

## Original Article – Full Translation

# オランダにおける血友病患者のスポーツ参加

## Participation in sports by Dutch persons with haemophilia

L. Heijnen, E. P. Mauser-Bunschoten and G. Roosendaal

Van Creveldkliniek University Medical Centre Utrecht, The Netherlands and Rehabilitation Centre De Trappenberg Huizen, The Netherlands

**要約:** 今日、血友病患者のスポーツへの参加が広く勧められている。しかし、血友病患者のスポーツ参加状況に関する詳細なデータは今のところ非常に少ない。そこで我々は、オランダにおける血友病患者のスポーツ参加状況を調査するためにアンケートを行った。配布された293通のアンケートはすべて回収された。うち217通は重症血友病AまたはB患者からの回答である（これらの患者はオランダにおける重症血友病例の40%に相当する）。アンケートの結果、217例中155例（71%）は1種目以上のスポーツに参加していることがわかり、その内訳は水泳（66例）、サイクリング（36例）、テニス（21例）、フィットネス（18例）、アイススケート（16例）、スキー（10例）、卓球（10例）など様々で、44種目の

スポーツが含まれていた。血友病のために走ることが不可能な16例のうち10例（63%）がスポーツに参加し、体調が良好な時にのみ走ることが可能な91例のうち64例（70%）が何らかのスポーツに参加していた。これらは、たとえ走ることができなくても、血友病患者がスポーツに参加する機会は決して少なくないことを示している。重症血友病患者も一般の健常者と同様に活動的なのである。事実、水泳やサイクリングに参加している患者の割合はかなり高い。結論として、オランダにおける血友病患者のスポーツ参加状況は世界血友病連合（WFH）の指針に沿うものであった。

**Key words:** サイクリング, 血友病, ランニング, 学校体育, スポーツ参加, 水泳

血友病は関節内・筋肉内出血を中心とした出血傾向を示す血液凝固障害である。かつては、関節内・筋肉内出血は“安静”が必要とされ、完全に止血した後も関節可動域や筋力の低下が起り、身体条件の悪化を招いた。最近では、欠乏している凝固因子の補充や、必要に応じた理学療法の併用が可能になり、

関節や筋肉に機能障害をもつ患者は昔と比べればるかに減少した。

今日、血友病患者のスポーツ参加は血友病専門医や理学療法士らにより絶賛されている。正常な運動機能発達と良好な身体状態が出血や筋骨格系障害を予防するという考えがより一般的になっているのである。世界血友病連合（WFH）により刊行されている *Go For It*<sup>(1)</sup> は、水泳やゴルフだけが血友病患者に適しているのではなく、他の多くのスポーツも適切な訓練を行い、適当な設備があれば十分に楽しむことが可能で、身体にも有益であるとしている。

これまでに血友病に関する多くの報告がなされてきたが、血友病の少年あるいは成人がどの程度ス

Correspondence: L. Heijnen MD, Psychiatrist Rehabilitation Centre De Trappenberg, Crailoseweg 116, 1272 EX Huizen, The Netherlands. Tel.: +31 3569 29680; fax: +31 3569 29692; e-mail: trapberg@worldonline.nl

Accepted 17 March 2000

*Haemophilia* (2000), 6, 537–546  
©Blackwell Science Ltd.

スポーツに参加しているかについて検討しているものは極めて限られている。本稿では、文献のレビューを行った後に、オランダにおける血友病患者のスポーツ参加に関するデータを示す。

## 文献レビュー

スポーツ参加について詳細な分析を行うのに適した文献は2, 3編のみであった。また、これらの文献とは別に、血友病医療チームの医療スタッフおよび心理社会学専門スタッフにとってたいへん興味深い文献があった。この文献は、前述の内容に加えて、WFH や National Member Organizations (NMOs)、血友病専門医、関係企業が血友病患者のスポーツ参加を促すためにどのような活動を行っているかを紹介している。血友病患者のためのスポーツについては、血友病ハンドブックをはじめ、他の刊行物(WFH や NMOs が発行している小冊子やリーフレットなど)、WFH 主催の世界血友病連合会議や筋骨格委員会の抄録、他会議の報告書、機関誌などでこれまでに言及されてきた。血友病ハンドブックでは、5つの章でスポーツ参加が論じられている<sup>(2~6)</sup>。これらの内容から結論できることは、「血友病患児は学校などでのスポーツ活動にできる限り参加すべきであり、また何が彼らに可能で何が彼らの身体に危険をもたらすのかを学ぶべきである」ということである。しかし、思春期にはいくらかの制限を設ける必要があると考えられる<sup>(2)</sup>。Heijnen & De Kleijin<sup>(3)</sup>は、実際にスポーツに参加している患者を観察し、その結果を発表している[これらの患者が参加していたスポーツにはテニス(1年中)、ボート、スピードスケート、登山、スカッシュ、水泳、ウインドサーフィン、体操、サッカーが含まれている]。さらに、Buzzard は血友病患者がスポーツで負傷した場合の対応について報告している。Jones & Buzzard<sup>(5)</sup>は血友病専門医へアンケートを行い、医師が最も推奨するスポーツベストテンと避けるべきスポーツ、すなわちワーストテンをリストしている。さらに彼らは、スポーツ活動における負傷予防についても検討している。

