



EFFECTIVIDAD DEL TRATAMIENTO CON TOXINA BOTULÍNICA TIPO A EN EL MANEJO DE LA MARCHA DE PUNTILLAS IDIOPÁTICA (MPI).

ESTUDIO EPIDEMIOLÓGICO, CLÍNICO
Y CON ANÁLISIS INSTRUMENTAL DE LA MARCHA

JAVIER LÓPEZ LÓPEZ

Tesis Doctoral, 2022

DIRIGIDO POR LA PROFESORA:
Dra. Estrella Rausell Tamayo

CODIRIGIDO POR:
Dr. David Gómez Andrés

UAM

Universidad Autónoma
de Madrid

UNIVERSIDAD AUTÓNOMA DE MADRID
FACULTAD DE MEDICINA
DEPARTAMENTO DE ANATOMÍA, HISTOLOGÍA Y NEUROCIENCIA



**EFFECTIVIDAD DEL TRATAMIENTO CON TOXINA
BOTULÍNICA TIPO A EN EL MANEJO DE LA MARCHA
DE PUNTILLAS IDIOPÁTICA (MPI). ESTUDIO
EPIDEMIOLÓGICO, CLÍNICO Y CON ANÁLISIS
INSTRUMENTAL DE LA MARCHA.**

Tesis doctoral

Javier López López

Madrid 2022

UNIVERSIDAD AUTÓNOMA DE MADRID
FACULTAD DE MEDICINA
DEPARTAMENTO DE ANATOMÍA, HISTOLOGÍA Y NEUROCIENCIA

Trabajo de Investigación que presenta

JAVIER LÓPEZ LÓPEZ

Para optar al grado de Doctor en Neurociencia por la Universidad Autónoma de Madrid



Dirigido por la Profesora
Dra. ESTRELLA RAUSELL TAMAYO

Codirigido por
Dr. DAVID GÓMEZ ANDRÉS



Dña. Estrella Rausell Tamayo, Catedrática del Departamento de Anatomía, Histología y Neurociencia de la Facultad de Medicina de la Universidad Autónoma de Madrid y D. David Gómez Andrés, doctor en Medicina y Cirugía por la Universidad Autónoma de Madrid y médico especialista en Neurología Pediátrica del Hospital Universitario Valle de Hebrón de Barcelona.

HACEN CONSTAR:

Que D. Javier López López, Licenciado en Medicina y Cirugía por la Universidad Complutense de Madrid, ha realizado bajo su dirección y terminado con el mayor aprovechamiento los trabajos correspondientes a su tesis doctoral cuyos resultados se recogen en el documento titulado:

EFFECTIVIDAD DEL TRATAMIENTO CON TOXINA BOTULÍNICA TIPO A EN EL MANEJO DE LA MARCHA DE PUNTILLAS IDIOPÁTICA (MPI). ESTUDIO EPIDEMIOLÓGICO, CLÍNICO Y CON ANÁLISIS INSTRUMENTAL DE LA MARCHA.

Que todas las aportaciones presentadas en este documento son originales, totalmente atribuibles a su autor, y reúnen la calidad científica necesaria para poder ser presentado y defendido con el fin de optar al grado de Doctor en Neurociencia por la Universidad Autónoma de Madrid tal como requiere la legislación vigente.

Y para que conste y surta los efectos oportunos, así lo certificamos en Madrid a 1 de julio de 2020.

Dra. Estrella Rausell Tamayo.

Dr. David Gómez Andrés.

0.I. MOTIVACION PERSONAL DETRÁS DE ESTA TESIS. PRÓLOGO GENERAL. AGRADECIMIENTOS

La marcha de puntillas idiopática (MPI) es una patología frecuente en la práctica clínica de ortopedia y neuro-rehabilitación pediátrica. El primer paciente al que tuve que enfrentarme como residente en la consulta de rehabilitación del Hospital Niño Jesús fue un niño sin claro diagnóstico pero con marcha de puntillas y multitud de hematomas en ambas piernas por caídas, al que su madre culpabilizaba por torpe, inquieto y con la “manía de andar de puntillas”. Esa marcha de puntas de origen incierto fue mi primer paciente con “marcha de puntillas idiopática” y como puede imaginarse el lector, ni mucho menos la última. Acercarme a esta patología podría decirse que cambió para siempre mi trayectoria profesional y fue el motivo de la primera “búsqueda bibliográfica” que realicé al respecto ya hace “casi 25 años”. Pese a la abundante literatura disponible, aún hoy persisten numerosas dudas para su tipificación, significado clínico, diagnóstico y manejo terapéutico en nuestro entorno. Medio siglo ha transcurrido desde la descripción de las primeras series documentadas, pero la persistencia de la etiqueta “idiopática” sigue invitando a su estudio, más cuando se pretende verter la luz del método científico para investigar en su diagnóstico o etiología, crípticos aún por desgracia. La MPI encierra un sinfín de interrogantes en cuanto a su pronóstico, fisiopatología, patología relacionada y/o derivada e incluso, como no, la mejor protocolización de manejo clínico disponible en nuestro entorno, motivo suficiente para justificar una tesis sobre la materia.

Esta tesis es un modesto intento para convertir el estudio de una serie de casos clínicos de esta ambigua patología en un ejercicio metodológico y honesto de la neurociencia, para intentar acercarnos a la naturaleza del comportamiento clínico y biomecánico de la MPI. Para ello trataremos de aplicar avanzadas herramientas de investigación estadística, la validación de test diagnósticos o el propio análisis instrumental de movimiento (AIM), junto con diferentes baterías

de test clínicos, útiles para cuantificar y acotar la MPI y sus comorbilidades, lo más exactamente posible.

La MPI no deja de ser una marcha simétrica habitual sobre el antepié sin soporte astragalino y sin origen neurológico u ortopédico conocido (1). Su frecuente aparición ha llevado a considerarla una variante de desarrollo fisiológico hasta los 36 meses. Minimizada su importancia por unos y magnificada por otros, la presente tesis que tienen entre sus manos, pretende arrojar algo de luz sobre algunas dudas frecuentes para el clínico-científico que navega por las fronteras del conocimiento de esta patología y otras tantas relacionadas con ella. La prevalencia de la MPI es lo suficientemente importante y variable (2,1 - 24%) como para sospechar que este proceso aparentemente “autolimitado” en no pocos casos pueda encerrar otras entidades aún no suficientemente conocidas, actuando como signo de alarma de las mismas y/o relacionándolas entre sí. La variabilidad de la MPI como diagnóstico de exclusión, incluye además de esas variantes “autolimitadas” inciertamente fisiológicas en poblaciones saludables menores de 5 años, a otras que llegan a describirse hasta casi el 5% de los niños como presencia frecuente y aparentemente no patológica del neurodesarrollo en países occidentales. La MPI es mas común en varones y llega a las consultas muchas veces a través de casos de curso tórpido y complejo con sintomatología tal, que puede desembocar en la necesidad de abordajes terapéuticos invasivos bajo ciertas circunstancias clínicas como la retracción aquilea o el dolor.

AGRADECIMIENTOS

Dedico esta tesis que versa sobre menores a nuestros mayores, a todos sin excepción, especialmente a los que se fueron para dejar para siempre su recuerdo entre nosotros. Bendita sea esa generación que tanto sacrificó por las demás.

Corren tiempos extraños, convulsos, en los que la información y su exceso parecen convertirse con facilidad en confusión. Tiempos donde recordamos a los que perdimos, lamentando no haber podido estar más tiempo con ellos. Momentos en la historia de nuestra sociedad, de extrañas relaciones entre mascarillas y distancia, insólitas para un pueblo acostumbrado a compartir abrazos, comidas y reuniones. Cumpleaños de cinco niños al aire libre, saliendo de un sueño que nos recuerda tanto miedo como esperanza a partes iguales. Tiempos de injusticia por el castigo a la sociabilidad de un pueblo que nos han hecho vulnerables y hasta recelosos de nuestros vecinos. En estos tiempos más que nunca, esperemos poder recuperar y renovar la fe en la sociedad que nos vió nacer y a la que en el fondo nos debemos. Porque hemos vivido momentos históricos de angustia y pesadumbre, tanto como también de esperanza. Como españoles, como padres e hijos y especialmente como médicos en primera línea de batalla, estos son también tiempos de agradecimiento tras despertarnos de la pesadilla y aún con miedo a que retorne. Querría dar las gracias en nombre de todos por la salud que disfrutamos, aunque sea de forma momentánea. Y como no, gracias a quienes dieron la vida y su salud por la de todos. Brindemos por quienes se dejaron alcanzar por el virus para que otros pudiéramos esquivarlo. Solo así pudimos llegar a estar vacunados frente a tan desleal y microscópico enemigo que nos ha acechado estos últimos años. Sirva este modesto trabajo de agradecido homenaje a los que nos demostraron quienes, con sus sacrificios, sufrimiento y tesón han sido los verdaderos héroes de nuestro tiempo, lejos de las luces de la fama. Agradezco de corazón a toda esa generación que se marchara, a la que tuvimos que esconder para dejarla entre nosotros un poco más. La historia nos ha demostrado que se repite y nos recuerda que lo que de verdad importa, la vida humana y la salud, tendrá siempre la relevancia que merece en un mundo tan perdido con los valores como el actual. Esperemos que la búsqueda del verdadero sentido de la vida, que necesitamos renovar más que nunca, nazca de esa búsqueda de la ciencia desinteresada, metódica, laboriosa y bienintencionada que solo intenta desvelar poco a poco, la naturaleza y sus misterios. Agradezco en fin, a mis mayores directos, que me enseñaron el espíritu de sacrificio, trabajo duro y colaboración, como faro para dar valor a lo que de verdad lo tiene: La salud y la vida humana.

Recuerdo los inicios de mi formación como especialista en rehabilitación pediátrica, comenzando en un hospital infantil con más de 150 años de historia a sus espaldas, al que tanto debo y llevaré siempre en mi recuerdo: “el Niño Jesús”. Hospital nacido de otra pandemia terrible del pasado como fue la polio y que nos recuerda como comentaba, que la historia se repite.

Gracias a todos los compañeros con los que trabajé. Gracias a todos mis maestros y gracias a los retirados, especialmente a ellos. A toda esa generación de gente noble que ha desaparecido, nunca solos pero si callados pese a ser sufrientes. A todos los ausentes, a ellos especialmente dedico el modesto trabajo de un clínico de consulta como homenaje a todos y cada uno de los que dieron y dan su vida por otros.

Quiero agradecer a la Dra. Rausell, mi directora de tesis, por su esfuerzo en mantener la llama de la ciencia en este modesto clínico, con el amor al trabajo bien hecho por bandera. Estrella, gracias por hacer de mi mejor médico y persona. Me has enseñado más con tu ejemplo de sacrificio personal y científico que muchos libros. Sirva el tuyo de ejemplo a muchas generaciones de jóvenes médicos, para que crean que pueden llegar donde se lo propongan, al lugar en la ciencia que les corresponde y muchas veces les fue negado por el mero hecho de nacer mujeres. Tú me convenciste para que nunca dejara de responder a las preguntas de mis hijas, sean cuales fueren, para que jamás ellas dejen de preguntar. Me enseñaste la obligación de padre por responderlas con la misma ilusión con la que nos hacemos mutuamente un regalo. Muchas gracias.

Quiero también agradecer al resto de los profesores del departamento de Anatomía, Histología y Neurociencia por inculcar la belleza de la Neurociencia y su metodología de trabajo cada día. Promueven el esfuerzo y la excelencia de todos cuantos participan de su docencia. Quiero agradecer a mis maestros ya fallecidos y de seguro observándonos con una sonrisa desde el lugar que se merecen. Gracias por las enseñanzas que me entregaron intentando acercar algo de salud a los más vulnerables. Gracias especialmente a mis maestras retiradas, un ejemplo de profesionalidad, sabiduría y humanidad, que tuvieron que luchar en tiempos de injusticia, enseñándonos a amar y cuidar al paciente desinteresadamente y sin complejos, algo que por desgracia últimamente está desapareciendo.

También quiero dar las gracias a Juan Andrés, Irene y a toda la gente del laboratorio, cuyo trabajo en la escuela de la ONCE fue imprescindible para que esta tesis saliera adelante. Gracias a todos y a mi jefa de servicio ya jubilada, segunda madre que me enseñó que el paciente ha de ser el centro de cada uno de nuestros objetivos. Y gracias a todos los Rausell que llegaron a mi vida, especialmente a los que se fueron. Muchas gracias.

No quiero olvidarme tampoco de agradecer a mis compañeros de fatigas y alegrías del servicio de Rehabilitación del Hospital Universitario Infanta Sofía, ya sean médicos rehabilitadores, geriatras, neurólogos, traumatólogos... Sin su entrega no se habrían podido integrar consultas monográficas como la de rehabilitación infantil, que ha permitido actuar de crisol de la investigación. Gracias al equipo de rehabilitación al completo, especialmente a los fisioterapeutas que trataron niños como José Carlos, autor de las ilustraciones de nuestro protocolo, y Alberto, sin desmerecer a María, Marga, Isa, Merche, Violeta..., todos vocacionales, profesionales, humanos y cercanos a la vez. Gracias al equipo de atención de residencias durante la pandemia por SARS-Cov-2, que me soportaban en mis momentos de agobio en el trabajo y como no, también por la tesis y mil cosas

más. Agradecer la paciencia y la enseñanza de compañeros de profesión que me han ayudado a continuar cuando los disgustos del trabajo llegaban sin descanso. Gracias a los compañeros que sustentan el hospital que tanto trabajo ha costado y cuesta levantar con escasos recursos para la población atendida, “nuestra Infanta Sofía”.

