementary benefit 1)No 2)Yes

(37)

3)Earnings related supplement 1)No 2)Yes

(38)

4)Sickness benefit 1)No 2)Yes

(39)

5)Other (Please specify) -----

(40)

(41)

LEISURE ACTIVITIES

Have you practised any sport in the last three years?

1)No 2)Yes

(42)

If yes, please specify which sport -----

(43)(44)

If not, was your haemophilia a contributory factor for it ?

1)No 2)Yes

(45)

In, which activities are you usually involved during your leisure time?-----

(46) (47) (48) (49)

Have you travelled distances over one hundred miles at least once in the past three years?

- 1) No
- 2) Yes

 (50)

If not, was it due to your haemophilia ?

- 1) No
- 2) Yes

 (51)

FAMILY LIFE

What is your father's occupation? -----

 (52)

What is your mother's occupation? -----

 (53)

If you are divorced or separated do you consider that haemophilia was the most important factor for it?

- 1) No
- 2) Yes

 (54)

How many jobs (including current job) have you had in the past?

 (55)

If more than one, was your child's haemophilia a contributory factor for taking or leaving any of these jobs?

- 1) No
- 2) Yes

 (56)

Have you changed your address during the last ten years?

- 1) No
- 2) Yes

 (57)

If yes, was haemophilia the most important factor for it?

- 1) No
- 2) Yes

 (58)

If yes, why? -----

 (59)

Please estimate the number of working hours lost per month due to your child's haemophilia

 (60) (61)

Has any member of your family ever been seen by a psychiatrist?

- 1) No
- 2) Yes

 (62)

If yes, please specify who and why -----

 (63) (64)

(65) (66) (67) (68)

TRANSPORT 1)Ambulance 2)Hospital car 3)Own car

(69)

PATIENT'S SATISFACTION

How would you rate the treatment given to you at the O.H.C.?

1)Very good 2)Good 3)Poor 4)Bad 5)Very bad

(70)

How would you rate the treatment given to you for your haemophilia in other Centres?

1)Very good 2)Good 3)Poor 4)Bad 5)Very bad
6)Never treated elsewhere

(71)

In your opinion what is lacking at the Oxford Haemophilia Centre?

(72)

Do you consider that the O.H.C. provides you with adequate counselling as regards:

- Employment 1)No 2)Yes 3)Not applicable
- Education 1)No 2)Yes 3)Not applicable
- Psychological P. 1)No 2)Yes 3)Not applicable
- Genetics 1)No 2)Yes 3)Not applicable

(73)

(74)

(75)

(76)

Have you changed your General Practitioner in the last five years?

1)No 2)Yes

(77)

If yes, was it because: 1)You moved

2)You were dissatisfied.

3)He refused to prescribe you strong pain-killers

(78)

4)Other -----

In your opinion, the General Practitioner's attitude towards prescribing strong pain-killers should be:

1)More open

2)More strict

3)Assess each individual case

(79)

Evaluacion de los resultados
clinicos y sociales obtenidos
en el tratamiento de los hemofilicos
VALENCIA

(1) (2)

Caso numero

Fecha de la entrevista

(3) (4) (5) (6) (7)

ANTECEDENTES GENERALES

IDENTIFICACION PERSONAL

(Apellidos)

(Nombre)

Dirección

FECHA DE NACIMIENTO

(9) (10) (11) (12) (13)

ESTADO CIVIL

- 1) Soltero 2) Casado 3) Viudo
- 4) Separado 5) Divorciado 6) Otro

(15)

HIJOS

Numero de hijos

Numero de hijas

HERMANOS

Numero de hermanos

Numero de hermanas

INCAPACIDAD

ARTÍCULOS DESTINADOS A FAVORECER LA MOBILIDAD

¿Posee usted alguno de estos elementos?

- | | | |
|--------------------------------|------|------|
| Triciclo de invalido | 1)No | 2)SI |
| Controles adaptados a su coche | 1)No | 2)SI |
| Silla de ruedas | 1)No | 2)SI |
| Mulctas | 1)No | 2)SI |
| Bastón | 1)No | 2)SI |
| Fórmula | 1)No | 2)SI |

Si usted posee uno ó varios de estos elementos, especifique por favor la forma en que fueron financiados. _____

- (20)
- (21)
- (22)
- (23)
- (24)
- (25)
- (26)
- (27)