Heijnen<sup>(6)</sup>はスポーツを次の4種に分類した。

A 大部分の血友病患者が安全に参加でき、推奨

されるスポーツ

B 有益性がリスクを下回るスポーツ

C 外傷を負うリスクが高いスポーツ

D 国によっては参加せざるを得ないスポーツ

A~C種については1984年に国際血友病財団(NHF)と米国赤十字社<sup>(7)</sup>により刊行された文献ですでに言及され、1995年に発行された*Get Moving*<sup>(8)</sup>(小冊子)および*Go For It*(小冊子)でも用いられている。

興味深いのは、著者により各スポーツの分類が異なっている点である。1984年のあるNHF刊行物に掲載されている論文では、ゴルフと水泳のみがA種に分類されている。最新の*Go For It*では、次のスポーツや運動が安全な種目としてリストされている——バドミントン、ボウリング、サイクリング、ダンス、釣り、フリスビー、ゴルフ、ハイキング、セーリング、スノーケリング、水泳、卓球、歩行、ヨガ。さらに、このリストではNHFがどのスポーツを安全と考えているかも示している(例えば、NHFはバドミントンと卓球を安全種目には含めていない)。*Get Moving*はアーチェリーをA種に分類しているが、*Go For It*はB種に分類、さらに*Get Moving*はハンドボール、サイクリング、フリスビーをB種に分類している。Heijnen<sup>(6)</sup>は他の論文では言及されていないビリヤードとボートをA種のスポーツとし、サイクリングとセーリングをB種としている。ちなみに、*Go For It*では54種のスポーツがB種に分類されている(Appendix 1)。

危険(C)種とみなされたスポーツについてはすでにコンセンサスが得られており、このなかには次のスポーツが含まれている——アメリカンフットボール、ボクシング、ハンググライダー、フィールド・アイス・ストリートホッケー、ラクロス、モータースポーツ(オートバイ)、ラグビー、サッカー。空手およびスケートボードは*Go For It*ではC種に分類されているが、NHFはそれらを危険なスポーツとはしていない。数人のイスラエル人医師らは、ある重症血友病患者が空手によって健康状態を向上させ、さらに空手の大会でチャンピオンになったと証言している(Heim, personal communication)。Heijnen<sup>(6)</sup>はスケートボードをサッカーと同じD種に分類して

いる。ラケットボールとロッククライミングはNHFにより危険種目とされているが、他の研究者・機関はこれらを危険種には分類していない。

結論としていえることは、多くの血友病医が運動およびスポーツを奨励しているということである。1978年にイタリアで発行された小児向け小冊子<sup>(9)</sup>の中でサイクリング、ボート、ジョギング、スキー、水泳および卓球が安全なスポーツとして記載されたことはあったが、かつてはわずか2, 3のスポーツしか安全と考えられていなかった。ちなみに、このイタリアの小冊子中で、サッカーは膝関節血腫を招くとされている。今日では、適切な血友病管理とともに適正な用具を使用し管理されたトレーニングさえ行えば、ほとんどのスポーツに挑戦することが可能と考えられている。また、運動やスポーツは生涯を通じて続けるべきである。

文献の検索対象は、MEDLINEでは1966～1999年1月、CINAHLでは1982～1998年3月、*Clinical Psychiatry*では1988～1998年9月に絞った。

Salviniら<sup>(10)</sup>は、青年の血友病患者(平均年齢14.9歳)を対象にスポーツ療法の効果について検討し、スポーツに参加している青年では参加していない青年に比べて、自尊心や社会への適応力、体格、自己評価力、精神力に優れ、健常者同様であったとしている。

Kochら<sup>(11)</sup>は、8.3～15.5歳の血友病患児11例の運動能力を調査し、これらの少年の運動能力は健常少年に比べて劣っていたと報告している。この原因として、この研究グループは血友病患児の身体調整不足を挙げている。

Greenan-Fowlerら<sup>(12)</sup>は、血友病患児に運動療法を課しても、最初の1年間でコンプライアンスが急激に低下するとしている。故にこの研究グループは、運動メニューは楽しめるものでなければならず、しかも仲間同士で互いにプレッシャーをかけ合うようなものが望ましいと指摘している。

Buzzard<sup>(13)</sup>は1960～1990年の文献レビューを行った。検索したほぼすべての文献も血友病患者のスポーツ参加を推奨していたが、血友病患児を対象としたサマーキャンプに関する報告のなかでプログラムに実際にスポーツが盛り込まれていたことを示

す報告はわずか1編であった<sup>(14)</sup>。1973年に行われた18例の少年血友病患児が参加した1週間のキャンプ、および翌1974年に行われた6～14歳の患児30例が参加した2週間のキャンプでは、それぞれ水泳、カヌー、セーリング、釣り、アーチェリー、バレーボール、テニス、トランポリン、卓球などが盛り込まれた。この文献は、静脈穿刺による第VIII因子製剤の投与が成功した点についてのデータを示しているが、少年たちがキャンプ後もスポーツ活動が続けたかについては言及していない。