Muchas gracias a esos dos grandes médicos de alma joven y corazón grande, Gracias a David y a Irene por apoyarme y guiarme con esa sencillez y humildad que la grandeza impregna en gente tan especial. Sin sus consejos, buen hacer y trabajo nunca habría llegado al final. Gracias por su ayuda en la planificación, la estadística, las imágenes y sobre todo por levantarme cuando las fuerzas me fallaban. Fue precisamente en esos momentos, cuando mis fuerzas flaqueaban, que acudió al rescate desde el CSIC Ivon, Loli su mujer y Agustina mi “artista preferida”, haciendo que las dificultades para poder seguir se desvanecieran como la bruma con el sol.

Gracias a mis padres, a quienes debo sencillamente todo, a mis hermanos, a mis primos, especialmente Jorge y su accidente de bicicleta en Saelices, que despertó en mí la vocación de socorrer al caído lo mejor posible y gracias a mis amigos, por apoyarme especialmente en los momentos difíciles. También quiero agradecer en cierto modo a todas aquellas personas que no me lo pusieron fácil. Fueron una motivación más para demostrarme lo que se puede llegar a hacer con convicción.

No quiero olvidar mi eterno agradecimiento a los verdaderos protagonistas de esta tesis, sin los cuales todo esto no hubiese sido posible ni tendría sentido: los niños y sus familias. Su generosa contribución permitió desentrañar algo más los misterios de esta patología. Sin ellos habría sido imposible este trabajo. De todo corazón, gracias.

Por último y de una manera muy especial, quiero dar las gracias a la persona que desde hace más de 12 años ha estado y está siempre a mi lado, como compañera, amiga, esposa y madre. Aquella que “me aguanta día a día”, me apoya para seguir adelante sin importar que ocurra. Isabel, sin ti y sin nuestras hijas todo esto habría sido totalmente imposible. A vosotras tres dedico los sacrificios que tantas veces nos ha tocado realizar, desde esas noches que te jugaste la salud y la vida por las dos flores que cultivamos juntos en el jardín de la existencia diaria, recordando tu preciosa sonrisa todas las noches mientras escribía y tú las acostabas a la luz del flexo. Gracias a las tres por estar ahí.

0.II. RESUMEN

La marcha de puntillas idiopática (MPI) es un trastorno de la marcha que se caracteriza por ser una marcha “voluntaria” sin apoyo talar y generalmente sin acortamiento aquileo, que aúna características heterogéneas sugerentes de diversas hipótesis etiopatogénicas. Hoy por hoy el diagnóstico clínico es de exclusión. Los niños que presentan este trastorno asocian distintas comorbilidades y problemas clínicos que les llevan a consultar a especialistas de neuropediatría, traumatología y rehabilitación.

Esta tesis busca caracterizar clínicamente y profundizar en las peculiaridades de la marcha de niños con MPI, comprender el efecto de la fisioterapia (PT) y su uso con la toxina botulínica (TxBA), evaluando cambios en la MPI relacionados con la misma.

Para estructurar el contenido de esta tesis, se ha dividido el trabajo en 4 grandes objetivos que buscan responder a la motivación última del estudio.

El primer objetivo busca una descripción de las manifestaciones clínicas en un grupo de pacientes con MPI derivados a una consulta de rehabilitación infantil. Para ello se analizaron todos los pacientes derivados durante un amplio periodo de tiempo mediante una exploración sistemática y la herramienta de cribado “Toe walking tool” (TWT), que permitió finalmente poder seleccionar 77 pacientes con MPI. Estos pacientes fueron evaluados para buscar la presencia de dolor, medir el acortamiento aquileo mediante la maniobra de Silfverskiöld y descartar sintomatología de trastorno por déficit de atención con o sin hiperactividad. Detectamos que casi 4 de cada 10 pacientes derivados presentaban dolor subagudo-crónico con un impacto considerable en su vida diaria. También definimos que el acortamiento aquileo aumentó con la edad y paralelamente se detectó con frecuencia el acortamiento de los flexores de rodilla. El TDAH ocurría con frecuencia en esta muestra y pudimos objetivarlo con precisión.

El segundo objetivo buscaba generar un algoritmo de manejo clínico y un protocolo de fisioterapia estandarizado que permitiera mejorar los resultados clínicos con su empleo. Como transferible de esta tesis presentamos un algoritmo terapéutico basado en las herramientas disponibles en

nuestro entorno. Estudiaremos cómo el protocolo consigue mejorar el dolor, el acortamiento muscular, la torpeza motora y habitualmente, el rango de caídas mediante el estudio clínico de 77 pacientes.

En un tercer objetivo, se describió la marcha de niños con MPI mediante la técnica computarizada de análisis instrumental de marcha (AIM). Se analizaron 28 niños con MPI y se compararon con un grupo control de referencia de 33 niños sanos. Se estudiaron parámetros espaciotemporales y parámetros cinemáticos puntuales. Se representó la distribución para cada uno de estos parámetros y se calculó la diferencia d de Cohen, estimando un intervalo de confianza del 95%. Destacó por un lado la gran variabilidad en los valores de cada uno de estos parámetros y la ausencia de patrones claros en una muestra de MPI cribada mediante TWT y exploración sistemática reflejada por la técnica de agrupamiento jerárquico. Los niños con MPI caminaron con un porcentaje de tiempo de apoyo más largo, mayor flexión de cadera, una inclinación pélvica anterior y un ángulo de dorsiflexión del tobillo menor en la fase oscilante. Mediante el método de deformación de la distancia temporal (“distance time warping” ó DTW) y escalado multidimensional, encontramos que la alteración cinemática en la MPI correspondía a un espectro fenotípico, más que a distintos patrones separables dentro de la misma entidad.

En un cuarto objetivo, se analizaron los cambios espaciotemporales y cinemáticos encontrados en 28 niños con MPI tras la administración de toxina botulínica en el tríceps sural. Mediante modelos mixtos ajustados por técnicas bayesianas, se observó que en este grupo de niños tras el tratamiento, se producían mejoras en el tiempo de apoyo y se aumentaba de forma modesta la dorsiflexión en el contacto inicial reduciendo también las compensaciones. Se detectaron también cambios en parámetros que no están alterados en el grupo de pacientes con MPI, como los relacionados con la flexión de la rodilla durante el apoyo y que podrían reflejar el efecto de la TxBA sobre la actividad de los gemelos.

Globalmente, estos resultados sustentan la importancia de mejorar la accesibilidad a la valoración y al tratamiento de la MPI en nuestro medio. Herramientas organizativas, diagnósticas como la TWT, pronósticas o terapéuticas permitirán un acceso eficiente a técnicas que en pacientes sintomáticos mejoran el dolor, el arco de movimiento, alteraciones en parámetros de marcha y el equilibrio. Existen lagunas como la eficacia a largo plazo de estos tratamientos o la variabilidad de respuesta. Por otro lado, el análisis instrumental de la marcha ha demostrado ser útil en la investigación de la MPI y seguramente proveerá de información de calidad en la esperanza de poder desescalar a tecnologías más sencillas, que permitan en definitiva, mejorar la accesibilidad a las mismas de los que la padecen.

0.III. ABSTRACT

Idiopathic toe walking (ITW) is a gait abnormality featured by voluntary adoption of gait patterns without heel strike, generally in the absence of shortening of triceps surae. It is very heterogeneous and several hypotheses concerning its etiopathogenesis exist. Currently, diagnosis is based on the exclusion of other disorders. Children with ITW may show other comorbidities and clinical problems that lead to outpatient consultations with orthopedics or physical medicine.

This work focuses on the improvement of the clinical characterization and the gait assessment of children with ITW. It also evaluates the efficacy of physiotherapy and the combination of physical therapy with botulinum toxin (BTx) and the gait changes in children with ITW after BTx. This dissertation focuses on 4 key objectives:

The first objective was to provide a clinical description of a group of patients with ITW throughout a pediatric physical therapy consultation.

Patients who were referred due to toe walking during the time of the study, were systematically evaluated through systematic examination and a screening tool called “Toe Walking Tool” (TWT). Out of all the patients seen (100), 77 were diagnosed of ITW. Pain, Achilles shortening measured by Silfverskiöld’s maneuver and symptoms of attention deficit disorder with or without hyperactivity were assessed. Around 4 out of 10 evaluated patients, showed subacute-chronic pain with a significant impact on their daily life. We also observed that Achilles’ shortening was greater in older patients. Knee flexor shortenings were also found. ADHD diagnosis was frequent comorbidity in this sample.

The second objective consisted of creating an algorithm for clinical management, the definition of a standardized protocol for physiotherapy, and the clinical evaluation of the results after their implementation. As a result, a therapeutic algorithm adapted to our clinical environment was developed and presented as part of this dissertation. Besides, in 77 patients, we saw an improvement in pain, muscular shortening, and motor coordination and a tendency to decrease the frequency of falls.

The third objective, was to evaluate gait in children with ITW through instrumental gait analysis. For that, 28 patients with ITW were compared with a control group of 33 healthy children. Spatiotemporal and kinematic parameters were assessed. The distribution of every parameter was represented and differences between groups were calculated by Cohen's d and its 95% confidence interval was measured. The major findings were the great variability in the values of individual parameters and the absence of clear patterns in the hierarchical clustering analysis. Children with ITW walk with a longer stance phase, higher hip flexion, anterior pelvic tilt, and lower ankle dorsiflexion in the swing phase. A method based on the combination of distance-time warping of kinematic curves and multidimensional scaling shows that the kinematic abnormalities in ITW correspond to a continuous phenotypic spectrum instead of several patterns that be distinguished within the same entity.

The fourth objective was to evaluate the changes in spatiotemporal and kinematic parameters in 28 children with ITW after a single session of BTx administration in triceps surae muscles. Mixed-effect models adjusted by Bayesian techniques detected improvements in the percentage of stance phase and a modest increase in ankle dorsiflexion at initial contact and a correction of other parameters reflecting gait compensations. Changes were also noticed in parameters that are not altered in patients with ITW, such as those related to knee flexion during stance time which could reflect the effect of BTx on gastrocnemii activity.

In conclusion, these results support the importance of improved access to evaluation and management tools of ITW in our current clinical setting. Protocols, diagnostic aids such as TWT, prognosis markers and therapies, will allow efficient management of pain, impaired range of movement, gait and balance problems. Long-term effects of these therapies or response variability are still uncertain.

On the other hand, instrument gait analysis has shown to be useful in ITW research, and will hopefully provide quality information which will lead to simplified technologies and improved access to patients who suffer this illness.

0.IV. ÍNDICE GENERAL

0.I. MOTIVACION PERSONAL DETRÁS DE ESTA TESIS. PRÓLOGO GENERAL. AGRADECIMIENTOS	IX
0.II. RESUMEN	XV
0.III. ABSTRACT	XVII
0.IV. ÍNDICE GENERAL	XIX
0.V. ÍNDICE DE FIGURAS	XXIII
0.VI. ÍNDICE DE TABLAS	XXV
0.VII. ÍNDICE DE ABREVIATURAS	XXVII
0.VIII. PLANTEAMIENTO GENERAL DE LA TESIS	XXIX
I. INTRODUCCIÓN	I
I.1. Definición. Nomenclatura internacional y conceptos básicos	3
I.2. Hipótesis etiopatogénicas	4
I.2.1. Controversias diagnósticas y desarrollo motor	4
I.2.2. La MPI como enfermedad genética vs adaptativa	6
I.2.3. La MPI como marcador de alteración de neurodesarrollo y disfunción cerebral	7
I.2.4. La MPI como variante benigna y auto-limitada del desarrollo	12
I.3. Fisiopatología	13
I.4. Diagnóstico, evolución y pronóstico de la MPI	14
I.4.1. Evolución clínica de la MPI	16
I.4.2. La clínica como decisión para tratar o no tratar	18
I.4.3. Dolor y MPI	18
I.5. Terapias empleadas en la MPI. Criterios e indicaciones (97)	19
I.5.1. Técnicas de biofeedback, control motor o estimulación funcional	20
I.5.2. Programas domiciliarios de ejercicios	20
I.5.3. Fisioterapia y MPI	20
I.5.3.1. Elaboración del protocolo propio de la sección de Rehabilitación Hospital universitario Infanta Sofía para tratamiento fisioterápico de la MPI	21
I.5.4. Órtesis y calzado	21
I.5.5. Inmovilización con yesos seriados (“serial casting”)	22
I.5.6. Uso de la TxBA en la MPI	22
I.5.7. Cirugía de alargamiento tendinoso del tríceps sural	24

