혈우병 환자의 신체활동과 체력평가에 대한 연구

백성환, 이민주, 김미경*

예수병원 소아청소년과

A Study of Physical Activity and Fitness Test of Hemophilia Patients

Seong Hwan Baek, Min Ju Lee, Mi Kyung Kim*

Department of Pediatrics, Presbyterian Medical Center, Jeonju, Korea

Received: 25 July 2018

Revised: 13 August 2018

Accepted: 21 August 2018

*Corresponding author:

Mi Kyung Kim, M.D.
Department of Pediatrics, Presbyterian
Medical Center, 365 Seowon-ro,
Wansan-gu, Jeonju 54987, Korea
Tel: +82-63-230-1390
Fax: +82-63-230-1490
E-mail: kmik7@hanmail.net**Purpose:** The purpose of this study was to investigate physical activity and physical fitness of patients with hemophilia.**Methods:** Patients who attended a camp run by the Korea Hemophilia Association in 2017 were asked to complete questionnaires and a physical fitness test. The questionnaires were the International physical activity questionnaire (IPAQ) and Physical self-description questionnaire (PSDQ). The physical fitness test was evaluated through strength, flexibility, agility, and endurance.**Results:** The mean age of the patients was 39.0 years. The percentages of patients with severe hemophilia, joint surgery, and joint disorder were 85.5%, 77.4%, and 71.0%, respectively. In total, 31% of patients participated in health-enhancing physical activity, and mean total physical activity was 3027 Metabolic Equivalent Task (MET), as assessed by the IPAQ. The physical self-description score was 3.4 as assessed by the PSDQ, and the sub item of self-esteem was high, while endurance was low. In the physical fitness test, muscle strength and agility were poor, and flexibility was good. The physical description score was significantly lower for patients who had experienced joint surgery, joint disorder, and overweight. There was a positive correlation between physical activity and physical self-description.**Conclusion:** Physical activity and exercise are important for both physical and psychological health and have been emphasized in hemophilia treatment with proper prophylaxis therapy. When performing physical activity and exercise, through evaluation of physical fitness and care of a specialist, it is necessary to precisely understand the state of the joints and individual health and to perform physical activities and exercises tailored to the individual, along with attention to bleeding.**Keywords:** Hemophilia, Exercise, Self-concept, Physical fitnessCopyright © Korean Society on Thrombosis
and Hemostasis. All rights reserved.

서론

이전의 혈우병 환자들은 출혈의 위험성 때문에 신체활동이나 운동을 피하고 조심할 것을 권고받아 왔고 응고인자 보충 요법을 시행함에도 불구하고 이러한 시각은 변하지 않았다.¹ 주기적으로 응고인자를 투여하여 자연 출혈을 예방하고 중증도를 개선하는 응고인자 예방요법이 1994년 이후 세계보건기구(World Health Organization, WHO)와 세계혈우연맹(World Federation of Hemophilia, WFH)에 의해 중증 혈우병 환자를 위한 합리적인 치료법으로 권장되었고, 이후 예방요법으로 인하여 환자들이 거의 모든 운동과 신체 활동이 가능해지고 삶의 질이 획기적으로 개선되었다.^{1,2}

혈우병 환자들의 정기적인 운동은 근력, 관절 안정성, 협응력(Co-ordination)을 향상시켜 근골격계 출혈을 예방하고 줄일 뿐만 아니라 자존감 향상, 사회 참여 등에도 도움을 준다. 그러나, 2010년 아일랜드의 13세에서 63세까지 61명의 혈우병 환자들의 신체활동과 운동 참여에 관한 연구에서 절반가량의 혈우병 환자가 건강증진 신체활동을 하고 있었지만, 중증 환자들 중 30%는 매우 낮은 정도의 신체활동을 하고 있었다.³ 2000년 미

국혈우협회(National Hemophilia Foundation, NHF)와 미국 질병통제예방센터(Center for disease control and prevention, CDC)가 13세에서 21세의 젊은 혈우병 환자들 110명을 대상으로 조사한 연구에서 60%의 환자들이 혈우병의 치료와 합병증을 줄이기 위해서 신체활동을 제한하거나 피해야 한다고 하였고, 36%의 환자들이 관절의 손상을 예방할 수 없다고 하였다. 단지 27%의 환자들만이 출혈을 예방하기 위해 운동을 한다고 하였고, 출혈과 관절 손상에 대한 걱정으로 신체활동을 피하며, 운동의 역할을 제대로 모르고 있었다.⁴

앞선 연구에서 살펴보았을 때 응고인자 치료가 확대되어 감에도 불구하고 혈우병 환자들의 신체활동과 운동참여 등은 일반인보다 제한적이었고, 국내에서는 혈우병 환자들의 신체활동과 운동참여 등에 대한 연구는 부족한 실정이다. 이에 본 연구는 혈우병 환자들의 신체활동량과 자기인식, 체력 등을 조사하고, 이와 관련된 요인들을 분석하여 환자들에게 적절한 혈우병 치료와 병행하는 신체활동과 운동에 대한 지침을 제시하고자 한다.

대상 및 방법

본 연구는 2017년 한국고혈협회(Korea Hemophilia Association, KOHEM) 여름캠프에 참가한 혈우병 환자 중 연구 참여에 동의한 62명을 대상으로, 총 61문항의 자가 보고식 설문지와 15분가량의 체력평가를 시행하여 자료를 수집하였다.

설문지는 혈우병환자의 일반적 특성과 병력에 관한 설문지, 신체활동량을 측정하기 위한 국제신체활동설문지 한국어판(International Physical Activity Questionnaire, IPAQ), 자신의 신체를 어떻게 인식하는지를 알기 위한 신체적 자기개념 설문지(Physical Self-Description Questionnaire, PSDQ)로 구성하였다.

환자의 일반적 특성과 병력으로는 나이, 키, 몸무게, 결핍된 혈액응고인자 종류와 중증도, 예방요법 여부, 관절 수술 여부와 관절장애 유무 등을 조사하였다.