血友病患者のスポーツ参加に関するデータは世界血友病連合会議や筋骨格委員会で発表された報告の抄録にも含まれている。

Glomstein<sup>(15)</sup>はノルウェーの血友病患者が日常生活の一環として行っているノルディックスポーツについて報告している。5歳以上の血友病患者298例を対象にアンケート調査を行い、179例から回答を得ている。アンケートの結果、179例中178例が人生のある期間を通じてノルディックスポーツに参加しており、うち132例はアンケート調査時においても活動的に参加していた。

Heijnenら<sup>(16)</sup>は、以前数か国の血友病専門医を対象に、スポーツを用いた専門的プログラムを実施しているかについてアンケート調査を行った。後にこの研究グループは、実施していると回答した医師を対象にプログラム内容および現状で得られている成果などに関してアンケート調査を再度実施した。29医師(29施設)にアンケートを送付し、17医師(17施設)から回答を得ている。6施設が、サマーあるいはウインターキャンプでの独自のトレーニングプログラムをもっていた。1施設では、一人一人を対象とした個人プログラムも実施していた。しかし、これらの施設のなかで、プログラム終了後も参加者が同様の活動を継続したかについて回答できた施設は1つもなかった。回答を分析した結果、競争的スポーツの採用状況は次の通りであった——バスケットボール11施設、サッカー8施設、クリケット4施設、空手1施設、ボディビル1施設、ダウンヒルスキー1施設、10種競技1施設(最後の3種目に参加した患者は、すべて軽症患者であった)。Korn<sup>(17)</sup>は、1981年にノースウエールズで確立された包括的プログラ

Haemophilia A or B	< 6 years	6–11 years	12–17 years	18–29 years	> 29 years	Total no.
< 1%	6 (3%)	26 (12%)	28 (13%)	60 (27%)	97 (45%)	217 (74%)
1–5%	1 (4%)	3 (11%)	5 (18.5%)	8 (29.5%)	10 (4%)	27 (9%)
> 5%	1 (2%)	6 (12%)	9 (18%)	13 (26.5%)	20 (4%)	49 (17%)
Total	8 (3%)	35 (12%)	42 (14%)	81 (28%)	127 (43%)	293

**Table 1.** Persons with haemophilia completing questionnaire divided by age and severity.

ムについて報告している。このプログラムはアウトドア活動により構成され、過去15年間にわたり毎年550名以上が参加している。うち約40名は英国からの参加者で、それ以外は他の国々の血友病施設から参加した多数の患児である。この報告でも参加者がプログラム終了後に同様の活動を継続したかについては不明である。Hartlら<sup>(18)</sup>は、オーストリアの血友病施設が実施しているリハビリテーションサマーキャンプで実践されている血友病患者のためのスポーツへの手引きについて報告している。キャンプ中のスポーツ活動に関するデータはあったが、参加者のその後のスポーツ活動については不明であった。Heijnenらは1996年にオランダ人血友病患者166例の運動またはスポーツへの参加状況を報告し<sup>(19)</sup>、翌1997年には209例に関する調査結果を発表している<sup>(20)</sup>。イタリア人血友病患児のスポーツ参加に関してはすでに2編の報告がある<sup>(21,22)</sup>。CONIセンターは、1973年に寝食を共にするサマープログラムの提供を開始し、1984年からは11～16歳の非血友病患児の参加も受け入れている。1990年にはイタリア各地から28名（血友病患児17名、非血友病患児11名）に加え、ヨーロッパ各地（ベルギー、ウエールズ、イングランド、スウェーデン）から14名の血友病患児が参加した。スポーツ活動は陸上競技と水泳で構成されており、1日約6時間のメニューである<sup>(23)</sup>。参加の必要条件は、過去1年間のスポーツ参加であった。

## 結 論

血友病患者のスポーツ参加状況を正確に把握したデータは極めて少ない。Glomstein<sup>(15)</sup>とHeijnenら<sup>(19,20)</sup>のみが季節ごとあるいは年間ベースでの参加状況を示すデータを提示しているにすぎない。

## オランダ人血友病患者のスポーツ参加状況に関する研究

小児～成人の血友病患者およびその家族に対する運動やスポーツへの参加奨励は、当施設（Van Creveldkliniek）の包括的ケアプログラムに必要な要素である。本研究の目的は（1）当施設に登録されている血友病患者のスポーツ、学校体育、その他の運動への参加状況の調査・分析、（2）我々が提供しているアドバイスや教育内容の効果測定、（3）血友病患者と非血友病患者のスポーツ参加の比較、（4）将来的に他の国々の血友病集団と比較可能な内容・形式でのデータ提示、である。

## 対象および方法

学校体育、運動およびスポーツへの参加状況に関するデータを得るため、6か月ごとに定期診断で当施設を訪れる患者（5歳以下を除く）にアンケートへの回答を依頼した。これまでのところ、全例がアンケートに回答し返送してきている。

結果は、血友病（血友病AおよびBを含む）の重症度別〔重症（第VIII因子活性<1%）、中等症（1～5%）、軽症（>5%）〕および年齢別〔12歳未満（小学校学齢）、12～17歳（中・高校学齢）、18～29歳、30歳以上〕に表した。

