

Adaptación cultural del cuestionario PedHAL (pediatric haemophilia activities list), Cali, Colombia

Cultural adaptation of the PedHAL (pediatric hemophilia activity list), Cali, Colombia

*Adriana Orejuela-Upegui, **Andrés Fandiño-Losada

*Institución Universitaria Escuela Nacional del Deporte(Colombia), **Universidad del Valle (Colombia)

Resumen. Objetivo: Adaptar culturalmente el cuestionario PedHAL, al idioma español-colombiano. Métodos: Se realizaron 5 fases para este proceso; traducción, síntesis, retrotraducción, revisión por expertos y pretest. Participaron 31 menores con diagnóstico de hemofilia A severa, además de un grupo de 2 traductores y de 11 expertos. Resultados: Se encontraron diferencias semánticas en la retrotraducción que no afectan el constructo del instrumento, la estructura semántica fue orientada al contexto colombiano, se encuentran 13 ítems problemáticos. De las personas que participaron del estudio, se encontró que la media de edad de los niños fue de 12,03 años. Conclusión: Se propone versión en español de PedHAL, con 13 ítems problemáticos asociados a desempeño y contexto, que deberán considerarse en siguientes fases de validación de este instrumento.

Palabras clave: Hemofilia, PedHAL, Funcionalidad, Instrumentos, Adaptación Cultural.

Abstract. Objective: To culturally adapt the PedHAL questionnaire to the Spanish-Colombian language. Methods: Five phases were carried out for this process: translation, synthesis, back-translation, review by experts and pretest. 31 children with a diagnosis of severe hemophilia A participated in this study, in addition to a group of 2 translators and 11 experts. Results: Semantic differences were found in the back-translation that did not affect the construct of the instrument, the semantic structure was oriented to the Colombian context, 13 problematic items were found. Of the people who participated in the study, the mean age of the children was 12.03 years. Conclusion: A Spanish version of PedHAL is proposed, with 13 problematic items associated with performance and context, which should be considered in subsequent phases of validation of this instrument.

Key words: Hemophilia, PedHAL, Functionality, Instruments, Cross-cultural adaptation.

Introducción

La hemofilia es una enfermedad hemorrágica, hereditaria, recesiva y ligada al sexo, está producida por la deficiencia del factor VIII de la coagulación para hemofilia A o del factor IX para hemofilia B (Mazepa et al., 2016; Peyvandi et al., 2016; Srivastava et al., 2020; Stonebraker et al., 2020). Las manifestaciones clínicas más frecuentes son las hemorragias, siendo las cerebrales las de mayor riesgo y las musculoesqueléticas las que producen mayores secuelas al comprometer la funcionalidad y calidad de vida de quien la padece (Barg et al., 2010; Berntorp, 2009; Chu et al., 2018; Fischer et al., 2005).

La Federación Mundial de Hemofilia propone un compendio de herramientas de uso libre, para evaluar la condición física y funcional de los pacientes con alteración de la coagulación (Rodríguez-Merchan, 2003; van den Berg et al., 2015). Las herramientas están relacionadas con salud articular, percepción de funcionalidad y desempeño funcional. Estas escalas están en su mayoría diseñadas bajo el modelo de la Clasificación Internacional del Funcionamiento, la Discapacidad y la Salud, de la Organización Mundial de la Salud (CIF) (Echeverría et al., 2021).

Dentro de estas escalas se encuentran: Hemophilia Joint Health Score (HJHS)(Hilliard et al., 2006; St-Louis et al., 2022), Gilbert Score(Fischer & de Kleijn, 2013), Haemophilia Activities List (HAL) (van Genderen et al., 2004; Van Genderen et al., 2006), Pediatric Haemophilia Activities List (PedHAL)(Groen et al., 2010), Functional Independence Score in Hemophilia (FISH)(Poonnoose et al., 2005; Timmer et al., 2018). Estas herramientas presentan datos de confiabilidad y validez para población de países en los cuales la oferta de tratamiento y las condiciones económicas para la adquisición de tratamiento de última generación es distinta, no se conocen datos de validez para países latinoamericanos (Gouw et al., 2019).