신체활동량 산출방법은 지난 7일 동안의 앉아서 보낸 활동, 걷는 활동, 평소보다 약간 호흡이 힘들어지는 중간 정도의 신체활동, 평소보다 훨씬 호흡이 힘들어지는 격렬한 신체활동의 시간을 측정한 후 안정 시 에너지 소비량을 나타내는 대사당량(Metabolic Equivalent of Task, MET)으로 환산하여 연속형 점수를 계산하고 세 가지 범주로 나누었다. 연속형 점수의 총 신체활동 점수는 걷기 MET와 중등도 활동 MET, 그리고 격렬한 활동 MET를 합한 점수로 계산하였다.⁵

신체활동량 연속형 점수

- 걷기 MET = 3.3 (MET level) × 걸은 시간(min) × 일(day)
- 중등도 활동 MET = 4.0 (MET level) × 중등도강도 활동시간(min) × 일(day)
- 격렬한 활동 MET = 8.0 (MET level) × 격렬한강도 활동시간(min) × 일(day)

신체활동량 범주

- 비활동(Category 1): 신체 활동의 가장 낮은 단계로 최소한의 활동 범주와 건강증진 신체활동 범주에 포함되지 않는 대상자들이 여기에 포함된다.
- 최소한의 활동(Category 2): 다음 3가지 중 하나를 만족하는 경우
 1. 20분 이상 격렬한 활동 3일 이상
 2. 30분 이상 중등도 활동 또는 걷기를 일주일에 5일 이상
 3. 걷기, 중등도 활동, 격렬한 활동을 주5일 이상 실시하여 일주일에 600 MET 이상 활동
- 건강증진 신체활동(Category 3): 다음 2가지 중 하나를 만족하는 경우
 1. 적어도 3일 이상 격렬한 활동을 하고 최소 일주일에 1,500 MET 이상 활동
 2. 7일 이상 걷기, 중등도 활동, 격렬한 활동을 합하여 일주일에 3,000 MET 이상 활동

신체적 자기개념 설문지는 2009년 교육부에서 발간한 학생건강체력평가에서 사용한 20문항을 사용하였으며, 문항은 스포츠유능감, 날씬함, 외모, 건강, 신체활동, 자기존중감, 유연성, 지구력, 근력, 신체 전반적인 평가의 10가지 요인으로 구성되어있고, 각 문항은 1점(전혀 아니다)부터 6점(매우 그렇다)까지 6점 척도에 응답하게 되어 있고 부정문으로 설정된 문항은 역으로 채점하였다. 각 요인에 해당하는 모든 문항의 점수를 합산한 후 20으로 나누어 평균점수를 구하였고, 최고점수는 6점이며 평균 점수

가 높을수록 신체적 자기개념이 높고 긍정적이라고 해석한다.⁶

체력평가는 2010년 문화체육관광부에서 발간한 성인기 국민체력인증 기준 개발의 체력평가 항목 중 근력, 유연성, 순발력, 전신지구력을 평가하였다. 근력은 악력, 유연성은 앉아 윗몸 앞으로 굽히기, 순발력은 제자리멀리뛰기, 전신지구력은 테쿰세 스텝검사를 시행하여 평가하였고, 체력평가 순서는 악력, 앉아 윗몸 앞으로 굽히기, 제자리 멀리 뛰기, 스텝검사 순서로 실내에서 시행하였다.^{7,8} 검사 시행 전 환자에게 주의사항, 검사의 위험성 등에 대하여 설명하였고, 관절 상태를 점검하여 체력 평가 항목 중 실시하기 어려운 항목의 경우나 환자가 동의하지 않는 경우는 시행하지 않았다.

악력은 아날로그 악력계(T.K.K 5001; Takei Scientific Instruments Co., Tokyo, Japan)를 사용하여 서 있는 자세에서 양팔을 내리고 두 발을 자연스럽게 벌린 다음 악력계가 신체나 옷에 닿지 않도록 하고 악력계의 손잡이를 잡고 양손의 악력을 각각 2회 측정하여 높은 수치를 기록하고, 그 값을 체중으로 나누고 100을 곱하여 구하였다. 앉아 윗몸 앞으로 굽히기는 좌전굴 측정기(KL-117; KL Sports Industry Co., Anyang, Korea)를 사용하였고 신발을 벗고 양발 바닥이 측정 기구의 수직면에 완전히 닿도록 무릎을 펴고 바르게 앉아 양 발 사이의 거리가 5 cm가 넘지 않도록 하고 양 손 끝으로 반동을 주지 않으며 똑바로 검사 기구를 밀어서 측정하였다. 측정결과를 cm 단위로 기록하고 기준선에 미치지 못할 때는 “-” cm로 기록하였고, 이를 2회 시행하여 높은 값을 택하였다. 제자리멀리뛰기는 피험자가 발구름판 위에서 팔, 몸, 다리로 충분히 반동을 주어 가능한 멀리 뛰고, 발구름판에서 발뒤꿈치의 착지점까지의 직각거리를 cm 단위로 측정하고 이를 2회 실시 하여 높은 값을 택하였다. 테쿰세 스텝 검사는 20.3 cm 높이의 발판을 1분당 24회의 속도로 3분간 오르내린 후 1분 동안 쉬어 운동 후 1분 회복기 심박수를 구하였다. 결과는 악력, 제자리멀리뛰기, 앉아 윗몸 앞으로 굽히기는 성인기 국민체력 인증기준 개발의 기준을 따라 매우 우수, 우수, 보통, 미흡, 매우 미흡 5단계로 나누었다. 스텝검사는 1분 회복기 심박수를 측정하여 평가하였다.^{7,8}

통계처리는 SPSS for Windows (version 22.0, SPSS Inc., Chicago, IL, USA) 프로그램을 사용하였다. 자료의 연속변수는 빈도와 백분율, 평균, 표준편차로 나타냈으며 혈우병 환자의 일반적 특성에 따른 신체활동량, 신체적 자기개념, 체력평가의 차이검증은 Independent t-test, One-way ANOVA으로 분석하고 집단 내 차이에 대한 사후 검증은 Scheffe Test로 검증하였고 신체활동량, 신체적 자기개념, 체력평가의 상관관계는 Pearson's Correlation coefficient로 분석하였다. 통계학적 의미는 $P < 0.05$ 인 경우 유의성이 있는 것으로 판정하였다.

본 연구는 예수병원 의학윤리심의위원회(IRB)의 승인을 받아 진행되었다. 연구와 관련하여 저자들은 이해관계가 없음을 명시하는 바이다.