1.6. Análisis instrumental de la marcha idiopática de puntillas (AIM-MPI): EMG, cinemática y cinética.	26
1.7. Clasificación de la MPI según AIM	31
2. HIPÓTESIS Y OBJETIVOS	33
3. MATERIAL Y MÉTODOS GENERALES.	39
3.1. Herramientas de selección y evaluación de pacientes	41
3.1.1. Definición operativa de MPI. Recogida sistemática de datos. Uso de la TWT.	41
3.1.2. Parámetros de evaluación utilizados en el estudio.	45
3.1.2.1 Características de las variables clínicas y su manejo	45
3.1.2.2. Análisis observacional de la marcha (AOM) y de la postura.	49
3.1.2.3. Análisis instrumental de marcha (AIM)	51
3.1.2.3.1. Hardware del sistema	51
3.1.2.3.2. Software	55
3.1.2.3.3 . Realización de los análisis de marcha: captura de los datos.	57
3.1.2.4. Procesamiento de datos	60
3.1.2.5. Grupo de control de referencia	60
3.1.3. Definición de la población diana: criterios de inclusión y exclusión	62
3.1.3.1. Criterios de inclusión	62
3.1.3.2. Criterios de exclusión	63
3.1.4. Ámbito y población del estudio.	
Representatividad de las muestras	63
3.1.5. Algoritmo diagnóstico y flujo de pacientes	66
3.1.6. Organización del equipo clínico y de investigación	68
3.1.7. Aspectos éticos y legales.	68
3.2. Cálculo del tamaño muestral y representatividad de la muestra.	69
3.3. Grupos de estudio empleados	70
3.4. Selección de variables.	72
3.4.1. Variables principales clínicas empleadas para medir evolución.	72
3.5. Datos procedentes de la historia clínica y de la exploración clínica. Muestreo de la discrepancia de medidas.	73
3.6. Metodología de análisis de datos	76
3.6.1. Análisis de datos en el objetivo 1	76
3.6.2. Análisis de datos en el objetivo 2	76
3.6.3. Análisis de datos en el objetivo 3	77
3.6.3.1. Descripción de los parámetros espaciotemporales y cinemáticos.	77
3.6.3.2. Descripción de los patrones cinemáticos de flexo-extensión	78
3.6.4. Análisis de datos en el objetivo 4	81

4. DESARROLLO POR OBJETIVOS.....	83
4.1. Objetivo 1: Descripción de las manifestaciones clínicas en un grupo de MIP.....	85
4.1.1. Justificación del objetivo.....	85
4.1.2. Pacientes y métodos.....	87
4.1.3. Descripción de las muestras de estudio.....	89
4.1.4. Parámetros de estudio y análisis de datos.....	89
4.1.5. Resultados.....	90
4.1.5.1. Principales hallazgos a nivel ortopédico.....	92
4.1.5.1.1. Acortamiento de los flexores plantares de tobillo.....	92
4.1.5.1.2. Acortamiento de los flexores de rodilla.....	93
4.1.5.2. Factores que influyen en la dorsiflexión pasiva del tobillo.....	93
4.1.5.3. Dolor encontrado en los pacientes con MPI.....	94
4.1.6. Discusión.....	100
4.1.7. Conclusiones del objetivo 1.....	102
4.2. Objetivo 2: Generación de un algoritmo de manejo clínico, protocolo de fisioterapia estandarizado y la evaluación clínica de resultados de su aplicación. Validación del mismo en nuestro entorno.....	102
4.2.1. Justificación del objetivo.....	102
4.2.2. Pacientes y métodos.....	103
4.2.2.1. Descripción del flujo de pacientes entre niveles asistenciales (figura 27).....	103
4.2.2.2. Diseño y validación del protocolo terapéutico empleado en MPI.....	105
4.2.2.3. Protocolo de fisioterapia aplicado en la MPI.....	107
4.2.3. Metodología estadística.....	115
4.2.4. Resultados obtenidos.....	115
4.2.5. Resumen y discusión de los hallazgos del estudio.....	125
4.2.6. Conclusiones del objetivo 2.....	131
4.3. Objetivo 3: Descripción de los patrones de marcha encontrados en niños con marcha de puntillas mediante agrupamiento jerárquico y distancia DTW.....	132
4.3.1. Justificación del objetivo.....	132
4.3.2. Resultados obtenidos.....	133
4.3.3. Limitaciones y discusión del objetivo 3.....	146
4.3.4. Conclusiones del objetivo 3.....	148
4.4. Objetivo 4. Cambios cinemáticos con toxina botulínica en niños con MPI.....	149
4.4.1. Justificación del objetivo.....	149
4.4.2. Pacientes y métodos incluyendo el análisis de datos.....	149
4.4.2.1. Estadística descriptiva empleada.....	150
4.4.2.2. Modelos lineales mixtos.....	150
4.4.3. Resultados del protocolo incluyendo TxBA no recombinante.....	152

4.4.4. Limitaciones y discusión de los resultados del objetivo 4	156
4.4.5. Conclusiones del objetivo 4	157
5. RESUMEN FINAL DE LAS LIMITACIONES DEL ESTUDIO	161
6. DISCUSIÓN FINAL.....	167
7. CONCLUSIONES Y CONTRIBUCIONES.....	177
8. ANEXOS.....	183
Anexo I. Protocolo de fisioterapia seguido en el estudio con versión final presentada a la comisión de calidad HUIS el 1/6/22 (López-López J, De la Rosa JC, Pajero V.)	185
Anexo II. Autorización del comité de investigación clínica del HUIS	189
Anexo III. Consentimiento informado para el AIM estandarizado. La grabación de vídeo y el uso de datos se regula por LOPD y está aprobado en comisión de CI HUIS para uso de fotografías / vídeo (válido en AIM)	191
Anexo IV. Consentimiento informado (CI) para la infiltración de TxBA del HUIS aprobado por la comisión de dirección HUIS vigente desde 2008 (4 hojas)	193
Anexo V. Artículo asociado. López-López J, Pulido-Valdeolivas I, Martín-Gonzalo JA, De Gorostegui A, Pérez-Villena A, Abenza-Albidua MJ, et al. Dolor y acortamiento aquileo en pacientes con marcha de puntillas idiopática. Rev. Neurol. 2021; 73:307-14. DOI:10.33588/rn.7308.2021228	197
Anexo VI. Otros trabajos científicos presentados durante la investigación	205
1. Poster defendido en la 5ª jornada nacional del dolor infantil. (HULP 20-4-2021): “Relevancia del dolor infantil en la marcha de puntillas idiopática (MPI)”	205
2.- Ponencia presentada de la sociedad Española de Neurorehabilitación. Congreso de la Sociedad Española de Neurología. (Madrid 23-11-2020) “Uso de la TWT para describir niños con MPI en una consulta de rehabilitación infantil del Hospital Universitario Infanta Sofía. Resultados”	205
9. BIBLIOGRAFÍA	208

0.V. ÍNDICE DE FIGURAS

Figura 1. Primer rocker del pie.	28
Figura 2. Segundo rocker del pie.	29
Figura 3. Tercer rocker de antepié.	29
Figura 4. Secuencia de los balancines del pie en la marcha normal.	30
Figura 5. Versión final de la TWT en español (161) (162) (163)	42
Figura 6. Esquema básico de planificación - ejecución motora.	50
Figura 7. Unidad sensor del sistema CODA.	52
Figura 8. Marcador del sistema CODA.	53
Figura 9. Posición de los marcadores según las indicaciones del fabricante y usada para la adquisición de los ciclos de marcha.	53
Figura 10. Dispositivo controlador.	55
Figura 11. "Cubo".	55
Figura 12. Ejemplo de las gráficas obtenidas mediante la extracción de datos de AIM con el programa en R diseñado en el laboratorio MOVUAM.	56
Figura 13. La metodología de AIM en MOVUAM-ONCE se explicaba por completo antes de firmar el consentimiento.	57
Figura 14. MOVUAM. Tras la firma del CI (consentimiento informado) se completaba anamnesis y exploración, colocando los marcadores en el niño con su familia presente.	58
Figura 15. Metodología MOVUAM-ONCE para AIM. El niño efectuaba 10 ciclos válidos estandarizados, tal como se hizo en MOVUAM-ONCE con menores sanos.	58
Figura 16. Protocolo definitivo de fisioterapia en MPI del HUIS.	65
Figura 17. Algoritmo terapéutico empleado en el HUIS desde 2011.	65
Figura 18. Flujo de pacientes reclutados en cada grupo.	67
Figura 19. Comparativa entre un gráfico de cajas y otro de violín.	77
Figura 20. En la siguiente imagen puede apreciarse el funcionamiento del alineamiento temporal dinámico (DTW).	78
Figura 21. Ejemplo de dendrograma. Este tipo de gráfica simula la estructura de un árbol en la cual hay un tronco que se va dividiendo en ramas.	79
Figura 22. Porcentaje de acortamiento de los flexores plantares en los menores con MPI que presentaban dolor en la primera consulta.	92
Figura 23. Dorsiflexión media con rodilla extendida y flexionada según la edad,	93
Figura 24. Frecuencia absoluta (A) y edad de aparición (B) del dolor en la MPI.	94
Figura 25. Intensidad referida del dolor por los menores con MPI, referida en las encuestas telefónicas y/o en las consultas (EVA media).	97
Figura 26A. Histograma de dolor (EVA) referido por los participantes en la encuesta.	98
Figura 26B. Heatmap de la distribución de dolor en los pacientes que referían presencia de este en la encuesta telefónica.	98

Figura 26C. Heatmap para los patrones de tratamiento de los pacientes. Muslo - Pie – Tobillo – Pantorrilla – Rodilla.	99
Figura 27. Algoritmo diagnóstico y terapéutico de los pacientes con marcha de puntas (vía clínica) que describe el flujo de pacientes.	104
Figura 28A. Primer protocolo de fisioterapia para MPI empleado en el HUIS.	108
Figura 28B. Detalle de la iconografía del “set de ejercicios” empleado en la docencia de rutinas domiciliarias para familias de menores con MPI (adaptado de web).	111
Figura 28. Protocolo HUIS de fisioterapia en MPI completo (versión definitiva).	114
Figura 29. Tasa y motivo de abandono de los pacientes (n=27) durante los primeros 24 meses del estudio (de febrero de 2018 a marzo de 2020).	116
Figuras 30A, B, C y D. Podemos ver las medidas de ángulo promedio en pacientes sometidos a infiltración de TxBA (gris) o no (azul).	123
Figura 31. Principales tratamientos empleados en el servicio de rehabilitación del HUIS en niños con marcha de puntillas de diverso origen desde 2008 hasta inicio de implantación del protocolo empleado en este estudio.	126
Figura 32. Gráficos de violines para los parámetros espaciotemporales seleccionados.	134
Figura 33. Gráfico de Forest donde se muestran los valores de la d de Cohen para los parámetros espaciotemporales seleccionados para el lado izquierdo y derecho.	135
Figura 34. Gráfico de Forest donde se muestran los valores de la d de Cohen para los parámetros cinemáticos seleccionados para el lado izquierdo y derecho.	135
Figura 35. Gráficos de violines para los parámetros cinemáticos de la pelvis seleccionados.	138
Figura 36. Gráficos de violines para los parámetros cinemáticos de la cadera seleccionados.	139
Figura 37. Gráficos de violines para los parámetros cinemáticos de la rodilla seleccionados.	140
Figura 38. Gráficos de violines para los parámetros cinemáticos del tobillo seleccionados.	140
Figura 39. Heatmap donde se representan los Z-score para los parámetros de marcha en los pacientes con MPI.	141
Figura 40. Resultados del escalado multidimensional para las distancias DTW entre los ciclos.	143
Figura 41. Resultados del escalado multidimensional para las distancias DTW de los diferentes movimientos angulares entre los ciclos.	144
Figura 42. Correspondencia del escalado multidimensional para las distancias DTW para cada sujeto.	145

0.VI. ÍNDICE DE TABLAS

Tabla 1. Diferencias en la marcha de pacientes con MPI vs diplejia espástica (20) (66).....	13
Tabla 2. Diagnóstico diferencial de la marcha idiopática de puntillas (74) (53).....	15
Tabla 3. Evolución en distintas series del patrón de MPI con actitud conservadora.	17
Tabla 4. Resultados de la infiltración de toxina botulínica tipo A sobre la MPI.....	24
Tabla 5. Principales series en estudios de cirugía como tratamiento de la MPI.....	25
Tabla 6. Variables recogidas en consulta incorporadas a la base de datos.....	46
Tabla 7. Localizaciones anatómicas donde se emplazan los emisores.....	54
Tabla 8. Características de los voluntarios sanos.....	61
Tabla 9A. Muestreo en 10 pacientes del estudio de la discrepancia de medida en los valores del test de Silfverskiöld al medir el ángulo de dorsiflexión con rodilla en flexión (DF+RF) y en extensión (DF+RE) evaluados por el médico (M) y el fisioterapeuta (F).	74
Tabla 9B. Resultados de similar muestreo de discrepancia en los valores de los mismos pacientes para el ángulo Lumbo-horizontal LH y el ángulo poplíteo entre médico(M) y fisioterapeuta (F).	74
Tabla 9C. Medidas de valor como la “huella de desgaste del zapato” obtenido de las historias clínicas y extensible a otros parámetros subjetivos no ordinales ofrecieron una discrepancia de al menos el 40% al categorizarlas.	75
Tabla 10. Características de anamnesis y exploración según la edad.	91
Tabla 11. Características de los pacientes con y sin dolor de nuestra muestra.....	95
Tabla 12. Resumen de las características de pacientes con MPI del estudio.....	95
Tabla 13. Características del dolor evaluado a largo plazo	96
Tabla 14. Características de los pacientes incluidos en protocolo terapéutico.	117
Tabla 15. Características de las cohortes en las que se realizó solo fisioterapia y aquellas en las que se añadió inyecciones de TxBA (n=27).....	119
Tabla 16. Diferencias en las medidas de los ángulos tomadas durante el pre-tratamiento y la primera visita posterior al tratamiento (n=27). Mostramos medidas medias y desviaciones estándar (DE), valores mínimos y máximos.	121
Tabla 17. Cambios en equilibrio, fuerza del tríceps sural y la marcha observada en diferentes visitas posteriores al tratamiento.	124
Tabla 18. Estadística descriptiva y comparación de los grupos de niños control y de niños con MPI. para la velocidad, cadencia y tiempo de apoyo	133
Tabla 19. Estadística descriptiva y comparación del grupo de niños control y con MPI para el resto de parámetros evaluados.	136
Tabla 20. Estadística descriptiva de los parámetros espaciotemporales y cinemáticos izquierdos y derechos junto a las diferencias entre los análisis instrumentales de marcha antes y después de la infiltración de TxBA.	154