El PedHAL fue creado en Holanda en idioma original inglés, consta de 53 ítems agrupados en 7 dominios, que evalúan la percepción de la funcionalidad de los pacientes con hemofilia entre los 8 y 17 años.

El objetivo de este estudio es adaptar culturalmente el cuestionario PedHAL, para su uso en población colombiana teniendo en cuenta que la adaptación cultural es necesaria no sólo cuando se utilice el cuestionario en un idioma distinto, sino también en los casos de diversidad cultural de una misma lengua (Beaton et al., 2000). Con este estudio se aporta información que pueda utilizarse en futuros estudios de validación de este instrumento, para mejorar la evaluación funcional de personas con esta condición.

Fecha recepción: 17-04-22, Fecha de aceptación: 29-07-22

Adriana Orejuela-Upegui
adrianaorejuela@gmail.com

Material y método

Para el proceso de adaptación cultural se siguieron los pasos metodológicos de las recomendaciones internacionales para traducción directa, síntesis de traducciones, traducción inversa, consolidación de comité de expertos y pre-test, siguiendo un tipo de estudio observacional descriptivo de corte transversal.

Se realizó adaptación cultural del cuestionario PedHAL entre el 2018 y 2019, en una muestra no probabilística por conveniencia. Participaron en este estudio 31 pacientes que cumplían los criterios de inclusión: menor de edad inscrito en un centro de atención especializada, garantizando que estaban en tratamiento, tener diagnóstico de hemofilia A severa. Se excluyeron pacientes con otra alteración de la coagulación. Participaron además 2 traductores y un grupo de 11 expertos.

La estrategia de inclusión de una población de expertos pretendió evaluar el instrumento en cuanto a calidad, estructura semántica y aplicabilidad en la población colombiana para reafirmar su comprensión y utilidad en la población de niños con hemofilia.

Se establecieron las siguientes fases acorde a lo propuesto en otros estudios de adaptación cultural (Beaton et al., 2000; Ferrer-Peña et al., 2016; Weinert et al., 2008).

Fase I: Traducción por comité de idiomas. Se realizaron dos traducciones por el comité de idiomas de la Institución Universitaria Escuela Nacional del Deporte. Se realizó un trabajo independiente de traducción de forma literal, evitando errores de distorsión de las preguntas.

Fase II: Síntesis de las traducciones. Los investigadores realizaron revisión de las dos versiones diseñando un cuestionario final.

Fase III: Retrotraducción. La versión en español de la fase anterior se sometió a traducción, para identificar cambios en la estructura del instrumento. Esta actividad estuvo a cargo del comité de la unidad de idiomas.

Fase IV: Revisión por comité de expertos. Se conformó un comité de revisión con 11 expertos, compuesto por: fisioterapeuta con experiencia en atención de pacientes con hemofilia, fisioterapeuta especialista en neuro-rehabilitación, fisioterapeuta magíster en discapacidad, hematooncólogo, médico general con experiencia en atención a pacientes con hemofilia, médico magíster en gerencia en salud y director del programa de hemofilia, auxiliar de enfermería con experiencia en atención en pacientes con hemofilia, licenciado en español, licenciado en preescolar, terapeuta ocupacional, cuidador de menor con diagnóstico de hemofilia.

La función de estos expertos era calificar los 53 ítems del instrumento en términos de relevancia, claridad y relación con el contexto utilizando una escala Likert de 1 a 5, donde 1 era la peor calificación y 5 la mejor calificación posible, se consideró ítem problemático al calificado con alto conteo de no aplica.

Fase V: Pretest: Aplicación del cuestionario, se aplicó el cuestionario a los 31 menores, en esta fase se analizaron las observaciones y respuestas de cada participante, sinónimos y tiempo promedio que tardaron los participantes en contestar el instrumento.

Se aplicó el cuestionario PedHAL de 53 ítems y 7 dominios, a todos los participantes. Tal y como indica la versión original, se le preguntó a cada menor el grado de dificultad percibida en el último mes para realizar la actividad indicada en cada ítem, teniendo 7 opciones de respuesta en una escala Likert de 0 a 6, donde 0 corresponde a la opción «no aplica» para aquellas situaciones en que el participante no realiza la actividad, y las opciones de 1 a 6 van de imposible de realizar a ninguna dificultad.