결과

환자의 일반적 특성과 병력

연구에 참여한 혈우병 환자는 총 62명이고 모두 남자였다. 연령은 평균 39.0 ± 15.5 세(범위, 12-76세)이며, 25세 이하가 13명이고 25세 이하의 평균 연령은 18.4세였다. 평균 Body Mass Index (BMI)는 23.2 ± 4.0 kg/m²이었고, 비만은 6.4% (4/62), 과다체중은 19.4% (12/62), 정상체중은 66.1% (41/62), 18.5 미만의 저체중은 8.1% (5/62)였다. 8인자가 결핍된 환자는 85.5% (53/62), 9인자가 결핍된 환자는 14.5% (9/62)였고, 응고인자 활성도가 1% 미만인 중증환자는 85.5% (53/62), 1-5%인 중등증환자는 11.3% (7/62), 5% 이상인 경증환자는 3.2% (2/62)로 중증환자가 많았다. 예방요법을 시행중인 환자는 88.7% (55/62)였고, 이 중 1년에 52주 이상 지속적

Table 1. Characteristics of study population (N=62)

Variable	No. of patients (%)
Family Age (year)	
10-19	6 (9.7)
20-39	28 (45.1)
40-59	21 (33.9)
60 ≤	7 (11.3)
BMI	
Obese (30 ≤)	4 (6.4)
Overweight (25.0-29.9)	12 (19.4)
Normal (18.5-24.9)	41 (66.1)
Underweight (< 18.5)	5 (8.1)
Factor deficiency	
Factor VIII	53 (85.5)
Factor IX	9 (14.5)
Severity of hemophilia	
Severe	53 (88.5)
Moderate	7 (11.3)
Mild	2 (3.2)
Prophylaxis	
Yes	55 (88.7)
No	7 (11.3)
Joint surgery	
Yes	48 (77.4)
No	14 (22.6)
Joint disorder	
Yes	44 (71.0)
No	18 (29.0)

BMI, Body Mass Index.

예방요법을 시행하는 환자가 78.1% (43/55), 그 이하의 예방요법을 시행하는 환자가 21.8% (12/55), 운동 전 등 필요 시 예방요법을 시행하는 환자는 없었다. 이외 출혈이나 외상 후 보충요법을 실시하는 환자가 11.3% (7/62)이었다. 관절수술을 받은 경험이 있는 환자는 77.4% (48/62)였으며, 현재 하나 이상의 관절에서 통증 및 운동제한을 호소한 환자가 71.0% (44/62)였다(Table 1). 평소 하는 운동은 걷기 25명, 수영 8명, 근력운동 6명, 자전거 5명, 그 외 달리기, 볼링, 축구, 탁구 등이 있었다.

환자의 신체활동량

본 연구에서 혈우병 환자의 평균 총 신체활동량은 3,027 MET였고, 격렬한 신체활동량은 1,597 MET였고, 중등도 신체활동량은 440 MET고, 걷기량은 990 MET였다. 신체활동을 범주로 분류한 결과 건강증진 신체활동이 31% (19/62), 최소한의 활동은 38% (24/62), 비활동이 31% (19/62)가 해당하는 것으로 나타났다(Table 2).

환자의 신체적 자기개념 정도

연구에 참여한 혈우병 환자의 신체적 자기개념 수준은 평균 3.4 ± 0.8 점이었다. 10개의 신체적 자기개념의 하위 항목 중 자기존중감(4.9점)이 가장 높았고, 다음으로 건강(4.4점), 체지방(4.3점), 외모(3.5점)순이었다. 운동이나 신체활동과 관련된 지구력(2.4점), 근력(2.7점), 스포츠유능감(2.8점)은 낮았다.

Table 2. The physical Activity of the study population Using IPAQ (N=62)

Type of the physical activity	MET, min/week (Mean ± SD)
Total physical activity	3,027 ± 4,046
Vigorous activity	1,597 ± 3,794
Moderate activity	440 ± 1,250
Walking activity	990 ± 961
Categorization by the physical activity	n (%)
Inactive, not 2 or 3 (Category 1)	19 (31)
Minimally active (Category 2)	24 (38)
Health enhancing physical activity (Category 3)	19 (31)

IPAQ, International physical activity questionnaires; MET, Metabolic Equivalent Task.

Table 3. Details of physical fitness test in study population

Grade	Strength (n=55)	Flexibility (n=52)	Agility (n=24)
Very excellent	1 (1.8)	4 (7.7)	0 (0.0)
Excellent	7 (12.7)	16 (30.8)	0 (0.0)
Ordinary	26 (47.3)	19 (36.5)	0 (0.0)
Insufficiency	12 (21.8)	9 (17.3)	3 (12.5)
Very insufficiency	9 (16.4)	4 (7.7)	21 (87.5)

Data are presented as number (percentage).

환자의 체력평가

체력평가는 악력 55명, 앉아 엇몸 앞으로 굽히기 52명, 제자리멀리뛰기 24명, 스텝검사 37명을 실시하였다. 악력은 보통(47.3%)과 미흡(21.8%)이, 앉아 엇몸 앞으로 굽히기는 우수(30.8%)와 보통(36.5%)이, 제자리멀리뛰기는 미흡(12.5%)과 매우 미흡(87.5%)이 많았다. 근력과 순발력은 떨어졌고, 유연성은 좋았다(Table 3). 스텝검사의 평균 1분 회복기 심박수는 84.5 ± 17.4 회/분이었다.

일반적 특성에 따른 신체 활동량, 신체적 자기개념, 체력평가의 차이

혈우병 환자의 일반적 특성에 따른 신체활동량, 신체적 자기개념, 체력평가의 차이를 보았을 때 수술하지 않은 환자의 신체적 자기개념점수는 4.0 점이고 수술한 환자는 3.2점으로 수술하지 않은 환자가 유의하게 신체적 자기개념이 높았다($P=0.001$). 관절장애가 없는 환자의 신체적 자기개념 점수는 3.85점으로 관절장애가 있는 환자의 3.23점보다 유의하게 높은 결과를 보였다($P=0.038$). 저체중군, 정상체중군, 과다체중과 비만군으로 나누었을 때 과다체중과 비만군(2.84점)이 저체중군(3.91점), 정상체중군(3.58점)보다 유의하게 신체적 자기개념이 낮았다($P=0.002$). 혈우병 환자의 결핍된 응고인자 종류, 중증도, 예방요법 여부는 신체적 자기개념에서 유의한 차이가 없었고, 일반적인 특성에 따른 신체 활동량과 체력평가의 유의한 차이는 없었다(Table 4).