## 結 果

アンケートに回答した293例中74%は重症、9%は中等症、17%は軽症であった。各重症度の年齢分布に差はなかった（Table 1）。

## 学校体育への参加

12歳未満群では43例中41例（95%）が学校体育に参加していた（1例は学齢に達していなかった）。

また、このうちの36例は級友と同じ頻度で体育に参加していた（他の5例は、参加頻度について回答していない）。12～17歳群の42例中、重症28例中の2例（7%）と軽症9例中の1例（11%）を除いてはすべてが何らかのスポーツに参加していた。

12～17歳群で体育に参加していると回答した重症22例のうち1例だけが級友たちと同頻度では参加していなかった（5例はこの質問に回答していない）。6～17歳群の73例中57例（78%）がすべての体育活動に参加していたが、12歳未満群の重症26例中4例（15%）はすべての活動には参加しておらず、12～17歳群の35例中12例（34%）もすべての体育活動には参加していなかった。すべての体育活動には参加していないと回答したこれらの例には、重症例ばかりではなく軽～中等症例も含まれている（Table 2）。

各例に体育が好きかどうかを質問している。12歳未満群の41例中1例（中等症）が好きではないと回答し、12～17歳群でも1例（重症）が好きではないと回答した。

出血のために体育に参加できなかった経験の有無に関するデータをTable 3に示した。12歳未満群の約30%はこの経験が全くなく、これより年長の群では60%以上が時々またはたびたび不参加を余儀なくされ、重症1例および軽症1例はほぼ毎回欠席していた。

### その他の運動

全例に通学あるいは通勤に自転車を使用しているかどうか、また走ることが可能かどうかを質問し、回答率は30歳以上群で84%、18～29歳群で70%であった（Table 4）。6～11歳および12～17歳の2年齢群からは結論を出すに至る十分な回答は得ら

れなかった。通勤や通学に自転車を用いるか否かは、血友病とは無関係の別の理由によるのかもしれない。例えば、通勤・通学先までの距離、気候、通勤先の不特定さなどが考えられる。自転車を使用しない理由について尋ねる項目をアンケート中に含めなかったため、“使用しない”と回答した例のうち何例が血友病以外の理由で自転車を用いないのかを明らかにすることはできなかった。さらに、我々は各例の両親が自転車による通学は危険と考えているかどうかを確認していない。自転車を使用しない理由を尋ねるスペースのゆとりがなかったのもまた事実である。

走ることが可能かどうかの質問に対する回答率は、12歳未満群と12～17歳群で非常に低率であった（順に35%、30%）。多くの回答者がこの質問に答えなかった理由として、他の項目で定期的にジョギングやランニングを行っているかを尋ねる質問があったため、それに回答していればこの質問に回答する必要がないと回答者が考えた可能性がある。しかしながら、12歳未満群の1例はこれまでにほとんど走ることができなかったと回答し、他の3例は“時々走れる”と回答している。18～29歳群、30歳以上群の回答率はそれぞれ60%、90%で、両年齢群の重症例のうち14%は走ることが全く不可能で、80%が時々可能、わずか6%のみがしばしばあるいは常に走ることが可能であった。18～29歳群の重症例では比較的多数の例が走ることが可能と回答しており、30%はしばしば、20%は常に走ることが可能と回答している（Table 5）。

### スポーツへの参加

この調査では、74%が1種目以上のスポーツに参加し、重症血友病AまたはB患者の71%が何らかのスポーツに参加していることがわかった。これらの患者のほとんどは1種目以上のスポーツに参加していた。一方、軽～中等症例の20%は何のスポーツにも参加していなかった。重症例ではこれよりも約10%多い患者がスポーツ活動に参加していなかった。1種目のみのスポーツを行っていた患者数では、重症例が中等症例を10%上回っていたが、軽～中等症例では重症例より13%多い例が2種目のスポーツに参加していた。3～4種目のスポーツへの参加率

Table 2. 'I do all physical education activities'.

Haemophilia A or B	< 12 years		12-17 years	
	Yes	No	Yes	No
<1%	23 (85%)	4 (15%)	16 (67%)	8 (3,3%)
1-5%	4 (100%)	0	2 (40%)	3 (60%)
>5%	7 (100%)	0	5 (83%)	1 (17%)
Total	34 (89.5%)	4 (10.5%)	23 (66%)	12 (34%)

**Table 3.** I have to miss physical education because of bleedings<sup>1</sup>.

Age	< 12 years				12–17 years			
	Never	Sometimes	Often	Almost always	Never	Sometimes	Often	Almost always
Haemophilia A or B								
< 1%	10 (31%)	18 (56%)	4 (13%)	0	6 (21%)	19 (68%)	2 (7%)	1 (4%)
1–5%	1	2	1	0	0	2	3	0
> 5%	2	4	0	0	1	5	2	1
Total	13 (31%)	24 (57%)	5 (12%)	0	7 (17%)	26 (62%)	7 (17%)	2 (4%)

**Table 4.** ‘I cycle to school/work’.

Age	18–29 years				> 29 years			
	Never	Sometimes	Often	Almost always	Never	Sometimes	Often	Almost always
Haemophilia A or B								
< 1%	8 (18%)	26 (59%)	7 (16%)	3 (7%)	22 (26%)	45 (52%)	14 (16%)	5 (6%)
1–5%	0	2	1	1	2	3	1	1
> 5%	1	2	1	4	5	7	1	1
Total	9 (16%)	30 (54%)	9 (16%)	8 (14%)	29 (27%)	55 (51%)	16 (15%)	7 (7%)