0.VII. ÍNDICE DE ABREVIATURAS

AA	Alargamiento de Aquiles	DF	Dorsiflexión
ADN	Ácido desoxirribonucleico	DSM5	Diagnostic Statistical Manual Mental Disorders 5°ed(Manual diagnóstico estadístico de trastornos mentales 5°ed)
AFO	Ankle foot orthosis (Órtesis de tobillo-pie)	DTW	Distance time warping (deformación de la distancia temporal)
AIM	Análisis instrumental de movimiento	ECA	Ensayo clínico aleatorizado
ALH (LH)	Ángulo lumbo-horizontal	EDAH	Escala para déficit de atención e hiperactividad
AOM	Análisis observacional de movimiento	EMG	Electromiografía
AP	Ángulo poplíteo	EVA	Escala visual analógica para el dolor
BOE	Boletín oficial del estado	fc-RNM	Resonancia nuclear magnética funcional
BOLD	Blood oxygen level dependent (variaciones en el nivel de oxígeno en sangre señal-dependiente)	GOS	Gait observation scale (Escala observacional de marcha)
CAM	Comunidad autónoma de Madrid	IBIS	Infant Brain Imaging study (Estudio de imagen cerebral en la infancia)
CI	Consentimiento informado	IASP	International Society for study of pain (Sociedad internacional para estudio del dolor)
CIE 9MC	Clasificación internacional de enfermedades 9° edición modificada	ITW	Idiopathic toe walking (marcha idiopática de puntillas)
CODA	Cartesian Opto-electronic Dynamic Anthropometer (sistema cartesiano antropométrico dinámico)	HPD	Highest probability density (concepto similar al Intervalo de confianza)
CSAT-R	Children sustainability attention test review (Test de atención sostenida de la infancia)	HUIS	Hospital Universitario Infanta Sofía
CPK	Creatín fosfoquinasa	HULP	Hospital Universitario La Paz
DAFO	Dinamic ankle foot orthosis (Órtesis dinámica de tobillo-pie)		
DE	Desviación estándar		
DER/DCHA	Derecha		

IC	Intervalo de confianza (IC95%, intervalo de confianza del 95%; IC90% intervalo de confianza del 90% etc.)	PT	Fisioterapia.
IZQ/IZQDA	Izquierda	RCP	Reflejo cutáneo plantar
LOPD	Ley orgánica de protección de datos	RE	Rodilla extendida
mARN	Acido ribonucleico mensajero	RF	Rodilla flexionada
MAX	Máximo	RHB	Rehabilitación
MDP	Movement deviation profile (perfil de desviación de movimiento)	RMN (RNM)	Resonancia nuclear magnética
MDS	Multi dimensional scaling (escalamiento multidimensional)	SARS-Cov-2	Severe acute respiratory syndrome coronavirus 19 (síndrome respiratorio agudo por coronavirus 19)
MIN	Mínimo	SERMAS	Servicio Madrileño de salud
MMII	Miembros inferiores	SPD	Sensitivity processing disease (Trastorno del procesamiento sensorial)
MOVUAM	Movimiento de la Universidad autónoma de Madrid	TGD	Trastorno generalizado del desarrollo
MPI	Marcha de puntillas idiopática	TEA	Trastorno de espectro autista
OLBT	One Leg Balance Test” (test de equilibrio en una pierna)	UAM	Universidad Autónoma de Madrid
OLST	One Leg test stand (test de apoyo en una pierna)	UCM	Universidad Complutense de Madrid
ONCE	Organización nacional de ciegos de España.	TDAH;	Trastorno por déficit de atención e hiperactividad
PCI	Parálisis cerebral infantil	TWT	Toe walking tool (Herramienta para marcha de puntillas)
PEF	Protocolo específico de fisioterapia	TxBA	Toxina botulínica tipo A
PRN	Peso de recién nacido	VSG	Velocidad de sedimentación globular
PRS	Physician rate scale (Escala médica visual)	VGATS	Visual Gait Analysis Interval Testing Scale (escala visual para estudio del intervalo de marcha)
PROM	Passive range of movement (rango pasivo de movimiento)		

0.VIII. PLANTEAMIENTO GENERAL DE LA TESIS

La tesis que se presenta a continuación es fruto de la entrega de varios profesionales de la cátedra de Neurociencia, el laboratorio de análisis de movimiento de la ONCE y el Hospital Infanta Sofía de San Sebastián de los reyes, responsable de la salud de más de 80.000 menores de 18 años de la zona Norte de Madrid (1) es decir unos 55.000 menores de 14 años (2). Gracias a todos ellos se ha elaborado una aproximación sistemática clínica e instrumental con el principal objetivo de facilitar al clínico que disponga de sus resultados de una perspectiva clara, descriptiva y reproducible tanto de la clínica de la marcha de puntillas (MPI), como de su manejo mediante un protocolo terapéutico eficaz, viable y reproducible también, que permita mejoras mensurables tanto en la clínica, la cinética y la cinemática de este perfil de marcha. Para ello se introdujo una metodología y sistematización específicas, diseñadas para optimizar la terapia y estudio de la patología que se remitía a una consulta de rehabilitación infantil del Hospital Infanta Sofía, donde se realizaba tanto el diagnóstico como el tratamiento de la patología sospechada como sugerente de MPI.

El presente proyecto de tesis pretende efectuar una aproximación eminentemente clínica pero rigurosa con las herramientas disponibles, a la MPI. Planteada más como estudio observacional que como ensayo clínico pese a rayar en su desarrollo. Busca pues validar un protocolo de manejo empleando toxina botulínica tipo A (TxBA) con y sin proteínas complejantes, esta última una “recién llegada” como variante de TxBA.

Puede imaginar el lector que la tesis se ha diseñado por tanto desde una perspectiva eminentemente clínica por un “clínico que pretende ayudar a sus colegas” tratando de emplear un método científico validado para extraer en la medida de lo posible recomendaciones prácticas que orienten en el manejo en la consulta de la MPI. No se ha diseñado por eso como un ensayo clínico de farmacoterapia o de validación de un programa de fisioterapia específico sino como algo más amplio que ayude al abordaje integral de una patología con las herramientas más asequibles al clínico “de batalla” que tenga que enfrentarse a ella en consulta, cualquiera que sea su formación y especialidad.



1. INTRODUCCIÓN

1. INTRODUCCIÓN

1.1. Definición. Nomenclatura internacional y conceptos básicos

Se define habitualmente a la marcha de puntillas como aquella marcha simétrica en la que los menores caminan con un patrón de marcha modificable voluntariamente donde no apoyan el talón y en ausencia de retracción importante del complejo músculo-tendinoso del tríceps sural. En 1977 se definió el término anglosajón “habitual toe walkers” o “marchadores habituales de puntillas” (3), introduciéndose el más actual de “marcha de puntillas idiopática” (MPI) o “idiopathic toe walking” (ITW) en 1980 (4) como el más empleado en la actualidad. La mayoría de los autores están de acuerdo en que la marcha idiopática de puntillas (MPI) es un diagnóstico de exclusión, realizado cuando los niños persisten en caminar de puntillas sin signos de una condición neurológica, ortopédica o psicológica, que constituyen los más habituales diagnósticos de exclusión (5) (6) (7) (8). Se ha encontrado en multitud de trabajos numerosos factores de riesgo pre y postparto (5) (6) (9) incluyendo la presencia de historia familiar positiva en un porcentaje variable de casos (10) (11) con sospecha de herencia autosómica dominante, y que parece indicar que este patrón de MPI podría actuar como marcador de riesgo en problemas del neurodesarrollo (5) (12) (13) llegando al punto de proponer a la marcha de puntillas como un síndrome (14), que incluye o no la retracción del tríceps sural (3) (15) (12) (16) (17) (18) (19) (20) (21) (22).

Se ha descrito la relación entre el retraso de determinadas características del neurodesarrollo de la motricidad fina, gruesa o incluso el lenguaje con la MPI sin aclarar bien la fisiopatología subyacente (14). En conclusión el diagnóstico de la MPI es clínico, excluyente, evolutivo, autolimitado con frecuencia pero precisando por tanto descartar siempre etiología neurológica, psiquiátrica y/o ortopédica (23) como detallaremos más adelante.

1.2. Hipótesis etiopatogénicas

1.2.1. Controversias diagnósticas y desarrollo motor

La literatura advierte de la presencia de historia familiar positiva en niños con MPI entre el 10 y el 88% de casos (6). De igual forma se ha descrito un patrón característico de desarrollo que incluye la marcha infantil con taloneo constante durante la postura hasta los 18 meses con un período de tiempo medio de 22.5 semanas después del inicio de la deambulación independiente (24) como situación frecuente, considerándose fisiológico por tanto la marcha en puntas antes de los 3 años y/o 6 meses después del inicio de marcha independiente (5), sin embargo a pesar de que la MPI se ha descrito como una variante normal de la marcha temprana, no ha sido respaldado por todos los autores (24) su desarrollo típico, pues las características de este perfil de marcha no se muestran similares a las de los adultos.

Tampoco hay consenso entre autores sobre la maduración de la marcha infantil, proceso evolutivo que no se considera concluido hasta los 4-5 años (25) pero que en los niños con hasta los 7 u 8 años. Pese a pequeñas diferencias entre las características del desarrollo motor desde hace tiempo, se está logrando cierto consenso al respecto (26).

El dolor en el pie o la pierna puede ser una queja en la evaluación inicial (9) (27) (28) habiéndose descrito también en los niños de MPI caídas frecuentes o tropiezos con deambulación (29) (30) (31).

Mediante la introducción de nuevas herramientas como la resonancia nuclear magnética funcional (fcRNM) se han identificado redes cerebrales funcionales asociadas a la marcha en niños sanos, encontrándose variantes en la conexión de redes neurales motoras comunes con la atención (zonas dorsal y cíngulo-opercular). Los análisis de la función motora gruesa general también revelaron la implicación de la motricidad y sus redes en modo predeterminado a los 12 y 24 meses, con las de la atención en el área dorsal, redes cíngulo-operculares, frontoparietales y subcorticales adicionalmente implicado a los 24 meses. Ambos hallazgos sugieren que los cambios en las relaciones cerebro-comportamiento en el ámbito del nivel de red, se relacionan con la consolidación de las habilidades motoras gruesas y de la marcha en lactantes (32), lo que explicaría la relación entre ambos procesos, sustentado por su co-ocurrencia y la coincidencia estadística.

La MPI fue relacionada inicialmente con el acortamiento del tendón del tríceps sural y descrita como origen de un trastorno de etiología desconocida, caracterizado por la ausencia de taloneo en presencia de acortamiento del aparato flexor de tobillo como patrón etiopatogénico inicial (30). Esta definición fue ampliada a la ausencia de taloneo casi permanente con o sin retracciones de etiología desconocida, reservándose el término de marcha idiopática de puntillas o MPI (“idiopathic toe walking” ó ITW) en la literatura médica a aquella situación en la que los niños caminan con un patrón de la marcha de apoyo principal en puntas sin causa conocida (23) con o sin retracción del Aquiles, como ya habíamos comentado. La serie que en 1967 Hall describió

(33) de 20 pacientes, con marcha de puntillas asociada al acortamiento congénito del tendón de Aquiles fue ampliada seis años después con la descripción de las primeras series familiares de pacientes con similar condición (34), apuntando a la posible herencia autosómica dominante de base y con el elemento común de ser niños que caminaban de puntillas en los que la exploración neurológica era rigurosamente normal. La asociación de la marcha de puntillas ha sido descrita en numerosas patologías sin acortamiento aquileo pero con exploración neurológica anormal (30) tal como es el caso de las miopatías, neuro-miopatías, lesiones espinales, alteraciones de desarrollo como autismo, asperger y un largo etc, obligando a acotar el término “marcha de puntillas idiopática” (MPI) o “idiopathic toe walking” (ITW) a los casos de origen incierto con exploración neurológica normal. A grandes rasgos, además del origen familiar se admiten otros cuatro grandes grupos de patologías (35) aparte del referido de herencia autosómica dominante con expresividad y/o penetrancia variable, que podrían estar relacionadas.

Hay una segunda hipótesis de génesis de la MPI que se refiere asociada al uso de elementos externos como el uso de tacatá/andador o la bipedestación forzada en fases precoces del desarrollo como factor causal hasta en el 63,9% de los casos (6) con existencia de una limitación global en la flexibilidad articular que ocasionaría una marcha de puntillas como compensación (33).