신체활동량, 신체적 자기개념, 체력평가 간의 상관관계

신체활동량의 연속형 점수가 높을수록 신체적 자기개념이 유의하게 높았으며($P=0.04$), 스텝검사에서의 1분 회복기 심박수가 낮아 지구력이 좋았다($P=0.04$). 신체활동량과 나머지 체력평가 항목인 근력, 순발력, 유연성은 유의한 상관관계가 없었고, 신체적 자기개념은 체력평가와 유의한 상관관

Table 4. Physical activity levels and physical self-description by the characteristics of study population

Characteristics	Categories	Physical activity levels (MET)		Physical self-description	
		M±SD	P-value*	M±SD	P-value*
BMI	Overweight & obesity	3,485±3,865	0.448	2.8±0.8	0.002 b, c>a
	Normal	3,104±4,296		3.6±0.8	
	Underweight	605±278		3.9±0.4	
Severity of hemophilia	Severe	2,958±4,170	0.311	3.4±0.8	0.768
	Moderate	2,656±3,397		3.0±0.8	
	Mild	3,360		4.0	
Prophylaxis	Yes	2,958±4,170	0.719	3.4±0.8	0.174
	No	3,656±3,397		3.0±0.8	
Joint surgery	Yes	2,832±3,084	0.516	3.2±0.7	0.001
	No	3,675±6,417		4.0±0.8	
Joint disorder	Yes	2,324±2,464	0.147	3.2±0.8	0.005
	No	4,788±6,285		3.9±0.7	

*Analysis by Independent t-test, One-way ANOVA.
MET, metabolic equivalent task; BMI, body mass index.

Table 5. Relationships among physical activity, physical self-description, and physical fitness test

		Physical activity levels (MET)	Physical self-description	Physical fitness test			
				Strength	Flexibility	Agility	Endurance
Physical activity levels (MET)	r [†]	1	0.271	-0.163	-0.066	-0.401	-0.359
	P-value*		0.043 [‡]	0.258	0.657	0.064	0.040 [‡]
Physical self-description	r [†]	0.271	1	-0.164	-0.184	-0.160	-0.285
	P-value*	0.043 [‡]		0.231	0.191	0.454	0.088

*Analysis by Pearson's Correlation coefficient; [†]Pearson correlation; [‡]P<0.05.

계가 없었다(Table 5).

고찰

일반적으로 규칙적인 신체활동은 근력, 지구력 및 유연성 등 건강 관련 체력 요소의 증가와 비만 예방에 긍정적인 영향을 미치는 것으로 보고되고 있고, 우울, 생활 만족도, 지각된 건강수준 및 삶의 질 등의 정신건강에도 긍정적인 영향을 미치고 있음이 보고되고 있다.⁹ 또한, 혈우병 환자에게 운동은 근력, 지구력, 균형감을 향상시키고, 관절의 가동범위와 유연성을 늘리고, 건강한 몸무게를 유지시켜 관절의 부담을 줄인다. 건강한 관절은 혈우병 환자가 사회에 참여할 수 있게 하고, 직무 능력과 학업 성취를 향상시키고, 사회적으로는 의료비를 감소시킨다. 이에 최근에는 혈우병 치료에 있어서 건강한 신체활동과 운동이 적절한 응고인자 치료와 더불어 강조되고 있다.¹⁰

본 연구에서 혈우병 환자들의 평균 신체활동량은 3,027 MET이었고, 신체활동량을 범주로 분류한 결과 건강증진신체활동이 31%, 최소한의 활동이 38%, 비활동이 31%이었다. 신체활동량을 조사한 국내 연구로 2015년 Jeon 등¹¹이 국민건강영양조사 6개년(2008-2013년) 자료를 분석한 연구에서 19세 이상의 성인 남성 15,494명은 건강증진신체활동이 18%, 최소한의 활동이 45%, 비활동이 37%로 본 연구의 혈우병 환자가 일반적인 성인 남성보다 건강증진 신체활동에 비교적 많이 참여했다. 2012년 Kim과 Lee가 한국 성인 남성의 신체활동과 건강관련 요인의 관계를 본

연구에서 만성질환인 고혈압이 있는 경우 신체활동량이 높게 나타나고 비만, 고혈압이나 당뇨병 진단을 받은 환자의 경우 규칙적인 신체활동을 해야 한다는 인식이 강하다고 하였다.⁹ 이처럼, 평생 응고인자 치료를 받아야 하는 혈우병 환자도 지속적인 교육과 치료를 통해 건강행위에 대한 관심이 증가되어 신체활동량이 많은 것으로 보인다.

혈우병 환자의 신체 활동량에 관한 연구로는 2010년 Sherlock 등이 16세부터 69세까지의 61명의 중증, 중등증, 경증의 혈우병 환자를 대상으로 신체 활동량을 조사한 연구에서 건강증진 신체활동이 46%, 최소한의 활동 27%, 비활동 26%로 건강증진 신체활동에 참여한 환자가 많았고, 2012년 Nader 등이 18세부터 72세까지의 42명의 중증과 중등증의 혈우병 환자를 대상으로 골밀도를 조사한 연구에서는 건강증진신체활동이 22%, 최소한의 활동 31%, 비활동 47%로 비활동에 참여한 환자가 많았으며, 본 연구에서는 세 범주가 비슷한 비율을 보였다.^{3,12} 이처럼 혈우병 환자를 대상으로 한 연구마다 신체활동 정도가 다양하게 나온 것은 연구의 대상자 수가 적고, 연구마다 환자들의 혈우병성 관절병증과 장애 정도, 중증도가 다르며 주관적으로 보고하는 설문지법을 사용하였기 때문이라고 생각해 볼 수 있다. 이러한 연구의 한계를 극복하기 위하여 2016년 Bouskill 등은 5세부터 17세까지의 66명의 중증, 중등증, 경증의 혈우병 환자의 신체활동 패턴에 관한 연구에서 액셀러로메트리(Accelerometry)를 사용하여 환자들의 1주일간의 신체활동량과 강도를 객관적으로 측정하여 신체활동량을 조사하였다. 이 연구에서 중증의 혈우병 환자들은 예방요법을 모두 시행하고 있었고, 매일 최소 1시간의 중등도 또는 격렬한 활동을 거의 수