La calificación total siguió los parámetros del PedHAL original, que sugiere realizar una conversión para calificación total de 0 a 100, donde 0 es la peor percepción de funcionalidad y 100 es la mejor percepción de funcionalidad.

En la figura 1 se presenta de forma gráfica la estructura de las fases de adaptación cultural del cuestionario PedHAL.

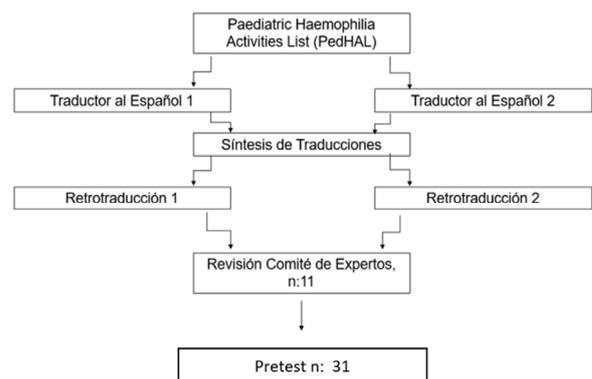


Figura 1: Fases Adaptación Cultural del cuestionario PedHAL

Consideraciones Éticas

Este trabajo contó con aval del comité de Ética de la Institución Universitaria Escuela Nacional del Deporte, Acta #4,1.01.03.03.19, todos los participantes menores diligenciaron asentimiento informado y el adulto a cargo diligenció consentimiento informado.

Resultados

Se detallan a continuación los resultados teniendo en cuenta las 5 fases propuestas en este estudio de adaptación cultural.

Resultados relacionados con las fases 1 y 2 correspondientes a la traducción y síntesis: El cuestionario de percepción de funcionalidad PedHAL, dirigido a menores entre 8 y 17 años consta de 53 preguntas agrupadas en siete dominios, siendo éstos mencionados en el siguiente orden: sentarse/arrodillarse/estar de pie, función de las piernas, función de los brazos, uso del transporte, autocuidado, tareas domésticas, actividades de tiempo libre y deportes. En la traducción no se alteró el significado ni aplicación en el contexto del cuestionario. Como observación recurrente se encontró críticas a la extensión del instrumento.

Resultados relacionados con la fase 3, retrotraducción: Se realizó análisis de calidad del documento retrotraducido, como muestra la tabla 1. Se analizó la calidad en documento retro- traducido comparando las dos versiones. Se encontró variaciones en la longitud de los enunciados, pistas gramaticales y diferencias culturales en relación a la denominación del transporte público. El constructo del instrumento no fue alterado en la versión retrotraducida.

Resultados relacionados con la revisión de expertos: Los expertos valoraron cada ítem en términos de relevancia, claridad y contexto, se consideró ítem problemático aquel con observaciones en estos 3 aspectos. En la tabla 2, se muestran 13 ítems señalados por los expertos por observaciones de relevancia, claridad o contexto.

Resultados relacionados con el pretest: En esta fase se revisaron las respuestas proporcionadas por los menores diagnosticados con hemofilia. Se hizo el conteo de «no aplica» y se encontró que la mayor calificación de esta opción correspondió a los ítems que se observan en la tabla 3. Se encontraron 13 ítems con alto conteo de «no aplica», esta opción de respuesta fue utilizada en aquellos ítems que no se realizan en el día a día de los evaluados.

Con relación al tiempo tomado para responder el cuestionario PedHAL, se encontró un promedio de 14,17 minutos en responder la totalidad del cuestionario.

Resultados relacionados con la caracterización de los menores con hemofilia: Una vez establecida la estructura en español se aplicó el cuestionario a una población de 31 participantes. El 100% de los participantes eran de género masculino, con diagnóstico de hemofilia A severa, en profilaxis como esquema de tratamiento. La edad promedio fue 12,03 años (min 8 máx. 17). En cuanto a