Otra tercera hipótesis, defiende una anomalía en el procesamiento sensorial propioceptivo del menor (34) (35) (36). Ciertas series encuentran hasta el 25% de casos de MPI relacionados con asimetría notable en las respuestas somestésicas corticales e incluso hallazgos aislados de trastornos de conducción (37). Estos autores relacionan esta hipótesis con la hipótesis de persistencia de la marcha asistida y creen que al menos en algunos casos, la presencia de la MPI altera el desarrollo de la corteza somestésica provocado por requerimientos propioceptivos diferentes (12). En la misma línea, otros estudios han demostrado que el umbral de sensibilidad vibratoria es menor en los pacientes con MPI e hipotetizan sobre una alteración en la percepción somestésica detrás de la MPI y de otros tipos de equinismo (35).

Una cuarta hipótesis apunta a la presencia de anomalías de posible origen genético halladas en los músculos de pacientes con MPI en los cuales se ha encontrado un aumento de fibras musculares tipo I con agrupamiento anormal de fibras nerviosas y fibras musculares atípicas con capilares engrosados. Sin embargo, estos hallazgos podrían sugerir o bien procesos adaptativos y/o de reinervación propios de neuro-miopatías subclínicas (16). Es conocido que los músculos tríceps sural de la población normal se componen en su mayor parte de fibras musculares tipo II. La presencia en la MPI de las fibras de tipo I en el tríceps sural, fibras que son tónicas, de contracción lenta y resistente a la fatiga, bien podría ser un trastorno adaptativo por el abuso de períodos prolongados de activación gemelar como adaptación inducida por su entrenamiento (16).

La quinta hipótesis de origen incorporaría aquellos casos, al igual que en el caso de la segunda hipótesis en los que se observaron acortamientos o limitaciones en la flexibilidad articular

predisponente (33) como compensación con la marcha en puntas tal y como se describe en las primeras series descritas de Hall para la MPI (15). El acortamiento del tendón del tríceps sural puede aparecer tras años de marcha en puntas (30) por lo que al principio los niños más pequeños que andan en puntas tienen menos restricción en el rango de movimiento pasivo (PROM) de la dorsiflexión del tobillo (DF) en comparación con jóvenes o adultos (9). Los niños que no presentan una MPI constante se ha observado que presentan mayor PROM que aquellos en los que la MPI es constante (9). La limitación en la dorsiflexión (DF) de tobillo suelen presentar mayor frecuencia de lesiones que el resto (38) especialmente dolor y/o patología de ante, medio o retropié en la edad adulta (39). Estos hallazgos indican tratar especialmente a aquellos niños con MPI con rango disminuido de DF de tobillo y/o aquellos en los que la MPI es permanente u obligatoria para ellos (12), aunque el rango de pérdida del PROM de DF no ha podido correlacionarse directamente el rango dinámico de DF (29), es más frecuente encontrar niños con PROM normal de DF de tobillo y MPI (18) (40).

A pesar de que el aspecto etiopatogénico suscita gran interés, a fecha actual no hay evidencia para confirmar o desmentir las hipótesis expuestas (23) con rotundidad.

1.2.2. La MPI como enfermedad genética vs adaptativa

Desde las primeras descripciones de Hall, ya se apuntaba a un patrón de herencia dominante de expresión variable (40), dejando abierta la posibilidad de trastornos genéticos no descritos y con penetrancia incierta. La presencia de fenotipos patológicos con el hallazgo de mayor proporción de fibras musculares tipo I en la MPI (16) o la aparición de trastornos de procesamiento sensorial (34) presenta aún escasa evidencia como para establecer esta hipótesis como determinante, pero muy interesante de desarrollar.

De los tres tipos de fibras musculares, I, IIa y IIb. Las fibras rápidas IIb, constituyen la mayoría de las fibras del aparato músculo esquelético, mientras que las de tipo I requieren de más tiempo para activarse y no son tan abundantes. A las fibras de tipo IIa se las denomina fibras rápidas, porque pueden contraerse en 0,01 segundos o menos tras la estimulación. Son de gran diámetro, con miofibrillas densas, grandes reservas de glucógeno, y pocas mitocondrias. Su contracción es directamente proporcional a la cantidad de sarcómeros, por lo que producen fuertes contracciones, algo que puede ser importante en músculos de tipo “explosivo” como el tríceps sural. A cambio las fibras de tipo IIb se agotan antes, requieren el uso de mucho ATP y esa necesidad en condiciones de uso continuado acaba siendo apoyada principalmente por el metabolismo anaerobio. Las fibras lentas o de tipo I tienen la mitad del diámetro que las rápidas y requieren el triple de tiempo para activarse después de la estimulación. El músculo con este tipo de fibra predominante presenta una red más extensa de capilares que aquellos con activación rápida requiriendo a cambio un suministro mayor de oxígeno (41). Las fibras lentas contienen el pigmento rojo de la mioglobina (se las denomina también fibras rojas o de lenta oxidación), proteína globular que al igual que la hemoglobina, se une reversiblemente a las

moléculas de oxígeno. Aunque otros tipos de fibras musculares contienen pequeñas cantidades de mioglobina, es más abundante en las fibras lentas las cuales poseen importantes reservas de oxígeno, movilizables durante la contracción. Para que las reservas de oxígeno y el suministro de sangre sean más eficientes, las mitocondrias de las fibras lentas pueden contribuir con más ATP durante la contracción. Por lo tanto, las fibras lentas son menos dependientes del metabolismo anaeróbico que las fibras rápidas. Parte de la producción de energía mitocondrial consiste en la degradación de los lípidos almacenados en lugar de glucógeno, por lo que las reservas de glucógeno de las fibras lentas son más pequeñas que los de las fibras rápidas. El tercer grupo de fibras, las intermedias, de rápida oxidación o Tipo IIa, son una combinación de las dos anteriores pues se parecen a las fibras rápidas, al contener poca mioglobina por lo que macroscópicamente son relativamente claras, pero presentan una red capilar más amplia, siendo por ello más resistentes a la fatiga que las fibras rápidas. Aquellos músculos que presentan ambos tipos pueden cambiar histológicamente con el acondicionamiento físico (29), ya que usarlos repetidamente para la resistencia hace que las fibras rápidas desarrollen el aspecto y las capacidades funcionales de las fibras intermedias, haciendo que el músculo sea más resistente a la fatiga (29). La regulación epigenética juega un papel importante en la modificación de las fibras, principalmente mediante la metilación del ADN, la modificación de histonas y la regulación de la expresión de mRNA, modificándose la capacidad metabólica, la función biológica mitocondrial y los tipos de fibra muscular gracias a la expresión génica del músculo esquelético (29), lo cual podría apoyar la base de alteraciones en la MPI de base genética con expresividad variable desconocida (40) (42).

1.2.3. La MPI como marcador de alteración de neurodesarrollo y disfunción cerebral

La relación entre la MPI y los trastornos del neurodesarrollo, en especial con el trastorno atencional y con los trastornos de espectro autista (TEA) se ha observado en diferentes estudios (43) (44), algunos validados específicamente con pacientes pediátricos de nuestro entorno (45).

El Manual Diagnóstico y Estadístico de los Trastornos Mentales (DSM-5) (46) establece criterios diagnósticos para los Trastornos del neurodesarrollo y, dentro de estos, para el Trastorno por déficit de atención/hiperactividad basándose en criterios consensuados (47).

Los Trastornos del neurodesarrollo son un grupo de afecciones con inicio en el periodo del desarrollo. Los trastornos se manifiestan normalmente de manera precoz durante el desarrollo, a menudo antes de que el niño empiece la escuela primaria, y se caracterizan por un déficit del desarrollo de magnitud suficiente para producir deficiencias en el funcionamiento personal, social, académico u ocupacional.

Los criterios diagnósticos del Trastorno por déficit de atención e hiperactividad (TDAH) incluyen:

A. Patrón persistente de inatención y/o hiperactividad-impulsividad que interfiere con el funcionamiento o desarrollo, que se caracteriza por (I) y/o (II):

A.1. Inatención: Seis (o más) de los siguientes síntomas se han mantenido durante al menos 6 meses en un grado que no concuerda con el nivel de desarrollo y que afecta directamente a las actividades sociales y académicas o laborales:

Nota: Los síntomas no son sólo una manifestación del comportamiento de oposición, desafío, hostilidad o fracaso en la comprensión de tareas o instrucciones. Para adolescentes mayores y adultos (desde 17 años), se exigen como mínimo 5 síntomas.

- a. Fallo con frecuencia al prestar la debida atención a los detalles o que por descuido se comentan errores en las tareas escolares, el trabajo o durante otras actividades (p.ej., se pasan por alto o se pierden detalles, el trabajo no se lleva a cabo con precisión, etc.).
- b. Con frecuencia tiene dificultades para mantener la atención en tareas o actividades recreativas (p.ej., tiene dificultad para mantener la atención en clases, conversaciones o la lectura prolongada).
- c. Con frecuencia parece no escuchar cuando se le habla directamente (p. ej., parece tener la mente en otras cosas, incluso en ausencia de cualquier distracción aparente).
- d. Con frecuencia no sigue las instrucciones y no termina las tareas escolares, los quehaceres o los deberes laborales (p. ej., inicia tareas, pero se distrae rápidamente y se evade con facilidad).
- e. Con frecuencia tiene dificultad para organizar tareas y actividades (p. ej., dificultad para gestionar tareas secuenciales, dificultad para poner los materiales y pertenencias en orden; descuido y desorganización en el trabajo, mala gestión del tiempo, no cumple plazos).
- f. Con frecuencia evita, le disgusta o se muestra poco entusiasta en iniciar tareas que requieren un esfuerzo mental sostenido (p. ej., tareas escolares o quehaceres domésticos; en adolescentes mayores y adultos incluye preparación de informes, completar formularios y/o revisar artículos largos).
- g. Con frecuencia pierde cosas necesarias para tareas o actividades (p. ej., materiales escolares, lápices, libros, instrumentos, billetero, llaves, papeles del trabajo, gafas, móvil).
- h. Con frecuencia se distrae con facilidad por estímulos externos (para adolescentes mayores y adultos, puede incluir pensamientos no relacionados).
- i. Con frecuencia olvida las actividades cotidianas (p.ej., hacer las tareas, hacer las diligencias; en adolescentes mayores y adultos, devolver las llamadas, pagar las facturas, acudir a las citas).

A.2. Hiperactividad e impulsividad: Seis (o más) de los siguientes síntomas se han mantenido durante al menos 6 meses, en un grado que no concuerda con el nivel de desarrollo y que afecta directamente las actividades sociales y académicas o laborales:

Nota: Los síntomas no son sólo una manifestación del comportamiento de oposición, desafío hostilidad o fracaso en la comprensión de tareas o instrucciones. Para adolescentes mayores y adultos (a partir de 17 años de edad), se requiere un mínimo de cinco síntomas.

- a. Con frecuencia juguetea con o golpea las manos o los pies o se retuerce en el asiento.
 - b. Con frecuencia se levanta en situaciones en que se espera que permanezca sentado (p.ej. se levanta en clase, en la oficina o en otro lugar de trabajo, o en otras situaciones que requieren mantenerse en su lugar).
 - c. Con frecuencia corretea o trepa en situaciones en las que no resulta apropiado (Nota: en adolescentes y adultos, puede limitarse a estar inquieto).
 - d. Con frecuencia es incapaz de jugar o de ocuparse tranquilamente en actividades recreativas.
 - e. Con frecuencia está “ocupado”, actuando como si “lo impulsara un motor”.
 - f. Con frecuencia habla excesivamente.
 - g. Con frecuencia responde inesperadamente o antes de que se haya concluido una pregunta.
 - h. Con frecuencia le es difícil esperar su turno.
 - i. Con frecuencia interrumpe o se inmiscuye con otros.
- B.** Algunos síntomas de inatención o hiperactivo-impulsivos estaban presentes antes de los 12 años.
- C.** Varios síntomas de inatención o hiperactivo-impulsivos están presentes en dos o más contextos (p. ej., en casa, en la escuela o en el trabajo, con los amigos o parientes, en otras actividades).
- D.** Existen pruebas claras de que los síntomas interfieren con el funcionamiento social, académico o laboral, o reducen la calidad de los mismos.
- E.** Los síntomas no se producen exclusivamente durante el curso de la esquizofrenia o de otro trastorno psicótico y no se explican mejor por otro trastorno mental.

Es conveniente especificar:

- Presentación combinada: Si se cumplen el Criterio A1 (inatención) y el Criterio A2 (hiperactividad-impulsividad) durante los últimos 6 meses.
- Presentación predominante con falta de atención: Si se cumple el Criterio A1 (inatención) pero no se cumple el Criterio A2 (hiperactividad-impulsividad) en los últimos 6 meses.

- Presentación predominantemente hiperactiva/impulsiva: Si se cumple el Criterio A2 (hiperactividad-impulsividad) y no se cumple el Criterio A1 (inatención) durante los últimos 6 meses.

Las encuestas de población sugieren que el TDAH ocurre en la mayoría de culturas en aproximadamente el 5% de los niños y el 2,5 % de los adultos.