행하고 있어 캐나다 운동생리학회(Canadian Society Exercise Physiology, CSEP)가 5세부터 17세의 환자들에게 권고하는 신체활동량을 만족하고 있었다. 이들이 신체활동을 많이 할 수 있는 이유로 혈우병 센터에서 예방요법을 시행하고 있으며, 치료의 일환으로 신체활동을 중요하게 카운슬링하고 있다는 것을 들고 있다.¹³ 또한, Sherlock 등³은 정기적인 신체활동을 하면 일반적인 건강의 이득뿐만 아니라 혈우병 환자의 상태에 따라 근력, 관절의 안정성, 협응력을 향상시키고 근골격계 출혈을 줄일 뿐만 아니라 자신감과 사회 참여도 늘리는 등의 특별한 이득도 얻을 수 있다고 하였다. Bouskill 등¹³도 정기적인 운동은 지방량과 몸무게를 줄이고 유산소 운동능력과 근력을 강화하고 골밀도를 늘려 운동 중의 출혈 위험도 감소시킨다고 하였다. 이에 여러 나라의 건강관련 기구에서 혈우병 환자들의 신체활동과 운동에 대해 권고하고 있는데, 2012년 WFH의 *Guidelines for the Management of Hemophilia*와, 2012년 캐나다 혈우 협회(Canadian Hemophilia Society, CHS)의 *Destination Fitness*에서 정기적인 신체활동과 운동참여를 권고하고 있다.¹⁵ 2005년 NFH와 CDC의 혈우병 환자들의 운동참여 가이드라인인 *Playing it safe*에서는 정기적인 신체활동의 중요성을 강조하고 새로운 운동을 시작하기 전 혈우병 센터에서의 상담과 적절한 응고인자의 투여 등이 필요하다고 하였다.^{14,16} 2012년 NHF의 *Wellness in persons with bleeding disorder*에서는 6세에서 17세의 아이와 청소년들은 매일 1시간 이상의 유산소 신체활동과 일주일에 적어도 3회 정도의 근력 강화 신체활동을 해야 하고, 18세부터 64세의 성인은 일주일에 적어도 150분 이상의 중등도 유산소 신체활동과 근력 강화 신체활동을 주 2회 실시하라고 권고하고 있다.¹⁰ 2014년 Seuser 등¹⁷은 273명의 혈우병 환자와 건강한 대조군의 관절 움직임 등을 비교한 연구에서 혈우병 환자는 1주에 30-120분, 2-4회 운동을 해야 하고 수영이 관절에 과부하와 출혈의 위험이 낮아 가장 좋은 운동이라고 하였다. 운동은 관절의 구조적인 변화를 방지하기 위해 가능한 일찍 시작되어야 하며, 구조적인 변화를 예방하면 전반적인 건강, 자세 균형(Postural balance), 관절의 가동범위, 근력이 향상되어 혈우병성 관절병증의 위험을 감소시킨다고 하였다.

혈우병 환자들에게 가장 적합한 신체활동과 운동종목에 대한 통합된 지침은 없으나, 혈우병 환자들에게 가장 많이 추천되는 비교적 안전한 운동은 수영이며 걷기, 달리기 그 다음으로 추천된다.^{17,18} 과다한 신체 접촉이 있어 위험한 운동으로 추천되지 않는 것은 복싱, 하키, 트램펄린, 레슬링 등이 있다.¹⁴ 모든 운동에서 출혈이 발생할 수 있으나 예방요법을 통해 어느 정도의 출혈을 미리 예방할 수 있다. 운동 전 10분에서 15분을 넘지 않는 워밍업과 스트레칭이 필요하고 운동 후 통증이나 출혈 여부에 상관없이 사용한 관절과 주변 근육에 5-10분간의 냉찜질을 시행하도록 해야 한다.² 본 연구에서 혈우병 환자들이 평소 하는 운동은 걷기가 25명, 수영이 8명, 자전거 5명이었고, 이외 축구를 한다고 답한 사람도 있었다. 이와 유사하게 2009년 Tiktinsky 등¹⁸이 이스라엘에서 시행한 12세부터 25세의 젊은 중증 혈우병 환자들의 신체 활동 참여와 출혈의 특성에 관한 연구에서 걷기, 달리기, 야구가 가장 많이 하는 운동이었다. 그리고 2001년 Choi¹⁹가 국내 1,841명의 중, 고등학생을 대상으로 선호하는 운동을 조사하였을 때, 남학생 중 77%가 축구를, 16%가 농구를 답하여 남자 청소년들은 경쟁적이고 신체 접촉이 있는 운동을 선호한다고 하였다. 이전까지 혈우병 환자들에게 이러한 운동은 출혈의 위험이 있어 참여하지 않도록 권고하고 있었지만, 2017년 Maffet 등²⁰이 보고한 증례에서 전미 대학 체육 협회 디비전1에 2시즌 동안 참여한 20세의 혈우병 농구선수가 소개되었다. 그는 접촉 위험이 있는 운동에 참여할 때의 주 3회 25-30 mg/kg의 응고인자제제를 투여하여 혈중 응고인자VIII 농도를 3-5%로 유지하였고, 경기 1-2시간 전에 40 mg/kg의 응고인자제제를 추가로 투여하여 경기에

참여할 수 있었다. 이처럼 환자의 상태와 운동 종목에 맞는 개별화된 치료 방법으로 혈우병 환자가 참여할 수 있는 운동의 범위가 다양하게 늘고 있다. 운동을 시행함에 있어 가장 중요한 점은 혈우병 환자 본인이 흥미가 있고 원하는 운동을 즐기며 참여하는 것이고, 환자 개인의 관절의 가동범위, 관절을 이루는 인대의 안정성, 근력의 강도, 그리고 신체의 전반적인 상태를 전문의가 정확하게 판단한 후 적절한 응고인자 주사 치료방법, 적절한 운동의 시간과 횟수 등을 결정하여, 재활이나 운동전문가의 감독하에 운동을 실시하면 운동으로 인한 손상을 미리 예측하고 방지하여 안전하게 운동을 할 수 있을 것이다.