Tabla 1.
Análisis de calidad en documento retro- traducido

Pregunta	Análisis
Significado de los ítems	Los ítems fueron percibidos, con el mismo significado en las dos versiones a excepción del ítem número 26.
Tipo de lenguaje	Ambos lenguajes presentaron familiaridad en las dos versiones.
Omisiones, sustituciones o adiciones	No se encontraron aspectos que dificultaran el entendimiento de los ítems.
Formato del ítem o cuestionario	No se alteró el ítem ni el cuestionario en las dos versiones.
Longitud de los enunciados	Se encontraron variaciones, por diferencia de los verbos en los dos cuestionarios, el cuestionario original se expresaba con terminaciones "ing" mientras que el cuestionario retro traducido se encontraba con verbos en infinitivo.
Tareas o habilidades	Fueron iguales para los dos cuestionarios.
Estructura Gramatical	No se alteró en los dos cuestionarios.
Pistas gramaticales	Se encontraron en el cuestionario retro traducido con tiempos verbales diferentes.
Estructuras sin equivalencias	Las funciones o actividades fueron iguales para los dos contextos.
Términos con significado unívoco	Se encontró en la pregunta 26, debido a que el cuestionario original utilizó el término de antebrazo y el retro traducido utiliza el término de codos, lo cual puede alterar la respuesta del evaluado.
Contenido	Las traducciones no presentaron alteración en el contenido del cuestionario.
Términos adaptados	Los términos fueron adaptados de forma cuidadosa durante el proceso de adaptación.
Diferencias culturales	Si se presentó, en relación con la pregunta de transporte público.
Constructo	No fue alterado el constructo en la versión retro traducida.

Tabla 2.
Ítems con observaciones de relevancia, claridad o contexto.

Nº Ítem	Ítem	Observación
5	Arrodillarse o sentarse en cuclillas (doblando sus rodillas)	Relevancia, contexto
6	Inclinar el cuerpo hacia adelante (Ejemplo levantar algo sin doblar las rodillas)	Relevancia, claridad, contexto
10	Permanecer de pie (quieto) por periodos muy largos (más de 1 hora)	Relevancia, claridad y contexto
13	Caminar distancias largas (más de 1 hora)	Relevancia, claridad, contexto
16	Pasear (Ejempló un día en el zoológico)	Relevancia, Contexto
22	Cargar objetos grandes o pesados con sus dos manos (Ejemplo una caja de juguetes o varios libros)	Claridad
41	Realizar tareas externas (Sacar la basura, lavar el carro)	Claridad
46	Realizar deportes escolares (Ejemplo Atletismo)	Relevancia, claridad y contexto
47	Realizar deportes escolares (Voleibol, softball)	Relevancia, claridad y contexto
48	Practicar deportes en equipo, sin contacto (Voleibol, baloncesto)	Relevancia, claridad y contexto
49	Practicar deportes en equipo, de contacto (Waterpolo, futbol)	Relevancia, claridad y contexto
50	Practicar deportes individuales sin contacto (Tenis, ciclismo)	Relevancia, claridad y contexto
51	Practicar deportes individuales con contacto (Tenis, ciclismo)	Relevancia, claridad y contexto

Tabla 3.

Ítems problemáticos con alto conteo de no aplica

No ítem	Ítem	Justificación
10	Permanecer de pie (quieto) por periodos de tiempo muy largos (más de 1 hora)	El cuidador refirió que el menor no tenía dificultad, sin embargo, refirieron que el menor se agotó rápidamente.
13	Caminar distancias largas (más de 1 hora)	A pesar de no tener dificultad gran cantidad de participantes indicaron que el menor se agotó rápidamente.
28	Montar bicicleta	Se pudo realizar la actividad, ninguno de los menores con hemofilia posee una bicicleta propia.
41	Realizar tareas externas (Ej sacar la basura, lavar el carro)	Los participantes refirieron que estas no son actividades que realizaban a su edad.
43	Salir a pasear e ir a bailar (Ej teatro, museo, cine, bar, discoteca)	A pesar de no tener dificultad, los participantes refirieron que estas no son actividades que realizaban a su edad.
46	Realizar deportes escolares (Ej atletismo)	La mayor cantidad de participantes refirió que los menores no realizaron estas actividades como parte del autocuidado.
47	Realizar deportes escolares (voleibol, softball)	La mayor cantidad de participantes refirió que los menores no realizaron estas actividades como parte del autocuidado.
48	Practicar deportes en equipo sin contacto (voleibol, baloncesto)	La mayor cantidad de participantes refirió que los menores no realizaron estas actividades como parte del autocuidado.
49	Practicar deportes de contacto (Ej waterpolo, futbol)	La mayor cantidad de participantes refirió que los menores no realizaron estas actividades por restricción médica.
50	Practicar deportes individuales sin contacto (ciclismo, tenis)	La mayor cantidad de participantes refirió que los menores no realizaron estas actividades como parte del autocuidado.
51	Practicar deportes individuales de contacto (judo, karate, boxeo, kickboxing)	La mayor cantidad de participantes refirió que los menores no realizaron estas actividades por restricción médica.
52	Participar en eventos deportivos durante varios días (Ej natación, caminatas, ciclismo o un torneo deportivo)	La mayor cantidad de participantes refirió que los menores no realizaron estas actividades.
53	Ir a un campamento escolar o de verano	La mayor cantidad de participantes refirió que los menores no realizaron estas actividades.