INCAPACIDAD SECUNDARIA

- | | | |
|---|------|------|
| ¿Ha contraído usted alguna vez una hepatitis? | 1)No | 2)SI |
| ¿Ha sido usted diagnosticado de | | |
| a) Cirrosis | 1)No | 2)SI |
| b) Hipertension | 1)No | 2)SI |
| c) E. Renal | 1)No | 2)SI |

Si es que sí, especifique cual _____

- (28)
- (29)
- (30)

INCAPACIDAD SUEJETIVA

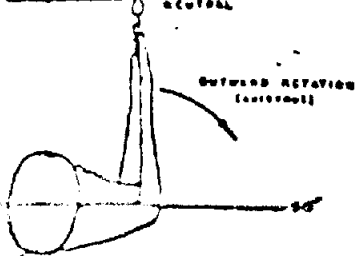
- | | | |
|---|------|------|
| ¿Se considera usted minusválido? | 1)No | 2)SI |
| ¿Sufre usted dolores que requieren tomar calmantes? | 1)No | 2)SI |

Si es que si, por favor especifique cuales _____

- (31)
- (32)
- (33)

- Con qué frecuencia? a) _____ 1) Cada día
- b) _____ 2) Una; Dos / Semana
- 3) Una al mes
- 4) Menor frecuencia

- (35)
- (36)

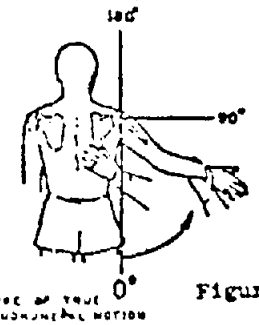


1) External rotation. Measure from neutral position. Normal range - 70° (p.38) Fig.1.

Right		Left	
From	To	From	To

(37)(38) (39)(40)

ROTATION WITH ARM AT SIDE Figure 1

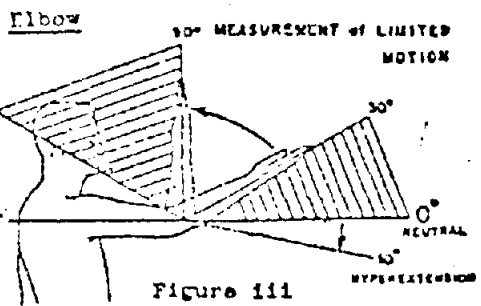


11) Glenohumeral abduction. Fix the scapula with one hand and elevate the arm passively with the other hand. Measure from vertical. Normal range - 80° (p.40) Fig.11.

Right		Left	
From	To	From	To

(41)(42) (43)(44)

Figure 11



Flexion and extension. Measure limits of range where full extension = 0°. Normal range - 150° (p.10) Fig.111.

Right		Left	
From	To	From	To

(45)(46)(47) (48)(49)(50)

Figure 111

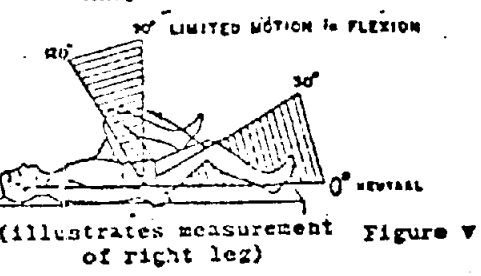


1) Abduction. Fix the pelvis by abducting contralateral leg until the pelvis begins to move, then retain the leg in that position to anchor pelvis; then measure abduction on the tested side. Take neutral position = 0°. Normal range = 60°. (Method modified from p.62) Fig.1v.

Right		Left	
From	To	From	To

(51)(52) (53)(54)

Figure 1v

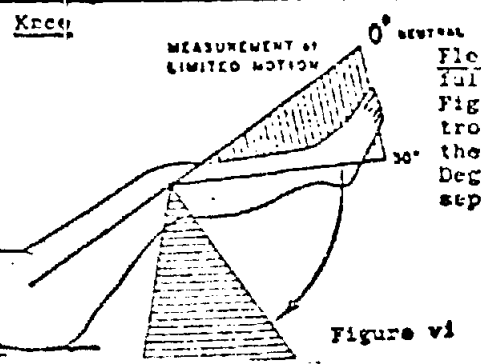


11) Flexion. Normal range = 120°. (p.56) Fig.v. Degree of fixed flexion (if present) will be recorded separately.

Right		Left	
From	To	From	To
Fxd flexion		Fxd flexion	

(55)(56)(57) (58)(59)(60)
(61)(62)(63) (64)(65)(66)

Figure v



Flexion and extension. Measure limits of range where full extension = 0°. Normal range = 135°. (p.66) Fig.vi. Method: align the goniometer to the greater trochanter, the midpoint of the lateral malleolus of the ankle. Degree of fixed flexion (if present) will be recorded separately.