혈우병 환자들은 언제 출혈이 나타날지 모르고 이로 인한 근골격계 장애 등 합병증이 발생하여 일상적 삶에서 이탈될 수밖에 없는 불확실한 상황에 놓여 있어 삶의 질과 자신감 등 정신건강에 영향을 받고 있다.²¹ 이에 본 연구에서는 혈우병 환자에게 문제가 될 수 있는 건강상태, 신체능력, 자기 신체에 대한 자신의 견해 등을 나타내는 신체적 자기개념을 조사하였다. 본 연구의 혈우병 환자들의 신체적 자기개념 점수는 평균 3.4점이었는데, 이는 2001년 Kim⁶이 국내 남자 중학생 384명을 조사한 결과인 평균 3.84점보다 낮았으며, 신체적 자기개념의 하위 항목들을 비교하여 보았을 때, 본 연구에 참여한 혈우병 환자의 신체활동과 체력에 관계되는 지구력, 근력, 스포츠유능감은 신체적 자기 개념이 낮았고, 자기존중감, 외모 항목은 높았다. 또한, 2005년 Kim 등²¹이 국내 218명의 중증과 중등도의 혈우병 환자의 삶의 질 정도와 영향을 미치는 요인에 대한 연구에서 혈우병 환자들의 삶의 질 정도는 국내 중년 남성의 삶의 질 정도와 비슷했고 삶의 질은 관절 장애, 건강문제, 우울 정도가 영향을 준다고 하였고, 삶의 질의 하위 요인 중 건강은 낮고 자아존중감은 높아 본 연구와 유사한 결과를 보였다. 자아존중감은 개인이 자신에 대해 긍정적으로 지각하고 있는 정도를 의미하며 삶의 만족도에 있어 중요한 변인으로 작용한다고 알려져 있다.⁶ 따라서, 혈우병 환자들의 자아존중감과 긍정적인 정서상태를 잘 유지할 수 있도록 혈우병 치료뿐만 아니라 환자의 나이나 상황에 따른 정서 문제들을 잘 해결할 수 있도록 상담이나 자아존중감 향상 프로그램, 가족, 친구들의 적극적인 지지가 필요하며, 적절한 직업과 사회활동 등에 참여할 수 있는 교육과 지원이 필요하겠다.

2007년 독일에서 Seuser는 233명의 혈우병 환자를 대상으로 Five-item Fitness check test라는 도구를 통하여 다섯 가지의 체력 요소인 근력, 유연성, 지구력, 협응력, 신체 지방량을 평가하는 체력 평가를 시행하였고, 평가 결과에 따라 3가지 운동을 적용하였는데 근력, 유연성, 협응력이 좋은 환자에게는 펜싱을, 지구력과 협응력이 좋은 환자에게는 인라인 스케이트를, 평균적인 체력을 가지고 있는 환자에게는 수영을 추천하여 운동하게 하였다. 1년 후 체력 재평가를 시행한 결과 정기적으로 운동한 혈우병 환자들은 유연성을 제외한 대부분의 체력평가 항목에서 향상되었다.²² 혈우병 환자의 체력을 평가함으로써 환자는 자신의 체력 상태를 객관적으로 알게 되어 과다한 운동과 부상을 피할 수 있고, 정기적인 체력 재평가를 통하여 운동의 효과를 직접 확인하고 운동에 대한 동기도 부여될 수 있다. 의료진들은 체력 평가를 통하여 환자의 체력 중 부족한 요소를 강화하고 안전하게 즐길 수 있는 운동을 추천할 수 있고, 또한 운동 종목이나 시간에 따라 적절한 응고인자 치료를 하여 혈우병 환자가 일반인과 비슷하게 운동에 참여할 수 있게 하고, 삶의 질 향상에도 도움을 주게 된다.

체력 평가 항목 중 근력은 근육 또는 근육군이 한 번의 최대 노력으로 발휘할 수 있는 힘으로 정의되며, 본 연구에서 혈우병 환자를 대상으로 실시한 체력평가 항목 중 약력은 보통, 미흡에 속하는 환자가 많았는데, 이는 2001년 Hilberg 등²³이 혈우병 환자 12명과 혈우병이 없는 12명의 대조군을 대상으로 정적 근력을 측정한 선행 연구에서 혈우병 환자가 대조군

보다 정적 근력이 떨어진다고 확인한 것과 유사한 결과였다. Kargarfard 등²⁴은 혈우병 환자들은 반복되는 관절 출혈로 발생한 통증으로 관절의 움직임이 줄고 관절 주위의 근육을 덜 사용하여 근력이 감소한다고 하였고, 특히 하지의 근력이 더 부족하였다. 환자들은 이미 약해진 관절 주변의 근육을 강화시키기 위한 운동을 시행하여 근력을 강화시키고, 관절의 안정성을 증가시켜 자연 출혈을 줄여야 한다고 하였다. 유연성은 각 관절의 구조 및 근육의 신전성 등에 의해 결정되는 관절의 가동범위이고 유연성을 평가한 앉아 엎몸 앞으로 굽히기는 본 연구에서는 우수와 보통에 속하는 환자가 많았고, Seuser 등¹⁷은 8세부터 25세까지 혈우병 환자들의 유연성을 평가하였을 때 특히 하지의 유연성이 매우 낮다고 하였다. 지구력은 신체활동을 지속할 수 있는 능력을 말하며, 여기에는 호흡계나 순환계의 역할이 대단히 중요하다. 본 연구에서는 혈우병 환자들이 관절병증을 가진 환자가 많다는 점을 고려하여 노인이나 질환이 있는 사람에게도 평가에 무리가 없는 저항도 스텝 검사인 테쿰쉐 스텝검사를 시행하였고, 스텝검사에 대한 명확한 비교 기준이 없어 결과를 객관화하기가 힘들었다. 본 연구에 참여한 혈우병 환자들의 평균 1분 회복기 심박수는 84.5 ± 17.4 회/분이었다. 본 연구와 동일한 테쿰쉐 스텝 검사를 사용한 국내 연구인 2006년 Lee 등²⁵이 보고한 40-60대의 남녀 당뇨병 환자군과 대조군 연구와 비교하였을 때, 당뇨병환자의 회복기 평균 심박수는 93.6 ± 11.0 회/분이었고 대조군은 84.7 ± 11.8 회/분으로 나타나 본 연구의 혈우병 환자들은 당뇨병 환자보다 지구력이 좋고 대조군과 비슷하였다. 혈우병 환자의 지구력을 측정할 연구로는 2009년 Hilberg²⁶가 혈우병 환자 11명과 대조군 11명을 대상으로 Treadmill test를 사용한 연구에서 혈우병 환자들이 건강한 대조군보다 지구력이 떨어진다고 하였다. 이에 수영, 걷기, 달리기, 자전거 타기 등의 유산소 운동은 관절, 근육뿐만 아니라 심폐계의 기능을 강화하여 높은 심폐지구력을 발휘할 수 있도록 할 뿐만 아니라 혈우병 환자의 기대 수명이 늘어나면서 문제가 되고 있는 고혈압, 협심증, 심근경색 등 심혈관 질환이나 당뇨 비만 등 성인병 예방에도 효과가 있는 것으로 알려져 있어 추천되고 있다. 마지막으로 순발력은 근육이 수축하며 단시간 내에 일을 하는 근육의 능력이다. 본 연구에서 순발력을 보기 위해 시행한 제자리멀리뛰기는 주로 무릎, 발목 등 하지 관절의 혈우병성 관절병증으로 인하여 통증과 장애가 있는 환자들은 시행하기가 힘들어 24명의 환자만 시행하였고 참여한 환자들의 평가 결과도 미흡과 매우 미흡에 속하는 환자가 많아 순발력이 떨어졌다. 향후 연구에서는 일반적으로 제자리멀리뛰기나 제자리 높이뛰기와 같은 순발력을 보는 검사보다는 한 발로 서서 균형잡기 등과 같은 평형성 등을 평가하는 것이 혈우병 환자들에게 좀 더 적합한 체력 평가로 생각된다.