**Table 5.** ‘I can run’.

Age	18–29 years				> 29 years			
	Never	Sometimes	Often	Almost always	Never	Sometimes	Often	Almost always
Haemophilia A or B								
< 1%	3 (7.5%)	17 (42.5%)	12 (30%)	8 (20%)	13 (14%)	74 (80%)	5 (5%)	1 (1%)
1–5%	0	3	1	0	1	6	1	2
> 5%	0	1	2	1	0	6	1	3
Total	3 (6%)	21 (44%)	15 (31%)	9 (19%)	14 (12.5%)	86 (76%)	7 (6%)	6 (5.5%)

は、重症度とは無関係と考えられる (Table 6)。

30歳以上の例はすべて膝関節、足関節あるいはその両者に血友病性関節症をもち、数例では股関節も障害されていた。この事実が走ることばかりかスポーツ活動への参加も制限していると考えられる。1種目以上のスポーツに参加している患者数と走る能

力を Table 7 にまとめた。

18 ~ 29 歳群で“全く走れない”と回答した3例すべてがスポーツに参加していることに加え、“時々走れる”と回答した17例中14例もスポーツに参加している。さらに、30歳以上群で“全く走れない”，または“ほんの時々走れる”と回答した例の54%が

	No. of sports						
	0	1	2	3	4	5	Total
A or B	77 (26%)	86 (29%)	87 (30%)	33 (11%)	9 (3%)	1 (0.3%)	293
A or B < 1%	62 (29%)	69 (32%)	57 (26%)	23 (10.5%)	5 (2%)	1 (0.5%)	217
A or B > 1%	15 (20%)	17 (22%)	30 (39%)	10 (13%)	4 (5%)	0	76

**Table 6.** Number of persons with haemophilia participating in 0–5 sports.**Table 7.** Persons with severe haemophilia A or B: Running ability and sport.

Running	Never	Sport yes	Sometimes	Sport yes	Often	Sport yes	Always	Sport yes
	18–29 years	3	3 (100%)	17	14 (82%)	12	9 (75%)	8
> 29 years	13	7 (54%)	74	50 (68%)	5	5 (100%)	1	1 (100%)
Total	16	10 (63%)	91	64 (70%)	17	14 (82%)	9	8 (89%)

スポーツに参加し、“時々走れる”と回答した例の68%がスポーツに参加している。

Table 8 に重症例が参加している種目をリストした。最も頻度の高かった種目は水泳で、次いでサイクリング、テニス、フィットネスであった。他の種目で各種 1 例のみから回答があった種目は、アクアビクス (aqua-jogging)、アーチェリー、ダーツ、犬の調教、ハンドバイク、ハンググライダー、アイスホッケー、ジャズダンス、ジェットスキー、‘kaatsen’、‘korfbal’、セーリング、車椅子ダンス、車椅子ホッケー、ヨガであった。

### 健常者との比較

オランダにおける重症血友病AおよびB例と健常

者のスポーツ参加をここで比較してみる。オランダでは Dutch Health Interview Survey という口頭と記述による質問で構成された健康調査が無作為に抽出した家庭を対象に実施される<sup>(24)</sup>。1990年度の調査では、32%の成人男性が非活動的で、45%がやや活動的、23%が活動的という結果がでている(“非活動的”は「仕事のほかにスポーツや運動を全く行っていない」と定義されている)。

この基準を用いて我々の対象例を評価すると、全体の26%が非活動的、他の74%は1種目以上のスポーツに参加しており、この類いではない。重症例中の29%は非活動的で71%は活動的である。これらの比率に基づくと、我々の対象例は健常者と同様に活動的である。

Table 8. Sports participation by persons with severe haemophilia A or B.

Sports	<16 years	16-24 years	25-34 years	35-44 years	>44 years	Total
Badminton	2	1	3	1		7
Basketball		2				2
Billiards		1	1	3	2	7
Bowling		1	1			2
Canoeing		1	1	1	1	4
Cycling	2	3	17	11	3	36
Dancing	1	3	1			5
Diving			1	1		2
Fitness		6	7	4	1	18
Fishing	1	1		3		5
Golf			1	1		2
Gymnastics	2	1				3
Horseback riding		1	2	1		4
Inline skating	1		1			2
Judo	2					2
Mountain biking			2			2
Mountain walking/ climbing		1	1			2
Shooting	1	1			1	3
Skating	8	4	4			16
Skiing	1	5	4			10
Snooker		1	1			2
Soccer	2	3	2			7
Street soccer	2	2				4
Squash			2			2
Surfing		2	2			4
Swimming	21	13	13	10	9	66
Table tennis	3	2	2	2	1	10
Tennis	8	7	5		1	21
Volleyball		1	1			2
Walking			2		5	7
Other sports	2	4	5	1	3	15
No. of patients	35	34	40	28	18	155