Right		Left	
From	To	From	To
Fxd flexion		Fxd flexion	

(67)(68)(69) (70)(71)(72)

Figure vi

INTEGRACION SOCIAL

Patient number

(1) (2)

RESOLARIZACION

¿Curso usted el Bachiller Elemental? 1)No 2)SI 3)N.A.

(3)

Si es que sí, fue en 1)Colegio Religioso

(4)

2)Instituto

3)Academia particular

¿Curso usted el Bachiller Superior? 1)No 2)SI 3)N.A.

(5)

Si es que sí, en qué tipo de institución lo hizo _____

(6)

¿Asistió usted a alguna escuela especial para minusvalidos?

(7)

1)No 2)SI

Si es que sí, qué tipo de escuela era. _____

(8)

¿Recibió usted en su casa clases particulares? 1)No 2)SI

(9)

Si es que sí, fue por 1)Periodos cortos de tiempo

(10)

2)Periodos largos de tiempo

Formación posterior 1)Aprendizaje

(11)

2)Escuelas de formación profesional

3)Universidad

4)Escuelas técnicas (Comercio, etc...)

5)N.A.

¿Cual de los siguientes titulos ha obtenido usted en el curso de su educación?

1)Ninguno por el momento

2)Bachiller elemental/Graduado escolar

3)Bachiller superior/B.U.P.

(12)

4)Examen de estado/preuniversitario/CCU

5)Titulo de escuela tecnica ó de escuela

de formación profesional _____

...de forma aproximada, la proporción de tiempo que
 por causa de su hemofilia usted perdió en cada fase de su
 educación.

- | | | | | |
|---------------------------|----------------|------------|--------|-------------------------------|
| Bachiller elemental | 1) 1/4 ó menos | 2) 1/4-1/2 | 3) 1/2 | <input type="checkbox"/> (13) |
| | 6 más | 4) N.A. | | |
| Bachiller superior | 1) 1/4 ó menos | 2) 1/4-1/2 | 3) 1/2 | <input type="checkbox"/> (14) |
| | 6 más | 4) N.A. | | |
| Formación posterior | 1) 1/4 ó menos | 2) 1/4-1/2 | 3) 1/2 | <input type="checkbox"/> (15) |
| | 6 más | 4) N.A. | | |

EMPLEO

En la actualidad se encuentra usted en:

- 1) Escuela ó Colegio
- 2) Escuela técnica/Universidad
- 3) Empleado
- 4) Trabajador autónomo
- 5) En paro
- 6) Jubilado

(16)

Breve descripción de su trabajo _____

(17)
 (18)

Supone su enfermedad un obstáculo para llevar a cabo su

trabajo? 1) No 2) Si

(19)

Si es que sí, por qué motivos _____

(20)

Cuántas horas trabaja usted por semana? _____

(21)

Con respecto a su trabajo actual, calcule aproximadamente el
 número de horas semanales que usted pierde en su trabajo por
 causa de su enfermedad. _____

(22)

Cuántos empleos (incluyendo el actual) ha tenido usted en
 los últimos cinco años? _____

(23)

Si ha tenido más de uno, describa brevemente los otros. _____

(24)

¿Contribuyó su enfermedad a que usted aceptara ó dejara alguno de estos trabajos? 1)No 2)Si

(3)

¿La persona ó entidad que le emplea sabe que es usted homofílico? 1)No 2)Si

(

¿Cuántos meses ha estado usted en paro durante los últimos tres años? _____

(33) (3

¿Si en la actualidad se encuentra en paro, considera usted que es fundamentalmente debido a su enfermedad?

1)No 2)Si

(35)

¿Recibe usted algún tipo de ayuda económica por parte de la Seguridad Social? 1)NO 2)SI

(36)

Si es que sí, especifique:

1)Incapacidad Laboral Transitoria 1)No 2)Si

(3

2)Invalidez Provisional 1)No 2)Si

(3

3)Incapacidad Parcial 1)No 2)Si

(3

4)Incapacidad Permanente 1)No 2)Si

(4

5)Incapacidad Absoluta 1)NO 2)Si

(4

6)Ayuda del SEREMI 1)No 2)Si

(

7)Otro tipo de ayuda (Especifique) _____

II-ACTIVIDADES RECREATIVAS

¿Ha practicado usted algún deporte en los tres últimos años? 1)No 2)Si

(

Si es que sí, por favor especifique qué deporte _____

(45) (

Si es que no, es su enfermedad la causa más importante para que no los haya practicado? 1)No 2)Si

¿A qué actividades se dedica usted durante su tiempo libre? _____

(47)

(48) (49) (50) (

de trescientos kilómetros?