Para un acercamiento al diagnóstico del TDAH se han empleado en todo caso sospechoso por clínica o anamnesis, test o escalas validadas como la escala para la “Evaluación del Trastorno por Déficit de Atención con Hiperactividad” (EDAH) (48) (49) (50) y la Tarea de Atención Sostenida en la Infancia-Revisada (CSAT-R) (51). Es de esperar implementar en el futuro mejoras en la capacidad diagnóstica mediante baterías de test de nuevo desarrollo como el e-TDAH (52), aunque estas dos son sumamente empleadas en nuestro entorno.

El Test EDAH es frecuente que se emplee en una primera fase de diagnóstico como cribado, permite al evaluador elaborar hipótesis diagnósticas y en una fase más avanzada de diagnóstico o en situaciones en las que el niño recibe medicación, permite poder realizar una valoración y seguimiento de los efectos terapéuticos.

La escala EDAH consta de 20 ítems (que contestan los padres o profesores), con dos subescalas que permiten diferenciar entre el diagnóstico de TDAH y el Trastorno de conducta. Además, permite valorar si se dan criterios relacionados con el TDAH predominantemente hiperactivo impulsivo, con el TDAH predominantemente atencional o TDAH de tipo combinado. Dichos ítems, se relacionan con los criterios diagnósticos que establecía el DSM-IV, vigente cuando se diseñó el cribado y efectuó la prueba. Se aplica a niños con edades comprendidas entre los 6 y los 12 años (escolarizados entre 1º y 6º de Educación Primaria). Su aplicación es individual, con una duración de 10-15 minutos y es sumamente empleado en el mundo educativo por su eficacia.

La Tarea de Atención Sostenida en la Infancia-Revisada (CSAT-R) es una versión de las denominadas “tareas de ejecución continua”, utilizadas para la evaluación de la atención sostenida y la impulsividad. Este tipo de tareas consisten en la presentación de diversos estímulos (imágenes, letras o números) en una pantalla de ordenador durante un periodo de tiempo concreto en el cual el evaluado debe emitir una respuesta motora ante la aparición de un estímulo o de una combinación de estímulos determinada. En concreto, en la CSAT-R se presenta secuencialmente una serie de números durante 7 minutos y medio. El niño tiene que presionar la barra espaciadora del teclado cada vez que aparece en pantalla el número 3 precedido por el número 6.

El CSAT-R se aplica a niños con edades comprendidas entre los 6 y los 10 años de edad. Se trata de una prueba especialmente útil en el caso de los niños con sospecha de TDAH o de problemas de aprendizaje. El test permite comparar tanto el rendimiento del evaluado con el de su grupo de referencia como el rendimiento de la misma persona en momentos diferentes, ya que las tareas

informatizadas de atención han demostrado ser altamente sensibles a las mejoras del rendimiento atencional inducido por los psicofármacos.

Numerosas series han encontrado correlación entre la aparición de la MPI como la expresión motora de una disfunción cerebral mínima (5) (8). Algunos estudios han detectado alteraciones relacionadas con el control motor, la visuo-percepción, la integración espacial e incluso el desarrollo del lenguaje (5) (13) sugiriéndose la posibilidad de que bajo el trastorno se encuentre una alteración del procesamiento sensorial (53). Esta línea de investigación ha encontrado alteración de los sistemas que procesan la información sensitiva del propio cuerpo e implican alteraciones en la percepción del entorno orientativas hacia otros mecanismos etiopatogénicos (53), ya que se han encontrado peores resultados no sólo en los test que evalúan el perfil sensorial o la competencia motora, sino también peores umbrales de percepción de vibración, peor resultado en los test de equilibrio monopodal, en las pruebas de Integración Sensorial y en las praxias respecto a los niños con marcha normalizada (54) (55). Las evaluaciones realizadas por profesionales especializados ya sean neurólogos, terapeutas ocupacionales o fisioterapeutas (5) encontraron que un tercio presentaban retrasos motores finos, 40% retrasos viso-motores y más de la cuarta parte (27%) retrasos motores gruesos, retrasos en el habla y lenguaje y/o en otras áreas. Todos estos hallazgos sugieren que la MPI constituye un buen marcador de problemas de desarrollo, obligando su presencia a actuar como signo de alerta de retrasos de otras áreas (5).

La investigación en los últimos diez años sobre neuroimagen funcional ha empezado a explicar que hay bajo la evolución del desarrollo motor grueso infantil. El desarrollo de la marcha no es sino una de las muchas funciones adaptativas del cerebro del niño para controlar y explorar mejor su entorno (56) al dotarle de mayor independencia y control del mismo, mejorando tanto la interacción social como la percepción de dicho entorno (57). Las variantes en el desarrollo de este proceso han permitido establecer diagnósticos clínicos a través de las desviaciones desde hace tiempo, bien por retraso en el desarrollo de los ítems locomotores o bien por la aparición de variantes adaptativas patológicas. Gracias al enorme desarrollo de las nuevas técnicas de neurobiología y neuro-imagen se han podido encontrar correlatos neurales a las variantes clínicas, aportando importantes conocimientos sobre los mecanismos tanto del desarrollo cognitivo como del desarrollo motor, lo que implica numerosas acciones cognitivas incluyendo la percepción y la planificación de las acciones motoras (58). Las estructuras cerebrales cuya función es primordial para la evolución de la función motora incluyen el cerebelo, la corteza prefrontal dorsolateral, ambas implicadas en el control motor del desarrollo de la motricidad en su fase precoz (59) correlacionada con la maduración cognitiva, y con el desarrollo de logros académicos y/o de nuevas funciones ejecutivas, por lo que se sigue investigando su relación con la MPI (60).

Muy prometedor parece el empleo de técnicas de RNM funcional en estado de reposo (fc-RNM) para el estudio del desarrollo cerebral en la infancia (61). Mediante dicha técnica se estudian las variaciones en el nivel de oxígeno en sangre señal-dependiente (BOLD) en todas las

zonas del cerebro, y su arquitectura funcional. Este tipo de estudios ha permitido caracterizar los primeros perfiles de maduración de algunas redes, incluida la red sensoriomotora (61). En niños mayores, el control motor se basa en circuitos motores bien establecidos, que son críticos para el desarrollo infantil típico. Algunos autores han encontrado correlación (62) entre un mejor rendimiento motor y una mayor conectividad del circuito del motor lateralizado a la izquierda (hemisferio izquierdo medio - hemisferio derecho medio), que abarca velocidad, ritmo y control del movimiento. La velocidad más rápida se asoció con una mayor conectividad del putamen-tálamo lateralizado a la izquierda, menos desbordamiento con más conectividad del motor primario-motor suplementario lateralizado a la izquierda y menos disritmia con más conectividad del área lateral izquierda motora complementaria cerebelosa. Estos hallazgos sugieren que para los niños diestros, el desarrollo motor superior depende del establecimiento del dominio del hemisferio izquierdo en la conectividad intrínseca de la red motora. En el caso de los TEA se han encontrado alteraciones estructurales (63) y déficits motores (61) asociados incluyendo las alteraciones en la marcha (63) compatibles. Aún se desconoce si el desarrollo de las habilidades motoras gruesas en fases iniciales está correlacionado con la conectividad entre ciertas redes, y aunque no se conocen aún, cada vez se estrecha el cerco para definir su origen. Gracias a estudios como el IBIS, (Infant Brain Imaging Study) (32) que analizó imágenes del cerebro infantil correlacionado con el comportamiento de lactantes con alto y bajo riesgo familiar para TEA, grupos en los que aparecen retrasos en el desarrollo (64), se está avanzando en el área. Se piensa que esta estrategia permitirá identificar la relación de la adquisición de la marcha y la función motora gruesa general entre los 12 y los 24 meses, permitiendo identificar qué redes motoras están afectadas y su detección precoz, habida cuenta de la importancia que esas redes pueden tener por la rápida evolución de la marcha que se produce durante este período.

1.2.4. La MPI como variante benigna y auto-limitada del desarrollo

La marcha de puntillas se considera en numerosas series el resultado de la inmadurez del sistema neuromuscular del niño pequeño, que rara vez obliga a intervenir (21). Entre el 12 y el 77% de casos no hallamos antecedente familiar o perinatal subyacente alguno, los exámenes neurológicos son totalmente normales siendo la bilateralidad, intermitencia y resolución espontánea, orientativas de ese carácter benigno y auto-limitado tan frecuentemente descrito (65). Hay reservas en aquellos donde la dorsiflexión del tobillo no se conserva habitualmente por retracción del tríceps sural, agravada por el crecimiento (8), en cuyo caso la realización de medidas conservadoras como fisioterapia, yesos seriados con/sin férulas nocturnas o TxBA intentan resolver la sintomatología (23). El alargamiento quirúrgico para corrección del trastorno, depende del grado de alteración, suele describirse entre los 3-8 años, habitualmente antes de los 10 años y suele reservarse para niños con MPI en los que disminuye el ángulo de flexión dorsal de tobillo por debajo de 5-10° sin respuesta a terapia conservadora (12).

Varias series amplias de MPI muestran resolución espontánea de parte de la clínica descrita como dolor o caídas. A ello se suman los estudios que afirman la escasa efectividad a largo plazo de las intervenciones sobre MPI en la mayoría de los casos severos, sin detrimento de aquellas (13) en las que se han descrito alteraciones de la estructura y función muscular con funcionalidad subyacente poco relevante (34) (33). Estos datos sin duda pueden contribuir a describir una escasa percepción de enfermedad entre profesionales y familias que sólo la profundidad del seguimiento y rigor en la selección de la MPI establecerá como adecuado a la realidad observada.

1.3. Fisiopatología

La fisiopatología de la MPI no está del todo bien definida. Se ha observado que los niños con MPI presentan un inicio prematuro de la actividad del tríceps sural al final de la fase oscilante de la marcha y una distribución anómala de la actividad del músculo tibial anterior que provoca tanto el solapamiento como la descoordinación de contracción, entre las actividades musculares del tibial anterior y del tríceps sural (30).

La comparación del patrón de marcha de los pacientes con MPI respecto a formas leves de diplejia espástica, ha permitido avanzar en las diferencias fisiopatológicas que existen en la producción de un fenómeno biomecánico similar (Tabla 1).

Tabla 1. Diferencias en la marcha de pacientes con MPI vs diplejia espástica (20) (66).

	MPI	Diplejia espástica
Fenómeno fisiopatológico que se considera inicial.	Flexión plantar del tobillo excesiva.	Flexión excesiva de la rodilla.
Tobillo durante el apoyo inicial.	En flexión plantar.	En flexión dorsal.
Tobillo durante la fase oscilante.	Dorsiflexión inicial con flexión plantar repentina.	Dorsiflexión aumenta posteriormente.
Rodilla.	Leve hiperextensión en el apoyo.	Flexión en el apoyo.
Rotación del pie.	Externa.	Interna.
Variabilidad de la flexión del tobillo.	Aumentada.	Disminuida.

I.4. Diagnóstico, evolución y pronóstico de la MPI

La primera dificultad que nos encontramos para llegar al diagnóstico de marcha de puntillas y concretamente la variante idiopática o MPI reside en que puede ser un fenómeno difícil de observar y diagnóstico de exclusión por definición (30). Algunos pacientes con MPI pueden realizar un patrón de marcha con taloneo al ser valorados por el personal sanitario y mantener el patrón de marcha anómalo y perjudicial posteriormente, por lo que se requiere de cierta experiencia para poder evaluarla. Es importante conseguir que la marcha sea espontánea mediante la interferencia en el control consciente del paciente de la misma con distracciones de algún tipo (67). También es muy valiosa la información proporcionada por los padres, aunque la subjetividad inherente a este método y la percepción de normalidad en los casos familiares también provocan limitaciones en este punto (68). Parece útil el patrón de desgaste del calzado concentrándose este en la punta de la suela del zapato (69) o sus laterales.

La prevalencia estimada de la MPI varía entre el 5% (70) al 12% de los niños sanos, y comúnmente afecta a los niños más que a las niñas (35) (70). Algunos estudios muestran extremos más amplios entre el 2.1% y el 24% de la población sana menor de 5 años (9), con una media de 7% en población infantil (15) y con mayor frecuencia de aparición en el sexo masculino que el femenino (6) (16) (8) (40). Esa variedad se comprende al ser un diagnóstico de exclusión cuyos criterios de selección pueden ser distintos según el rigor empleado en la selección de la muestra.

Existen estudios que incluyen y otros que excluyen procesos con alteraciones leves del neurodesarrollo o Aquiles corto congénito de causa no filiada. Ello depende a veces de la fecha de publicación o su exigencia de criterios excluyentes de acortamiento de Aquiles, primera entidad con la que se describió la MPI (15) y a pesar de que en más del 50% de los casos el rango de DF de tobillo en la MPI es rigurosamente normal (5). Como diagnóstico de exclusión la primera entidad a incluir suele ser la diplejía espástica leve (71), pero es la primera de una larga lista de patologías (tabla 2) que incluyen miopatía, médula anclada, neuropatía periférica, trastorno generalizado del desarrollo (TGD), trastornos neuromusculares, pie equino-varo, etc. (5) (71) (72) (73)

Tabla 2. Diagnóstico diferencial de la marcha idiopática de puntillas (74) (53).