la escolaridad todos los participantes estaban escolarizados 13 (41.9%) en primaria, 18 (58.1%) en secundaria.

En cuanto a la percepción de funcionalidad por dominios, se encontraron las calificaciones más bajas en los dominios función de las piernas, tareas domésticas, actividades de tiempo libre y deportes. La calificación total mostró un promedio de 92.4 (42-100).

Discusión

En esta investigación se propuso la adaptación cultural del cuestionario PedHAL, para su uso en Colombia. Se espera que esta escala pueda ser de utilidad para los próximos estudios de validación, dado que valora la percepción funcional, según las recomendaciones de la Federación Mundial de Hemofilia (Srivastava et al., 2020).

Se encontraron durante la realización de esta investigación diversas formas de hacer el proceso de adaptación cultural (Sánchez et al., 2021). Algunos autores proponen, como en este caso, terminar la adaptación cultural con una prueba piloto o pretest y otros que sugieren análisis de cualidades psicométricas en la fase final (Beaton et al., 2000; Gouw et al., 2019; María Ramada-Rodilla et al., n.d.; Timmer et al., 2018).

Desde la fase de traducción se encontraron potenciales ítems problemáticos, de 53 ítems solo 26 no tuvieron ninguna observación, 14 tuvieron algunas recomendaciones semánticas menores y 13 se clasificaron como ítems problemáticos por tener observaciones en relevancia, claridad y relación con el contexto. Lo que podría dificultar la aplicabilidad en un posterior estudio de validación. Esta

consideración fue una sugerencia recurrente entre los participantes y en el grupo de expertos relacionada con la extensión del instrumento, lo que está en línea con lo planteado en últimas revisiones del PedHAL que proponen versiones cortas de este instrumento (Kuijlaars et al., 2021).

Además de la extensión del instrumento, el comité revisor designado para esta adaptación cultural, consideró revisar el rango de edad (8 – 17) al que va dirigido el instrumento PedHAL. El amplio rango de edad podría generar diferente impacto en las diversas actividades listadas en el cuestionario sobre todo para los mayores. Sugirieron la posibilidad de utilizar la versión para adultos de Hemophilia Activities List (HAL) para la evaluación de los menores entre 14 y 18 años (Germini et al., 2022; Hermans et al., 2015; Sherlock et al., 2010).

En este estudio se encontraron 13 ítems que indicaron diferencias entre el contexto y cotidianidad entre la población de este estudio y la población holandesa, mostrando la importancia de la adaptación cultural para instrumentos de medición, estos ítems están relacionados con transporte y prácticas de actividades que no se corresponden con el contexto colombiano.

Si bien diversos estudios respaldaron la práctica de actividad física en esta población (Baumgardner et al., 2013; Bérubé et al., 2017; Felipe-Rello et al., 2020; Sherlock et al., 2010), este estudio mostró que en los ítems relacionados con esta práctica se encontraron diferencias contextuales entre la versión original y la revisión del comité para la versión al español.

En cuanto a la opción de respuesta «no aplica» seleccionada, se sugiere en estudios futuros indagar si las

actividades que no realizaba el menor eran por alteración funcional que le impedían realizarla o por una restricción de los padres o personal del centro de atención al que pertenecían (Díaz et al., 2020).