본 연구의 혈우병 환자들은 과다체중 및 비만한 환자와 관절 수술을 한 환자에서 통계적으로 유의하게 신체적 자기개념이 낮았는데 이는 2010년 Lee와 Park²⁷이 고등학생의 비만 정도에 따른 신체적 자기개념의 차이를 조사한 연구에서 비만한 집단의 신체적 자기개념이 낮게 나온 것과 2018년 Nam 등²⁸의 연구에서 장루 수술 후 손상된 자존감과 감소된 자신감을 경험하는 경향이 있다고 한 것과 유사한 결과였다. 또한, 본 연구에서 관절 장애가 있는 환자는 유의하게 신체적 자기개념이 낮았는데, 이는 Kim²⁹이

관절염이 발생하면 삶의 가치감 상실, 무력감 등 부정적인 심리적 변화를 경험한다고 한 것과 유사한 결과였다. 혈우병성 관절병증에서 무릎, 발목 등의 하지의 관절 손상이 많고, 이러한 신체활동량을 감소시키고 부정적인 심리변화를 일으키는 혈우병성 관절병증을 예방하기 위한 방법으로는 출혈이 없더라도 정기적으로 혈액응고체제를 투여하는 예방요법이 있다.³⁰ 예방요법을 실시하는 환자들은 예방요법을 시행하지 않은 환자에 비하여 관절의 손상, 관절 출혈, 통증이 줄어들고 관절가동범위와 근력 신체적 기능과 전신적인 건강 상태가 호전된다.¹⁷ 이와 더불어 출혈이 발생한 이후의 치료도 중요하다. 같은 관절에 반복되는 출혈이 일어나면 표적관절(Target joint)이 생기게 되고 결국에는 만성 관절염, 연골과 골단의 손상을 초래하게 된다. WFH에서는 급성 출혈은 가능한 한 2시간 이내에 치료해야 한다고 하고 있으나 본 연구에서 70%의 환자가 출혈이 발생한 후 2시간 이내에 응고인자제제를 투여한다고 하여 급성 출혈에 대한 응고 인자 치료가 30%의 환자들에서는 늦어지고 있음을 알 수 있었다.¹⁶ 이에 혈우병 환자들에게 눈에 보이는 급성 출혈뿐만 아니라 통증이나 부종 등의 출혈 의심 증세를 무시하지 않고 응고 인자 치료를 신속히 할 수 있도록 교육하는 것이 필요하겠다. 그뿐만 아니라 혈우병 지정 병원의 확대와 응고 인자 제제가 지역병원들에 구비될 수 있도록 확대 보급하며, 응급 상황 시 검사와 처치 이전에 응고인자 제제가 먼저 사용될 수 있도록 혈우병 환자의 적절한 치료와 관리 지침이 확대될 수 있도록 하여야겠다.

본 연구에서 혈우병 환자의 신체활동은 지구력과 신체적 자기개념을 유의하게 증가시켜서 육체적 건강뿐만 아니라 정신적 건강을 위하여 매우 중요하다고 하겠다. 혈우병 환자의 신체활동이나 운동은 반드시 적절한 응고인자치료가 병행되어야 하며, 개인의 관절이나 신체 상태를 정확히 파악하여, 근육이나 관절에 부종이나 통증이 발생하지 않도록 하고 출혈의 발생에도 주의하여야겠다. 이에 혈우병환자의 정확한 체력평가의 실시는 적절한 운동과 신체 활동을 위해 중요하지만, 혈우병 환자의 관절병증 정도가 다양하여 체력평가 항목을 일괄적으로 정하기는 어렵다. 하지만 관절이 건강한 혈우병환자들은 정기적인 체력평가를 통해 적절한 운동을 할 수 있도록 격려하고, 관절병증이 있는 환자는 시행 가능한 항목의 체력평가를 부분적으로라도 시행하여, 가능한 신체활동들을 지속하게 하고 근력과 관절을 강화시키도록 해야겠다. 또한, 혈우병 환자의 보다 건강한 삶을 위하여 적절한 신체활동이나 운동은 혈우병 치료의 일부분으로 강조되어야 하며 개개인의 관절상태와 체력에 맞는 신체활동을 위하여 운동이나 재활 치료 전문가들의 보다 적극적인 참여가 필요하겠다.

이번 연구는 대상자가 적고 표본의 특성상 국내 혈우병 환자 전체로 일반화하여 해석하는 데 제한점이 있고, 자가 보고식 설문지법의 사용으로 정보의 한계가 있으며, 특히 체력평가에 있어 대상자들의 관절병증으로 실시가 어려웠던 항목도 있었다. 하지만 국내 혈우병 환자들을 대상으로 신체활동량과 신체적 자기 개념에 대해 연구하고, 체력 평가를 시행하여 혈우병 환자의 치료에 있어 신체활동과 운동의 중요성에 대해 고찰한 것에 의의가 있다. 향후, 여러 제한점들을 보완하여 혈우병 환자의 신체활동과 체력에 관한 연구가 대규모로 이루어져야 할 것이다.