	Enfermedades.
Trastornos neurológicos supra-espinales.	Parálisis cerebral infantil. Trastorno de neurodesarrollo (“Developmental Coordination Disorder”). Lesiones piramidales. Hipercinesias. Distonía transitoria (suele ser unilateral).
Trastornos neurológicos espinales.	Lesión de la médula espinal congénita o adquirida. Diastematomielia. Tumor espinal. Lesión de cordones posteriores.
Trastornos nerviosos y musculares.	Neuropatía. Atrofia muscular de los músculos peroneos. Distrofias musculares.
Trastornos ortopédicos.	Contractura congénita del tendón de Aquiles y del tríceps sural. Pie zambo congénito. Discrepancia en la longitud de MMII (suele ser unilateral). Artrogriposis.
Trastornos paído-psiquiátricos.	Trastorno generalizado del desarrollo (TGD).

En aquellos menores con MPI y exploración neurológica normal se puede encontrar asociación con trastornos del lenguaje y neurodesarrollo como se ha descrito anteriormente (5) (53). En los casos con afecciones neuro-psiquiátricas la prevalencia aumenta específicamente en pacientes con trastorno del espectro autista (TEA) observándose incidencia y prevalencia de MPI hasta del 41%, (48) (32). Ya que el diagnóstico de MPI es eminentemente clínico y excluyente, se debe realizar su despistaje por parte de un equipo multidisciplinar que incluya terapeutas ocupacionales que estudien alteraciones de procesamiento sensorial ante las sospechas de alteraciones vestibulares neurales o similares (36) junto con la valoración de logopedas/foniatras (13) y exploración neurológica y ortopédica sistematizada (75) realizada generalmente por un médico especialista neurólogo, neuropediatra, cirujano ortopédico, fisiatra-rehabilitador y/o pediatra habitualmente (5) (72). La valoración neurológica de estos pacientes debe ser exhaustiva incluyendo tono muscular, los reflejos osteomusculares, la fuerza y la sensibilidad que deben ser normales (30) Descartar patologías psiquiátricas asociadas a marcha de puntillas suele ser sencillo en escolares, pero es muy difícil al inicio del cuadro. La valoración ortopédica es fundamental y requiere diagnosticar precozmente la presencia de retracciones musculares desde el inicio o con la evolución del proceso (74). Por todo ello, ya hay autores que definen la MPI más como “signo” que característica o enfermedad (76).

1.4.1. Evolución clínica de la MPI

El motivo de consulta más frecuente por el que los padres solicitan asistencia es junto a la preocupación de ausencia de taloneo, el dolor (8). Dicho dolor a veces difícil de interpretar y/o delimitar (zona plantar, aquilea, talar, antepié, tobillo...) y una de las causas más importantes de discapacidad siendo también causa frecuente de consulta la torpeza motora, caídas frecuentes o deformidades derivadas del acortamiento del brazo de palanca mantenido en el tiempo (9).

En cuanto al tema ortopédico, pese a que más del 50% de los niños que caminaron de puntillas tenían una extensión dorsal normal o levemente limitada de la articulación del tobillo (5) ciertos estudios han observado una disminución mayor en el rango de movimiento articular (media: -5.2 grados) hasta en el 46% de casos (9), por lo que se deduce que, al diagnóstico, a los niños con MPI se les debe considerar con más riesgo de restricción grave de la movilidad del tobillo. Además, tienen tres veces más riesgo de no participar en actividades físicas y deportivas durante la infancia con las consecuencias sobre el desarrollo metabólico, físico e intelectual que ello conlleva (77). El patrón de marcha de los niños con MPI no puede ser rectificado siempre de modo que, cuando se les pide a estos niños que intenten una marcha normal en el talón, tan solo el 17% (78) pudieron normalizar las variables de postura y oscilación del paso (swing) llegando en ciertas series al 70% de casos en los que aparece dolor justo debajo de las rodillas (9). Un pequeño porcentaje de casos evoluciona hacia la persistencia de la alteración de la marcha con la posibilidad de complicarse con deformidades potencialmente evitables susceptibles de cirugía en caso de acortamiento del Aquiles (21). La evolución a largo plazo de la MPI ha sido menos documentada (30) aunque ciertos estudios arrojan algo de luz sobre su evolución a largo plazo (79). El desarrollo de limitación en la movilidad del tobillo a largo plazo en ciertos pacientes está descrito, pero las implicaciones funcionales de este hecho son en gran parte desconocidas (33) (74) (9). La evolución del patrón de marcha difiere en función de los diferentes estudios (tabla 3). Casi ningún estudio ha comprobado la hipótesis original de Hall (80) que defendía que la MPI persistente acaba ocasionado un valgo en el antepié con una marcha alterada compensatoria (80) (20).

Volviendo al dolor como síntoma de inicio, aunque no está del todo bien tipificado, los estudios que llegan a encontrarlo en un 70% de los pacientes al diagnóstico no lo precisan a largo plazo y aún se desconocen muchos aspectos de su evolución (30). Hay algún estudio que encontró que en seguimiento a largo plazo (de 7-21 años), a pesar del tratamiento fisioterapéutico, un 15% de los pacientes siguen con dolor a la marcha prolongada (21), con factores involucrados de los que se sabe tan poco como de los factores de riesgo para desarrollar contracturas fijas.

Varios estudios retrospectivos, han visto relación con la presencia de antecedentes familiares (12) (80) (42). En estudios transversales, se describió que los pacientes que habían tenido MPI y que desarrollaban limitación grave del movimiento en el tobillo eran más altos y pesaban más que el grupo control, si bien la influencia del índice de masa corporal pudiera no haberse estudiado con la profundidad necesaria (33).

La MPI suele asociarse en el momento del diagnóstico a síntomas inespecíficos que pasan desapercibidos ya sea por ser difíciles de definir o porque la mediana de edad en la primera consulta suele oscilar entre los 2 y 4 años (12) con expresividad oral limitada para decir lo que sienten. En menores hay descripción de problemas asociados de equilibrio (46% de los pacientes), problemas con el calzado (32%), dolor (27%) o problemática paterna con la marcha percibida como no independiente (6,8%), lo que obliga a evitar actitud expectante (6) teniendo que integrar protocolos de abordaje prudentes, consensuados y basados en la evidencia disponible (75).

Tabla 3. Evolución en distintas series del patrón de MPI con actitud conservadora.

	Stricker et al. 1998 (8)	Eastwood et al. 2000 (81)	Taussig et al. 2001 (12)	Hirsch et al. 2004 (21)
Criterio de MPI	No indicado	Marcha de puntillas observada o reportada con exclusión de otras patologías	Marcha de puntillas observada o reportada con exclusión de otras patologías	Marcha de puntillas observada con exclusión de otras patologías
Tipo de estudio	Retrospectivo	Retrospectivo	Retrospectivo	Prospectivo
Edad al diagnóstico	Mayores de 3 años	Mediana: 4 (1,5-10) años	3 años (12 meses-12 años)	6,45 (3-9,9) años
Tiempo de seguimiento: Media (rango)	34 meses	Mediana 3,2 (2-12,8) años	7 (3-20) años	14,5 (7-21) años
Corrección espontánea o con fisioterapia	3/44 (mejora del ángulo de dorsiflexión: 6,8%)	Según pacientes: 6-45% (según médicos 12%)	29/40 (72,5%)	8/11 (72,7%)

Además, aunque el diagnóstico de MPI obliga a la exclusión de patologías neurológicas y psiquiátricas, existe una comorbilidad neuropsiquiátrica consistente en trastornos mínimos del desarrollo, importantes para diagnosticar y tratar activamente en el momento del diagnóstico (8). Se ha visto asociación con problemas en el desarrollo del lenguaje, del control motor fino y grosero y del control visuo-motor (5). Algunas series amplias (80 niños) mostraban hasta en el 16% de casos un cierto retraso psicomotor o del lenguaje (8) e incluso hasta el 50% de los pacientes de ciertas series (82) presentaban alguna alteración del neurodesarrollo. Otros autores llegaron a estimar un riesgo de 7 veces más para alteraciones en el desarrollo del lenguaje, 3 veces más para alteraciones en el desarrollo visual e incluso algunos encontraron problemas en el desarrollo auditivo (5).

1.4.2. La clínica como decisión para tratar o no tratar

Debido a la variabilidad de aparición de la MPI (83) (84), al difícil diagnóstico diferencial de la MPI (30), y a la posibilidad de encontrarnos con un patrón de MPI “oculto” voluntariamente por el niño (67) se requiere experiencia y rigor en la exploración observacional de la marcha. Es importante conseguir que la marcha sea lo más espontánea posible mediante la interferencia en el control consciente del paciente de la misma empleando distracciones de algún tipo (30). También es muy valiosa la información proporcionada por los padres si bien la subjetividad inherente a este método y la percepción de normalidad en los casos familiares también provocan limitaciones en este punto (67). Se ha recogido la variable “patrón de desgaste del calzado” cuando se concentra este en la punta de la suela del zapato por su utilidad (12). En nuestro estudio se elaboró un protocolo clínico y para el diagnóstico diferencial (31) (66) (69) incluyendo test de despistaje de trastornos del desarrollo e instrumental de la marcha. También se ha incluido en el estudio la valoración ortopédica y goniométrica, muy importante para detectar acortamientos (74) del tríceps sural con repercusiones en la cadena flexora lumbosacra e isquiocrural, incluyendo el ángulo lumbohorizontal (95) y la medición del tríceps sural mediante el test de Silfverskiöld, pese a las dificultades de establecer la fiabilidad de dichos valores (86), pero esenciales por la necesidad de establecer un diagnóstico precoz (33) de contracturas y acortamientos musculotendinosos relevantes (87). La valoración neurológica de estos pacientes debe realizarse siempre de forma exhaustiva incluyendo el tono muscular, los reflejos osteotendinosos, la fuerza y la sensibilidad que deberían ser normales (30).

1.4.3. Dolor y MPI

El dolor es una experiencia sensorial y emocional desagradable asociada o que se asemeja a la asociada, a una lesión tisular real o potencial (88) y descrito como síntoma de aparición frecuente en la MPI (89). La relevancia de este síntoma en relación a la MPI ha sido descrita y estudiada, pero no siempre de forma precisa por las evidentes limitaciones que presenta un estudio específico en niños que defina bien aspectos como la intensidad con escalas adaptadas, el tipo (nociplástico, somático..) su etiopatogenia, la localización anatómica precisa, la influencia en la vida del menor, características del mismo y/o tratamientos capaces de modularlo (90). Actualmente ya se define al dolor como la quinta constante de obligado estudio en toda investigación clínica sobre menores que pueda incluir su potencial existencia (91).

La limitación del tiempo en la consulta no siempre permite al clínico obtener toda la información necesaria o relevante en la MPI del dolor en los niños (92), una de las variables más difíciles de evaluar según la edad. La nueva definición de dolor pediátrico (93) exige valorar aparte de su presencia o ausencia, su intensidad, los factores modificadores del dolor, la interferencia con la vida afectiva y social del menor y los posibles factores modificadores (91). Cada vez son mayores los esfuerzos que se realizan para acotar y prevenir el dolor del niño en esta y otras circunstancias, promoviendo que la metodología para el estudio, evaluación y tratamiento del dolor pediátrico se incorpore de forma rutinaria a toda la casuística posible (91).

En la MPI se ha encontrado que el dolor es el principal motivo de consulta en más de un tercio de los casos, seguido de la valoración del acortamiento aquileo, preocupación paterna, marcha anómala o simple valoración, casuística similar a las descrita en otros estudios (92). A fin de delimitar la relevancia del dolor y cubrir las cuestiones más importantes de su estudio, se sondearon las características de dicho dolor en la MPI mediante una encuesta telefónica adaptada, que incluía el estudio descriptivo de intensidad, frecuencia de localización, absentismo escolar asociado y tratamiento empleado en los menores con MPI aquejados con dolor (94).

La edad es crucial a la hora de valorar el dolor pediátrico (tabla 1) al tratarse de una experiencia subjetiva en la que intervienen factores fisiológicos, fisiopatológicos, psicológicos, emocionales y afectivos. Su definición ha sido reevaluada periódicamente a lo largo de los años, la última de ellas en 2018 (88). Según la IASP (Asociación Internacional para el Estudio del Dolor) el dolor se trataría de “una experiencia sensorial y emocional desagradable y subjetiva” por lo que su correcta evaluación requiere un abordaje multidisciplinar integrando un modelo biopsicosocial donde se incluyen las experiencias puramente dolorosas, la respuesta afectiva a dichas experiencias, los cambios sensoriales y cognitivos que conllevan y el comportamiento ante su existencia. El abordaje del dolor pediátrico supone todo un reto dado el elevado riesgo de infra diagnóstico por limitación o ausencia de adquisición del lenguaje en los niños más pequeños. La presentación a veces atípica como irritabilidad o aislamiento o incluso con frecuencia como ansiedad anticipatoria, no siempre permite su correcta valoración. Resulta crucial por tanto valorar la repercusión del dolor en la dimensión social del niño porque nos puede aportar gran información, por ejemplo, si ha dejado de jugar o la asistencia o no al colegio, aspecto incluido en el estudio junto a su auto-percepción (95).