Conclusiones

La traducción al español y la adaptación cultural a Colombia del cuestionario PedHAL, mostró dificultades en 13 ítems. Estos estaban relacionados con el transporte, ocupación del tiempo libre y el deporte que no eran realizables en el contexto colombiano de manera cotidiana, se deberán evaluar en futuros estudios en los que se realice la validación de la escala adaptada.

Referencias

- Barg, A., Elsner, A., Hefti, D., & Hintermann, B. (2010). Haemophilic arthropathy of the ankle treated by total ankle replacement: a case series. *Haemophilia* / : *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, 16(4), 647–655. <https://doi.org/10.1111/J.1365-2516.2010.02221.X>
- Baumgardner, J., Elon, L., Antun, A., Stein, S., Ribeiro, M., Slovensky, L., & Kempton, C. L. (2013). Physical activity and functional abilities in adult males with haemophilia: a cross-sectional survey from a single US haemophilia treatment centre. *Haemophilia* / : *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, 19(4), 551–557. <https://doi.org/10.1111/HAE.12134>
- Beaton, D. E., Bombardier, C., Guillemin, F., & Ferraz, M. B. (2000). Guidelines for the process of cross-cultural adaptation of self-report measures. *Spine*, 25(24), 3186–3191. <https://doi.org/10.1097/00007632-200012150-00014>
- Berntorp, E. (2009). Joint outcomes in patients with haemophilia: the importance of adherence to preventive regimens. *Haemophilia* / : *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, 15(6), 1219–1227. <https://doi.org/10.1111/J.1365-2516.2009.02077.X>
- Bérubé, S., Cloutier-Bergeron, A., Amesse, C., & Sultan, S. (2017). Understanding adherence to treatment and physical activity in children with hemophilia: The role of psychosocial factors. *Pediatric Hematology and Oncology*, 34(1), 1–9. <https://doi.org/10.1080/08880018.2016.1260669>
- Chu, W. M., Ho, H. E., Wang, J. Der, Chan, W. C., Liou, Y. S., Ho, W. C., Hu, S. Y., & Tsan, Y. T. (2018). Risk of major comorbidities among workers with hemophilia: A 14-year population-based study. *Medicine*, 97(6). <https://doi.org/10.1097/MD.00000000000009803>
- Díaz, D. A. P., Ochoa-Martínez, P. Y., Hall-López, J. A., Castro, Z. E. R., Meza, E. I. A., Ortiz, L. R. M., & Buñuel, P. S.-L. (2020). Efecto de un programa de educación física con intensidad moderada vigorosa sobre el desarrollo motor en niños de preescolar (Effect of a physical education program with moderate-to-vigorous intensity on motor development in preschool children). *Retos*, 38(38), 363–368. <https://doi.org/10.47197/RETOS.V38I38.73818>
- Echeverría, A., Cauas, R., Díaz, B., Sáez, C., & Cárcamo, M. (2021). Herramientas de evaluación de actividades de la vida diaria instrumentales en población adulta: revisión sistemática. *Revista Médica Clínica Las Condes*, 32(4), 474–490. <https://doi.org/10.1016/J.RMCLC.2021.01.012>
- Felipe-Rello, C., Puerta, I. G., & Tejero-González, C. M. (2020). Cambiando las actitudes hacia la discapacidad: diseño de un programa de sensibilización en Educación Física (Changing attitudes towards disability: design of an awareness program in Physical Education). *Retos*, 37(37), 713–721. <https://doi.org/10.47197/RETOS.V37I37.69909>
- Ferrer-Peña, R., Gil-Martínez, A., Pardo-Montero, J., Jiménez-Penick, V., Gallego-Izquierdo, T., & La Touche, R. (2016). Adaptación y validación de la Escala de gradación del dolor crónico al español. *Reumatología Clínica*, 12(3), 130–138. <https://doi.org/10.1016/J.REUMA.2015.07.004>
- Fischer, K., & de Kleijn, P. (2013). Using the Haemophilia Joint Health Score for assessment of teenagers and young adults: exploring reliability and validity. *Haemophilia* / : *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, 19(6), 944–950. <https://doi.org/10.1111/HAE.12197>
- Fischer, K., van der Bom, J. G., Mauser-Bunschoten, E. P., Roosendaal, G., & van den Berg, H. M. (2005). Effects of haemophilic arthropathy on health-related quality of life and socio-economic parameters. *Haemophilia* / : *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, 11(1), 43–48. <https://doi.org/10.1111/J.1365-2516.2005.01065.X>
- Germini, F., Debono, V. B., Page, D., Zuk, V., Kucher, A., Cotoi, C., Hobson, N., Sevestre, M., Skinner, M. W., & Iorio, A. (2022). User-Centered Development and Testing of the Online Patient-Reported Outcomes, Burdens, and Experiences (PROBE) Survey and the myPROBE App and Integration With the Canadian Bleeding Disorder Registry: Mixed Methods Study. *JMIR Hum Factors* 2022;9(1):E30797 <https://Humanfactors.Jmir.Org/2022/1/E30797>, 9(1), e30797. <https://doi.org/10.2196/30797>
- Gouw, S. C., Timmer, M. A., Srivastava, A., de Kleijn, P., Hilliard, P., Peters, M., Blanchette, V., & Fischer, K. (2019). Measurement of joint health in persons with haemophilia: A systematic review of the measurement properties of haemophilia-specific instruments. *Haemophilia*, 25(1), e1–e10. <https://doi.org/10.1111/hae.13631>
- Groen, W. G., van der net, J., Helders, P. J. M., & Fischer, K. (2010). Development and preliminary testing of a Paediatric Version of the Haemophilia Activities List (pedhal). *Haemophilia* / : *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, 16(2), 281–289. <https://doi.org/10.1111/J.1365-2516.2009.02136.X>