年齢別と重症度別にみた我々の対象例のスポーツ参加率を Table 9 に示す。軽～中等症の各年齢群は極めて少数の患者で構成されている。

健常男性<sup>(24)</sup>と我々の対象例を16歳以上の4つの年齢群に分け、それぞれの各スポーツへの参加率を Table 10 に示した。予想通り、健常者に比べ血友病例ではサッカーへの参加率が低かった。また、この傾向は16～24歳群および45～54歳群の歩行とサイクリングへの参加状況にもみられた。しかし、25～34歳群のサイクリングへの参加率は血友病例のほうが高く、35～44歳群ではほぼ同率である。テニスについては16～24歳群に限り血友病例のほうが参加率が高く、それより年長の2群では健常者群のほうが高かった。しかし、水泳については全年齢群で血友病例のほうが高く、特に45～54歳群で著明であった。また、非常に多くの血友病例がフィットネスを行っていたが、この種目はBackxらの報告では言及されていない<sup>(24)</sup>。健常男性の8%は体型維持のためにジョギングを行っていた。

考 察

オランダの血友病患者人口は約1,300人で、40%が重症である<sup>(25)</sup>。このうち、全体の約1/3にあたる405例が当施設内にある国立血友病センター (National Haemophilia Centre) に登録されている。520例と推定されるオランダ人重症血友病患者の50%以上(276例)が当施設で治療を受けているのである。センターに登録されている患者の70%以上が今回のア

ンケートに回答し、うち217例は重症である。ともあれ、今回のアンケートにはオランダ人重症血友病患者の40%以上が回答したことになり、得られたデータはこれらの患者の学校体育、運動、スポーツへの参加状況を反映していると考えられる。他施設の医師が特に問題のある患者を当施設に照会し、また患者らがセカンドオピニオンのために我々を受診するという事実は、当施設への来院者には筋骨格に障害のある患者が多いことを示唆している。

全患者からアンケートのすべての項目に対して回答を得ていないため、統計解析を行わないことにしたが、前述の健常者との比較データなど正当性があると考えられるデータは提示することにした。凝固因子の消費データなどは収集しなかった。当施設で治療を受けている患者の75%が予防投与療法として週2～3回、10～20 U/kgの製剤投与を受けていると推測される。予防投与を受けている患者では、スポーツ活動に参加している期間中は一般的に用量は増量しない。しかし、投与スケジュールについては学校体育や他の活動に応じてしばしば調整される。On-demand treatmentにある患者では、時によっては自分自身で製剤を投与することがある(ただし、医師はこれを決して推奨しない)。

12歳以下の少年はすべて学校体育に参加していた。これはこの疾患に対する最新の指針に沿うものである。学校体育への出席頻度は血友病患児と健康な彼らの級友たちとの間に差はなく、運動メニューも一部の例外を除いては全く同じである(重症23例

Table 9. Sports participation by persons with haemophilia according to age and severity.

Haemophilia A or B	< 12 years	12-17 years	18-29 years	> 29 years	Total
< 1%	68%	77%	76%	70%	73%
1-5%	100%	20%	75%	89%	73%
> 5%	100%	78%	92%	80%	85%

Table 10. General male population (GP) and persons with severe haemophilia (H) in % participating in particular sports.

Age (years)	Cycling		Walking		Soccer		Tennis		Swimming		Fitness	
	GP	H	GP	H	GP	H	GP	H	GP	H	GP	H
16-24	29.5	8.8	9.5	-	31.1	8.8	11.2	20.5	9.1	38.2	?	17.6
25-34	34.4	42.5	19.6	5.0	22.9	5.0	13.0	12.5	10.2	32.5	?	17.5
35-44	41.0	39.3	26.7	-	11.6	-	16.1	-	11.8	35.7	?	14.3
45-54 (H > 44)	40.8	16.6	40.0	27.7	6.8	-	15.3	5.5	8.3	50.0	?	5.5

中4例でメニューに例外があった)。これらの結果は我々の予想を裏づけるものである。なぜならば、当施設で治療を受けている患者のなかで1981年1月1日～1988年12月31日に生まれた患者の整形外科的関節スコアの平均値は0.9、Petterssonスコア(X線写真所見)の平均値は2.3であった<sup>(26)</sup>。つまり、彼らの健康状態は健常児と同様の運動メニューをこなすことができるレベルにあるのである。1991年にオランダの6～14歳児でスポーツ活動に参加したのは全体の90%であったとの報告<sup>(27)</sup>があるが、この参加率も今回我々が得た血友病患者の参加率と大差はない。

12～17歳群では、2、3例が学校体育に参加していなかったことに加え、重症例の半数はすべての運動メニューに参加したわけではなかった。この年齢群の整形外科的関節スコアおよびPetterssonスコアの平均値は前述の患者群に比べ高めであった(順に2.0, 5.8)。どの運動メニューに参加し、どの運動メニューに参加しなかったかに関する詳細な情報は入手していないが、一般的に中学校や高校では他者との肉体的接触を含む競技・種目が他の種目よりも優先されがちである。重要なことは、血友病患者自身が自分に何ができて何が自身の健康に危険をもたらすのかを知ることであり、そのような理由からも思春期には一定の制限を設ける必要があると考えられる。これはJonesの助言<sup>(12)</sup>とも一致している。18歳未満の血友病患者の2/3は、出血のために時折学校体育を欠席せざるを得なかったが、ほぼ全例が学校体育が好きだと答えている。血友病患者および彼らの両親に対する学校体育参加に関する教育はほぼ十分に行われてきたと考えられるが、次世代の血友病患者および彼らの両親のために当施設やDutch Haemophilia Patients Organizationは今後もこれらの教育を継続してゆくべきであろう。