References

1. Koiter J, Van Genderen FR, Brons PP, Nijhuis-Van Der Sanden MW. Participation and risk-taking behaviour in sports in children with haemophilia. *Haemophilia* 2009; 15:686-94.
2. The Korean Society of Hematology. Manual for the Management of HEMOPHILIA. 3rd ed. Seoul, PA: panmuneducation;2017;37:104-6.
3. Sherlock E, O'Donnell JS, White B, Blake C. Physical activity levels and participation in sport in Irish people with haemophilia. *Haemophilia* 2010;16(1):e202-e9.
4. Ann-Marie Nazzaro, Sally Owens, W. Keith Hoots, Kelly L. Larson. Knowledge, Attitudes, and Behaviors of Youths in the US Hemophilia Population Results of a National Survey. *Am J Public health* 2006;96(9):1618-22.
5. The IPAQ group. Guidelines for Data Processing and Analysis of the International Physical Activity Questionnaire (IPAQ). <http://www.ipaq.ki.se/>. Accessed April

- 14, 2018.
6. Kim BJ. Development and validation of the Korean version of the physical self-description questionnaire (PSDQ). *Korean Journal of Sport Psychology* 2001;12(2): 69-90.
7. Korea Ministry of Culture, Sports and Tourism. Development of adult physical strength certification standards for adulthood. <https://www.sports.re.kr/pyxis-api/1/digital-files/7f4be72c-e778-4b2f-8f71-db82aa598579/>. Accessed April 10, 2018.
8. Kim JY, Hong S, Min JH, Jeon JY. Criterion-related validity of tecumesh step-test for estimating cardiopulmonary fitness. *Journal of Korean Association of Physical Education and Sport for Girls and Women* 2015; 29(3):99-110.
9. Kim JS, Lee GN. The comparison between physical activity and health related factors of the Korean male adult. *J Korean Biol Nurs Sci* 2012;14(3): 166-73.
10. Fritz R. Wellness in Persons with Bleeding Disorders. <https://www.hemophilia.org/sites/default/files/document/files/Nurses-Guide-Chapter-17-Wellness-in-Persons-with-Bleeding-Disorders.pdf>. Accessed May 10, 2018.
11. Jeon HG, Sim JM, Lee KC. An empirical analysis of effects of stress on relation between physical activity and health-related quality of life: results from KNHANES 2008 to 2013. *Journal of the Korea Academia-Industrial cooperation Society* 2015;16(8):5351-63.
12. Roushan N, Meysamie A, Managhchi M, Esmaili J, Dormohammadi T. Bone mineral density in hemophilia patients. *Indian Journal of Haematology and Transfusion* 2014;30(4): 351-5.
13. Bouskill V, Hilliard P, Stephens S, Zhang C, Whitney K, Carcao M. An institutional pilot study to investigate physical activity patterns in boys with haemophilia. *Haemophilia* 2016;22:e383-9.
14. Treatment Guidelines Working Group. World Federation of Hemophilia. Guidelines for the Management of Hemophilia. 2012. Available online: <https://www.wfh.org/publication/files/pdf-1472.pdf>. Accessed May 10, 2018.
15. Cecchini C, Creighton K, Hann A, et al. Canadian Hemophilia Society. Destination Fitness. 2nd Edition. 2012. Available online: <https://www.hemophilia.ca/wp-content/uploads/2018/05/Destination-fitness-FINAL.pdf>. Accessed May 10, 2018.
16. Anderson A, Forsyth A. National Hemophilia Foundation. Playing it Safe. 2005. Available online: <https://www.hemophilia.org/Community-Resources/HANDI-NHFs-Information-Resource-Center/NHF-Publications/Playing-it-Safe-Bleeding-Disorders-Sports-and-Exercise/>. Accessed May 10, 2018.
17. Seuser A, Böhm P, Wermes C. Early orthopaedic challenges in haemophilia patients and therapeutic approach. *Thromb Res* 2014;134:S61-7.
18. Tiktinsky R, Kenet G, Dvir Z, Falk B, Heim M, Martinowitz U, et al. Physical activity participation and bleeding characteristics in young patients with severe haemophilia. *Haemophilia* 2009;15(3):695-700.
19. Choi KY. The actual state of adolescents' sports activity participation and their preference events. *The Korean Society for the study of Physical Education* 2001;6(1): 99-107.
20. Mafflet M, Roton J Jr. Hemophilia in Sports: a case report and prophylactic protocol. *J Athl Train* 2017;52(1): 65-70.
21. Kim WO, Kang HS, Song YA. Factors influencing on quality of life in patients with hemophilia. *Korean J Adult Nurs* 2006;18(1):71-80.
22. Seuser A, Boehm P, Kurme A, Schumpe G, Kurnik K. Orthopaedic issues in sports for persons with haemophilia. *Haemophilia* 2007;13:47-52.
23. Hilberg T, Herbsleb M, Gabriel HH, Jeschke D, Schramm W. Proprioception and isometric muscular strength in haemophilic subjects. *Haemophilia* 2001;7(6):582-8.
24. Kargarfard M, Dehgadani M, Ghias R. The effect of aquatic exercise therapy on muscle strength and joint's range of motion in hemophilia patients. *Int J Prev Med* 2013;4(1):50-6.
25. Lee DC, Koh MY, Kim YS, Gang HJ. Correlation between cardiorespiratory fitness measured by step test and HbA1C, blood pressure and blood lipids in type II diabetic patients. *Korean Journal of Sport Science* 2006; 17(4):28-36.
26. Herbsleb M, Hilberg T. Maximal and submaximal endurance performance in adults with severe haemophilia. *Haemophilia* Jan 2009;15(1):114-21.
27. Lee KB, Park ST. Difference and correlation of physical fitness and physical self-concept to obesity level of high school students. *The Korean Journal of Growth and Development* 2010;18(4):293-9.
28. Nam SY, Lee H, Kim S, Lee RA. Factors affecting body image and sexual life for the colorectal cancer patients with stoma. *Korean Oncology Nursing Society* 2018; 18(1):1-10.
29. Kim SY, Jeon EY. Influencing factors on osteoarthritis in Korean. *Korean Journal of Rehabilitation Nursing* 2011;14(2):111-7.
30. Yoon HJ. Treatment of bleeding in hemophilia. *J Korean Med Assoc* 2007;50(9):815-22.