- Hermans, C., Dolan, G., Jennings, I., Windyga, J., Lobet, S., Rodríguez-Merchán, E. C., Di Minno, M. N. D., Jiménez-Yuste, V., & O'Mahony, B. (2015). Managing Haemophilia for Life: 5th Haemophilia Global Summit. *European Journal of Haematology*, *95*, 1–25. <https://doi.org/10.1111/EJH.12617>
- Hilliard, P., Funk, S., Zourikins, N., Bergstorm, B. M., Bradley, C. S., Mclimont, M., Manco-johnson, M., Petrini, P., van den Berg, M., & Feldman, B. M. (2006). Hemophilia joint health score reliability study. *Haemophilia* / *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, *12*(5), 518–525. <https://doi.org/10.1111/J.1365-2516.2006.01312.X>
- Kuijlaars, I. A. R., van der Net, J., Bouskill, V., Hilliard, P., Juodyte, A., Khair, K., Trakymiene, S. S., & Fischer, K. (2021). Shortening the paediatric Haemophilia Activities List (pedHAL) based on pooled data from international studies. *Haemophilia*, *27*(2), 305–313. <https://doi.org/10.1111/hae.14241>
- María Ramada-Rodilla, J., Serra-Pujadas, C., Delclós-Clanchet, G. L., & Ma Ramada Rodilla, J. (n.d.). *Adaptación cultural y validación de cuestionarios de salud: revisión y recomendaciones metodológicas*.
- Mazepa, M. A., Monahan, P. E., Baker, J. R., Riske, B. K., & Soucie, J. M. (2016). Men with severe hemophilia in the United States: birth cohort analysis of a large national database. *Blood*, *127*(24), 3073–3081. <https://doi.org/10.1182/BLOOD-2015-10-675140>
- Peyvandi, F., Garagiola, I., & Young, G. (2016). The past and future of haemophilia: diagnosis, treatments, and its complications. *The Lancet*, *388*(10040), 187–197. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(15\)01123-X](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(15)01123-X)
- Poonnoose, P. M., Manigandan, C., Thomas, R., Shyamkumar, N. K., Kavitha, M. L., Bhattacharji, S., & Srivastava, A. (2005). Functional independence score in haemophilia: A new performance-based instrument to measure disability. *Haemophilia*, *11*(6), 598–602. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2516.2005.01142.x>
- Rodríguez-Merchan, E. C. (2003). Orthopaedic assessment in haemophilia. *Haemophilia*, *9*(SUPPL. 1), 65–74. <https://doi.org/10.1046/J.1365-2516.9.S1.9.X>
- Sánchez, M. M., Díaz, J. R., Fernández, J. E. R., & Pino, L. P. (2021). Instrumentos para evaluar las habilidades motoras en niños con Trastorno del Espectro Autista entre 5 y 12 años: Revisión Sistemática (Instruments to assess motor skills in children with Autism Spectrum Disorder between 5 and 12 years old: Systematic Revi. *Retos*, *42*, 286–295. <https://doi.org/10.47197/RETOS.V42I0.87487>
- Sherlock, E., O'Donnell, J. S., White, B., & Blake, C. (2010). Physical activity levels and participation in sport in Irish people with haemophilia. *Haemophilia* / *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, *16*(1). <https://doi.org/10.1111/J.1365-2516.2009.02111.X>