当施設で治療を受けている患者が最も頻繁に行っているスポーツと、Go For Itなどの血友病に関する文献で推奨されているスポーツを比較してみると、最も頻繁に行われているスポーツ(水泳およびサイクリング)が多くの血友病患者にとって安全と考えられる。我々の対象例に最も人気があったスポーツはB種/黄色の範疇のテニス、スケートおよびスキーである。フィットネスは文献では特に言及され

ていなかったが、これも人気が高かった。フィットネスは、複数の体操とウェイトトレーニングを組み合わせたものといつてよいであろう。Go For Itで危険と評価された柔道は2例の少年が行っていた。スポーツによる負傷に関する項目は我々のアンケートには含まれていなかったが、我々のこれまでの臨床経験からいえることは、スポーツ参加が原因で血友病性の出血症状を起こす患者はそう多くはなく、ほとんどの出血は負傷後に起こっているということである。

## 結 論

今回の調査で我々が得たデータは、オランダの血友病患者は活動的でスポーツへの参加にも積極的であり、健常者と比べても大差がないことを示している。現在オランダで用いられている予防投与療法は関節症予防あるいは進展遅延を目的としたものである<sup>(27)</sup>。この事実も血友病患者の様々なスポーツへの参加を正当化するものと考えられる。正しいトレーニングを行い適切な用具を用いることがスポーツでの負傷予防に重要である。スポーツで負った外傷を治療する際は、まず十分な補充療法とRICE [rest (休養), ice (冷却), compression (圧迫術), elevation (関節挙上)]を行うことが重要である。次に、通常のスポーツの外傷に対して行われる治療を施す。さらに、患者がそのスポーツ活動を再開できるようにするための集中トレーニングを行う必要がある。血友病をもつ少年や成人男性の多くは、賢明にスポーツを選んでいる印象を受ける。サッカーに参加しなかったが、血友病のために諦めざるを得なかった血友病患者が多かったことがアンケート結果から示唆されている。我々のアンケートの中で、サッカーは避けているスポーツとして極めて高頻度に挙げられていた種目である。同様に高頻度で挙げられていたのは、比較的にリスクの高い空手やキックボクシングであった。また、バドミントンやビリヤード、サイクリング、スケート、卓球およびテニスは血友病患者の間で一般的であったが、関節障害をもつ一部の患者には不可能であった。

一般的に、運動・スポーツに参加することは健康によいと奨励されている。運動は平均余命の向上や

骨粗鬆症や高血圧, 糖尿病, 鬱病に好ましい効果があるといわれている。さらに, 健康と運動神経系の調整は血友病患者において筋骨格障害の予防に役立つと同時に, 関節内・筋肉内出血の回復を加速する可能性がある。加えて, これらは血友病患者のスポーツや他の一般的社会活動への参加を可能とするのである。これらは明らかに血友病患者にとって肉体的のみならず精神的にも非常に有益である。予防投与療法のおかげで今日の血友病患者は非常にバラエティに富んだスポーツ活動を選択することができるようになった。血友病センターと血友病学会は, 教育とカウンセリングを通して血友病患者の運動やスポーツへの参加を奨励すべきである。しかし, これらの恩恵を受けるためには, 人生を通じてこれらを定期的に行うことが重要である。つまり, ‘続けるか, 恩恵を諦めるか’ ということである。