1) No 2) Si

(52)

Si es que no, fue por causa de su enfermedad?

1) No 2) Si

(53)

PERCUSIONES FAMILIARES DE LA ENFERMEDAD

Profesión del padre _____

(54)
 (55)

Profesión de la madre _____

Si están ustedes separados (los padres del niño hemofílico) consideran que la enfermedad de su hijo fue lo que más contribuyó a su separación?

1) No 2) Si

(56)

Cuantos trabajos (incluyendo el actual) han tenido el padre ó la madre desde que nació el niño? _____

(57)

Si han tenido más de uno, fue la enfermedad de su hijo un factor importante para aceptar ó dejar alguno de estos trabajos?

1) No 2) Si

(58)

Han cambiado ustedes de domicilio en los últimos diez años?

1) No 2) Si

(59)

Si es que sí, lo hicieron por la enfermedad de su hijo?

1) No 2) Si

(60)

Si es que sí, porqué? _____

Calcule el número de horas de trabajo que usted pierde mensualmente por causa de la enfermedad de su hijo _____

(61)

Algún miembro de su familia ha sido visto alguna vez por un psiquiatra?

1) No 2) Si

(62)

Si es que sí, por favor especifique quién y por qué _____

(63)

Qué ocupación tienen los hermanos y/o hermanas del paciente?

¿Qué medios de transporte utiliza usted para trasladarse a este hospital?

- 1) Coche propio
- 2) Taxi
- 3) Autobús
- 4) Tren
- 5) Ambulancia

 (70)

SATISFACCION DEL PACIENTE
 =====

¿Como calificaría usted, tanto desde el punto de vista medico como de atención, el tratamiento recibido por su enfermedad?

- 1) Muy bueno
- 2) Bueno
- 3) Regular
- 4) Malo
- 5) Muy malo

 (71)

¿Como calificaría usted el tratamiento recibido por su enfermedad en otros hospitales?

- 1) Muy bueno
- 2) Bueno
- 3) Regular
- 4) Malo
- 5) Muy malo

 (72)

6) Nunca fue tratado en otros hospitales

¿Tiene usted alguna queja del servicio que se le presta? _____

 (73)

¿Ha buscado usted alguna vez consejo en el departamento de

Hematología con respecto a:

- Empleo 1) No 2) Si
- Enseñanza 1) No 2) Si
- P. Psicolog. 1) No 2) Si
- Genetica 1) No 2) Si

 (74)
 (75)
 (76)
 (77)

APENDICE II

Si bien los enfermos estaban satisfechos con la forma en que eran tratados, algunos hicieron sugerencias para mejorar el servicio .

Estas fueron las siguientes :

1. Falta de transporte público para llegar al Centro con facilidad.
2. Debería existir posibilidad de hospitalización en el propio Centro.
3. Deberían evitarse las largas esperas, probablemente dotando los Centros con más personal.
- 4 Los aspectos psicológicos de la enfermedad exigirían ser tenidos en cuenta en forma más relevante.
5. Debería existir aparcamiento y cafetería en el propio Centro.
6. La relación del Centro con los servicios de rehabilitación deberían ser más estrechas.
7. Existe cierta falta de conocimiento para el tema específico - la hemofilia - en los enfermos de los servicios de hospitalización.
8. Faltaría información y consejos sobre el uso de los medicamentos y de como resolver ciertos problemas en el domicilio.

OXFORD HAEMOPHILIA CENTRE

Tel: Oxford (0365) 64841
Ext.

Churchill Hosp
Headin
Oxford OX3

Dear

DR FRANCISCO BOLUMAR is a Spanish medical doctor visiting this Centre who is carrying out research into haemophilia. He is doing a study to compare the health services provided for haemophiliacs in Oxford and Valencia (Spain).

By studying the services available in Oxford it is hoped that his research will lead to an improvement in those provided in Spain.

I wonder if you would be willing to co-operate with Dr Bolumar by answering a few questions about haemophilia and how it affects your life? Perhaps this could be done when you next attend the Centre?

If you have any questions about this project please do not hesitate to telephone me.

Yours sincerely

C R RIZZA