- Srivastava, A., Santagostino, E., Dougall, A., Kitchen, S., Sutherland, M., Pipe, S. W., Carcao, M., Mahlangu, J., Ragni, M. V., Windyga, J., Llinás, A., Goddard, N. J., Mohan, R., Poonnoose, P. M., Feldman, B. M., Lewis, S. Z., van den Berg, H. M., & Pierce, G. F. (2020). WFH Guidelines for the Management of Hemophilia, 3rd edition. *Haemophilia*, *26*(S6), 1–158. <https://doi.org/10.1111/HAE.14046>
- St-Louis, J., Abad, A., Funk, S., Tilak, M., Classey, S., Zourikian, N., McLaughlin, P., Lobet, S., Hernandez, G., Akins, S., Wells, A. J., Manco-Johnson, M., John, J., Austin, S., Chowdhary, P., Hermans, C., Nugent, D., Bakeer, N., Mangles, S., ... Feldman, B. M. (2022). The Hemophilia Joint Health Score version 2.1 Validation in Adult Patients Study: A multicenter international study. *Research and Practice in Thrombosis and Haemostasis*, *6*(2), e12690. <https://doi.org/10.1002/rth2.12690>
- Stonebraker, J. S., Bolton-Maggs, P. H. B., Brooker, M., Evatt, B., Iorio, A., Makris, M., O'Mahony, B., Skinner, M. W., Coffin, D., Pierce, G. F., & Tootoonchian, E. (2020). The World Federation of Hemophilia Annual Global Survey 1999-2018. *Haemophilia*, *26*(4), 591–600. <https://doi.org/10.1111/HAE.14012>
- Timmer, M. A., Gouw, S. C., Feldman, B. M., Zwagemaker, A., de Kleijn, P., Pisters, M. F., Schutgens, R. E. G., Blanchette, V., Srivastava, A., David, J. A., Fischer, K., & van der Net, J. (2018). Measuring activities and participation in persons with haemophilia: A systematic review of commonly used instruments. *Haemophilia* / *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, *24*(2), e33–e49. <https://doi.org/10.1111/HAE.13367>
- van den Berg, H. M., Feldman, B. M., Fischer, K., Blanchette, V., Poonnoose, P., & Srivastava, A. (2015). Assessments of outcome in haemophilia - what is the added value of QoL tools? *Haemophilia* / *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, *21*(4), 430–435. <https://doi.org/10.1111/HAE.12731>
- van Genderen, F. R., van Meeteren, N. L. U., van der Bom, J. G., Heijnen, L., de Kleijn, P., van den Berg, H. M., & Helders, P. J. M. (2004). Functional consequences of haemophilia in adults: the development of the Haemophilia Activities List. *Haemophilia* / *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, *10*(5), 565–571. <https://doi.org/10.1111/J.1365-2516.2004.01016.X>
- Van Genderen, F. R., Westers, P., Heijnen, L., De Kleijn, P., Van Den Berg, H. M., Helders, P. J. M., & Van Meeteren, N. L. U. (2006). Measuring patients' perceptions on their functional abilities: validation of the Haemophilia Activities List. *Haemophilia* / *The Official Journal of the World Federation of Hemophilia*, *12*(1), 36–46. <https://doi.org/10.1111/J.1365-2516.2006.01186.X>
- Weinert, C., Cudney, S., & Spring, A. (2008). Evolution of a conceptual model for adaptation to chronic illness. *Journal of Nursing Scholarship* / *An Official Publication of Sigma Theta Tau International Honor Society of Nursing*, *40*(4), 364–372. <https://doi.org/10.1111/J.1547-5069.2008.00241.X>