## 謝 辞

英文校正および貴重なアドバイスをいただいた IIsley Ingram 教授にここで改めて謝辞を申し上げる。

## References

- Jones P, Buzzard B, Heijnen L. *Go For It. Guidance on physical activity and sports for people with haemophilia and related disorders*. Montréal: World Federation of Hemophilia, 1998.
- Jones P. *Living with Hemophilia*. Oxford: Oxford University Press, 1995.
- Heijnen L, De Kleijn P. Sport. In: Heijnen L, ed. *Recent Advances in Rehabilitation in Haemophilia*. Brighton. East Sussex: Medical Education Network, 1996: 66–72.
- Buzzard B. The physiotherapy management of sport injuries in haemophilia. In: Heijnen L, ed. *Recent Advances in Rehabilitation in Haemophilia*. Brighton. East Sussex: Medical Education Network, 1996: 73–7.
- Jones PM, Buzzard BM. Hemophilia and sport. In: Forbes CD, Aledort L, Madhok R, eds. *Hemophilia*. London: Chapman & Hall, 1997: 133–43.
- Heijnen L. Physical activity and sport for haemophilic patients. In: Bastistella LR, Heijnen L, eds. *Rehabilitation in Hemophilia*. Brighton: MedFax International, 1989: 35–7.
- Gilbert MS, Schorr JB, Holbrook T. *Hemophilia and Sports*. The National Hemophilia Foundation and the American Red Cross, 1984.
- Get Moving*. Hyland Division of Baxter. Baxter Healthcare Corporation, 1995.
- Lozej E. *Maurizio Fa Fisiokinesiterapia I, suoi Giochi I suoi Sports Le sue Vittorie*. Milan: Fondazione dell'emofilia. Manualetto di educazione sanitaria e sociale, N7, 1978.
- Salvini A, Luparelli D, Biondo R. Concezione di se e sport-terapia: indagine su un gruppo di adolescenti emofiliaci. *Movimento* 1987; 3(1): 26–9.
- Koch B, Galioto FM Jr, Kelleher J, Goldstein D. Physical fitness in children with hemophilia. *Arch Phys Med Rehab* 1984; 65(6): 324–6.
- Greenan-Fowler E, Powell C, Varni JW. Behavioral treatment of adherence to therapeutic exercise by children with hemophilia. *Arch Phys Med Rehabil* 1987; 68: 846–9.
- Buzzard BM. Sports and hemophilia antagonist or protagonist. *Clin Orthop Rel Res* 1996; 328: 25–30.
- Seeler R, Ashenhurst J, Miller J. A summercamp for hemophiliacs. *J Pediatr* 1975; 87: 758–9.
- Glomstein A. Nordic sports in the daily life of Norwegian Hemophiliacs. Book of Abstracts. XXI International Congress of the WFH Mexico City, April 24–29, 1994, p. 55.
- Heijnen L, De Kleijn P, Van den Berg M. The role of sports in hemophilia management, theory and practice. Book of Abstracts. XXI International Congress of the WFH Mexico City, April 24–29, 1994, p. 53.
- Korn T. Sports activities for boys with haemophilia—past, present and future. XXII International Congress of the World Federation of Hemophilia Dublin, Ireland, 23–28 June 1996. *Haemophilia* 1996; 2 (Suppl. 1): 121.
- Hartl HK, Höllebrand G, Schublach M, Zauner-Dungl A. Introduction of sport at rehabilitation summercamps for persons with haemophilia in Austria. Abstracts XXIIIth International Congress of the World Federation of Hemophilia. *Haemophilia*, 1998; 4: 221.
- Heijnen L, Mauser-Bunschoten EP, Roosendaal G. Inventory of participation in physical activities and sport by 166 Dutch persons with haemophilia. XXII International Congress of the World Federation of Hemophilia Dublin, Ireland, 23–28 June 1996. *Haemophilia* 1996; 2 (Suppl. 1): 120.
- Heijnen L, et al. In: Rodriguez-Merchan EC. Meeting report: 4th Musculoskeletal Congress of the WFH, Madrid, Spain, 6–9 April 1997. A review of the scientific programme. *Haemophilia* 1997; 3: 298–301.
- Panicucci F. *Lets Meet at Il Ciocco and Discuss Sport with Haemophilia*. January 4–5, 1991; January 4–5, 1992; January 4–5, 1994. International Tourist Centre Il Ciocco, Pisa: offset Grafica.

- 22 Sabbatini AM. The successful introduction of boys with haemophilia into sporting facilities. In. *Meeting Report: Lets Meet at Il Ciocco, January 4-5, 1991*. International Tourist Centre Il Ciocco. Pisa: offset Grafica 1991; 73-9.
- 23 Semboloni D. The programme of the sporting activities carried out at the summercourse in Tirrenia. In. *Meeting Report: Lets meet at Il Ciocco*. eds. Panicucci F. January 4-5, 1991; 107-18. International Tourist Centre Il Ciocco.
- 24 Backx FJG, Swinkels WH, Bol E. *Health Interview Surveys. How Physically (In)active are Dutch Adults During Their Leisure Time*. Gravenhage Maandbericht Gezondheid (CBS) 1994, 3: 4-16.
- 25 Triemstra AHM, van der Ploeg HM, Smit C, Briet E, Rosendaal FR. *Hemofilie in Nederland 4. Verslag van een landelijk onderzoek in 1992 onder mensen met hemofilie*. Amsterdam: VU, Leiden: RUL/AZL, 1994.
- 26 Van den Berg HM, Fischer K, Mauser-Bunschoten EP, Rosendaal G, Nieuwenhuis HK. Long-term outcome of prophylactic treatment of children with severe haemophilia: 25 years of follow up (submitted).
- 27 Sociaal en Cultureel rapport. Rijswijk Sociaal en Cultureel Planbureau, September 1992.

### **Appendix 1: Category 'benefits outweigh risks' sports in *Go For It* [1]**

Abseiling, Acrobatics, Aerobics, Archery, Athletics, Baseball, Basketball, Body building, Canoeing, Climbing, Cricket, Cross country running, Curling, Diving (Recreational B, Competitive C), Fencing, Field events, Gliding, Gymnastics, Horseback riding, Ice skating, Jogging (footing), Karate, Kung Fu, Mountain biking, Multi-gym, Orienteering, Pentathlon, Racquetball (C), River rafting, Rock climbing, Roller blading, Roller skating, Rowing, Running, Scuba diving, Shooting, Skateboarding, Skiing cross country (Nordic), Skiing downhill (Alpine), Snowboarding, Soccer (football), Softball, Squash, Surfing, Tai Chi (A), Tennis, Tobogganing, Tae Kwon Do, Track and field, Trampolining, Volleyball, Water-skiing, Weight training, Windsurfing.