Dependiendo de la edad del niño y de su desarrollo cognitivo y del lenguaje se consideran tres grupos distintos. En nuestro estudio, han sido pocos los menores de 3 años sin adquisición del lenguaje. En esos casos se emplearon los datos obtenidos por tercera persona (padres, enfermera, observador, etc..) fundamentales para definir principalmente la esfera conductual: expresión facial, posturas, llanto o movimientos corporales (96)

1.5. Terapias empleadas en la MPI. Criterios e indicaciones (97)

Podemos afirmar respecto al abordaje terapéutico de la clínica descrita, que la mayoría de los trabajos (79) (98) y guías (75) proponen intervención en la MPI adaptados a su evolución, siempre de forma gradual y según criterios consensuados con la familia (99). Esto obliga generalmente a una revisión regular del proceso a fin de controlar cualquier limitación tanto del PROM (rango pasivo de movilidad) como en la limitación de la DF del tobillo identificando de forma precoz la necesidad de intervención sin “sobremedicalizar” a los pacientes (100). Los abordajes terapéuticos actuales de la MPI incluyen ejercicios de estiramiento pasivo, ejercicios activos asistidos, propioceptivos, reeducación de marcha, tonificación selectiva de dorsiflexores de tobillo (75), inmovilizaciones, yesos seriados (6) (17), órtesis diurnas y/o nocturnas (21), plantillas (101), reeducación de marcha

con o sin infiltraciones con TxBA (102) e incluso cirugía si el proceso desembocara en alteraciones musculares con acortamiento músculotendinoso (generalmente del tríceps sural) (103) de manera similar a patologías más severas como la parálisis cerebral (87). Los diferentes protocolos de manejo del acortamiento (68) (75) sugieren restringir la actitud intervencionista con cirugía de alargamiento a casos recalcitrantes con clínica llamativa y contractura asociada (87).

1.5.1. Técnicas de biofeedback, control motor o estimulación funcional

Se han empleado técnicas de retroalimentación con refuerzo auditivo mediante un interruptor de talón sensible a la presión durante una hora al día 3 meses seguidos, informándose en series cortas de mejoras en el apoyo de talón en la MPI (4). Las técnicas de control motor también se han comunicado beneficiosas en la MPI (104) bajo similares circunstancias, concretamente fortaleciendo el gemelo para funcionar excéntricamente durante el segundo apoyo o “rocker” (balancín) de tobillo (27) (105). Otras intervenciones abordan la MPI en mayores de tres años desde la idea de una deficiencia de control motor a corregir (28). La intervención en el control motor trataría de mejorar la postura erguida en la bipedestación y la marcha, asegurando suficiente fuerza de reacción al suelo en relación con el eje del tobillo, similar propuesta por la que se supone beneficiosa la estimulación eléctrica funcional, pese a no disponer de evidencia que apoye el uso de tales técnicas en la MPI o el equinismo (106).

1.5.2. Programas domiciliarios de ejercicios

Son varios los autores que incluyen como terapia adyuvante o principal la realización de programas de ejercicios en domicilio tras docencia a la familia por de un profesional, generalmente un fisioterapeuta, encargarse de educar a los padres o cuidadores con el fin de poder manejar este trastorno (4) (71) (107) (30) (72) (73). En los centros de rehabilitación públicos se recomienda que dicha estrategia sea consensuada antes entre terapeutas y médicos especialistas para su correcta implementación (108).

1.5.3. Fisioterapia y MPI

A fin de prevenir contracturas y acortamientos musculares en menores con MPI, se ha empleado con frecuencia en primera línea de tratamiento la intervención del fisioterapeuta de forma precoz como método para mejorar la elasticidad (9) empleándose de manera habitual (71), aunque actualmente no haya aún evidencia concluyente con este tipo de técnicas de prometedora eficacia (109). En esa línea, la aplicación de masoterapia y terapia manual junto a los estiramientos (110) se ha empleado en MPI con o sin potenciación selectiva de dorsiflexores (DF) de tobillo, especialmente el tibial anterior, añadiendo reentrenamiento funcional, técnicas frecuentemente aplicadas para mejora del arco de movilidad del tobillo en la MPI (105), pese a

su evidencia relativa. Se ha descrito además de los estiramientos de los flexores plantares del tobillo y la potenciación del tibial anterior, la de otros músculos de extremidades inferiores y del tronco, ejercicios de tonificación con bandas elásticas, el biofeedback propioceptivo, las movilizaciones articulares del tobillo, el entrenamiento de la marcha y/o el entrenamiento en cinta rodante entre otros (71).

1.5.3.1. *Elaboración del protocolo propio de la sección de Rehabilitación Hospital universitario Infanta Sofía para tratamiento fisioterápico de la MPI*

Al inicio del estudio, realizamos la correspondiente búsqueda sistemática, constatando la baja evidencia para determinar la estrategia óptima frente al equinismo funcional o estructural (111). Las peculiaridades de la estructura y las características específicas del entorno sanitario eran una oportunidad para que el equipo de rehabilitación infantil del Hospital Infanta Sofía desarrollara su propio protocolo a fin de re-entrenar con rigor a los pacientes con MPI a pesar de la baja evidencia disponible (112) (113). A tal fin se diseñó para la PT de los niños tratados por MPI un protocolo de ejercicios domiciliarios, medida frecuentemente usada en otras patologías (114) (115) para emplear tanto en los que recibieran infiltración con TxBA (116) (109) como en los que no. El gimnasio donde se realizó el tratamiento presentaba características organizativas específicas (117) que permitían adaptar los protocolos empleados en MPI en otros entornos (75) similares al HUIS (118). El programa piloto comenzó en 2011 ampliándose hasta la versión final empleada en este estudio, cuyo protocolo definitivo fue aceptado e incorporado en junio de 2022 por la comisión de calidad del HUIS (anexo I).

1.5.4. **Órtesis y calzado**

La utilización de órtesis nocturnas estáticas (AFOs) o dinámicas (DAFOs) está descrita junto a modificaciones de calzado o tras la aplicación de yesos seriados con buenos resultados referidos (68). Se ha empleado en algunos estudios la órtesis tobillo-pie (AFO) para mantener el rango de movimiento y mejorar el patrón de la MPI. Hay estudios que avalan la utilización tanto de la órtesis articulada AFO con o sin DF asistida para el tobillo-pie con el objetivo de obtener una marcha talón - dedo del pie mejor que sin su utilización (30) (119). En cualquier caso y pese a que las series no son largas, si se ha observado que el patrón de apoyo de talón mejora mucho con el uso de órtesis altas (120). Respecto al uso de calzado, se ha empleado la suela rígida y horma recta, informándose de algunas mejorías en el patrón de MPI por lo que podría ser que se limitara la dorsiflexión en la articulación metatarso - falángica y, mejorase el patrón de MPI, aunque sin salir del campo de la hipótesis (72). Dentro de intervenciones similares podríamos incluir la reeducación mediante diferentes superficies y/o distintas aferencias táctiles a fin de mejorar el procesamiento sensorial, comunicándose mejoras en el patrón de MPI con este sistema de entrenamiento, si bien los estudios que lo avalan son limitados y precisan más investigación (121).

1.5.5. Inmovilización con yesos seriados (“serial casting”)

La corrección de las deformidades ortopédicas del pie mediante la aplicación de yesos seriados se ha empleado desde hace largo tiempo en patologías congénitas como el zambo congénito con notable éxito (111) por lo que se ha planteado incluir esta alternativa en las guías de manejo de MPI basadas en evidencia (75). La inmovilización diaria seriada junto a ejercicios posteriores de dorsiflexión y reeducación de la marcha, parecen conseguir un aumento del rango de dorsiflexión y una normalización de la actividad EMG recíproca del complejo tríceps sural - tibial anterior a corto plazo si bien el efecto parece no ser permanente (17). Las series donde hubo un seguimiento en torno al año (14 meses) (6), observaron una mejora significativa de la dorsiflexión máxima del tobillo con la rodilla extendida, alcanzando dos tercios los pacientes en los que se corrigió la MPI y/o mejoraron lo suficiente para considerarlo satisfactorio por los padres. Sin embargo, otras series de seguimiento más largo (3,7 años de mediana con rango entre 2 y 21,5 años) hallaron que sólo el 10% de los pacientes y el 22% de sus médicos referían una normalización total de la MPI (81). Pese a todo sí se ha demostrado que este sistema terapéutico para niños con MPI puede ser un tratamiento efectivo que permita mejorar la PROM de tobillo en DF (dorsiflexión) pasiva y variables EMG como la contracción recíproca de tibial anterior y tríceps sural durante la marcha del talón a la punta del pie después de 6 semanas de yesos seriados (3) pese a que el efecto diste de ser permanente. Estas evidencias preliminares sobre efectos beneficiosos del yeso con/sin cirugía sobre la dorsiflexión pasiva del tobillo, así como sobre la cinética y cinemática de la marcha, no han permitido establecer alguna normalización en los tiempos de aplicación y cambios de yeso óptimos. El estudio de Fox (6) mejoró la PROM de tobillo, la DF y el patrón de marcha en un seguimiento de poco más de un año. En estos sujetos, si la contractura del sóleo no mejoraba con el yeso en serie, el patrón de la marcha del niño tampoco mejoraba, lo que parece avalar que la PROM de DF de tobillo con flexión de rodilla puede ser una medida clínica eficaz al menos en esta técnica (6). Después de la aplicación de yesos durante 3 a 6 semanas, se ha encontrado que los niños con MPI aumentaban el rango de DF y el PROM sin pérdida de fuerza del tríceps sural, si bien la contracción más fuerte al despegue sucedía con algo más de dorsiflexión del tobillo que lo habitual (17). Pese a todo la medida no está exenta de controversia por la baja eficacia a largo plazo de este tratamiento (107), lo que obliga a seguir investigando al respecto.

1.5.6. Uso de la TxBA en la MPI

La aplicación de Inyecciones de Toxina botulínica tipo A (TxBA) en los músculos gastrocnemio y sóleo para el tratamiento del equinismo, se lleva realizando desde hace 25 años tras los buenos resultados descritos por Koman (122) en PCI, generalizándose su uso con aceptable eficacia (30) (123) sobre diferentes formas de equinismo infantil (29). La TxBA se ha aplicado en los gemelos, el sóleo o ambos por vía anatómica o ecoguiada, método instaurado en la sección de rehabilitación del HUIS desde 2012 a 2015 que por cuestiones organizativas tuvo que ser abandonado. La infiltración busca reducir la capacidad de desarrollar momento de fuerza (“torque”) durante la

flexión plantar, especialmente al final de la fase de oscilación (107), pero al igual que en el caso de los yesos seriados tampoco está exenta de controversia (124) (31) pues sus efectos incluyen el dolor y el reentrenamiento siendo objeto de revisiones sistemáticas de resultado variable que apoyan su uso con buen rendimiento y buena evidencia en espasticidad focal del gemelo desde hace más de 20 años (123).

Los estudios mostrados en la tabla 3 tienen en común la demostración de resultados positivos con una sola infiltración de TxBA sobre la MPI. El efecto de una única infiltración con TxBA parece ser más duradero que el propio efecto farmacológico de la toxina por sí sola. En ellos no se consiguió la normalización completa del patrón de marcha ni se recuperó el rango de movimiento del tobillo a pesar de todo, lo que podría indicar que una única infiltración fuera insuficiente y/o se precisaran más intervenciones para conseguir normalizar la MPI. Además, puesto que algunos de los estudios reflejados tienen un tiempo de seguimiento relativamente corto, hay revisiones que proponen tiempos mayores (113) para conocer los efectos de la TxBA en la MPI de análoga manera a como se ha realizado en los estudios con yesos seriados.

La onabotulinumtoxina (Botox®) es la más empleada en los estudios de investigación, y aunque parece no obtener mejor resultado respecto al uso de los yesos seriados, sí que parece facilitar aumento en la dorsiflexión y PROM del tobillo al final del tratamiento, llegando a 18 meses de seguimiento en ciertos casos y buena tolerancia durante todo el seguimiento. El taloneo de la marcha espontánea no presentaba cambios significativos al año (28), reservándose el mantenimiento de los efectos a largo plazo tan solo a técnicas más resolutivas como la cirugía. No hay constancia de series de casos con MPI infiltrados con TxBA sin proteínas complejantes o Incobotulinumtoxina (Xeomin®) pese al buen perfil de seguridad (125), eficacia (126), rendimiento (127) y perfil terapéutico equivalente al resto de toxinas (125) (128) (129) y a pesar de la teórica ventaja de flexibilizar infiltraciones menos inmunógenas (130), lo que invitaría al estudio de la utilidad diferencial de esta toxina, a pesar de que las diferentes formulaciones no permiten comparar fácilmente ni el efecto, ni las dosis de las toxinas entre sí (129). La aplicación de la TxBA en casos rebeldes a tratamiento conservador suele realizarse según algoritmos terapéuticos basados en evidencia limitada si bien hay consenso para elaborar y mejorar la metodología empleada (131).

Teniendo en cuenta el buen perfil de seguridad de la TxBA (127) para su aplicación potencial en el tratamiento de la MPI (131), demostrado como eficaz y sin complicaciones de entidad en el equinismo neurológico infantil (131), la TxBA se ha planteado por muchos autores como opción eficaz en MPI, según árboles de decisión basados en la evidencia disponible (131) y siempre que la clínica (dolor, caídas, ansiedad, retraso motor...) así lo justificara (75). Recordemos que este tipo debe acompañarse siempre del habitual consentimiento informado previo aprobado en el comité de ética de referencia (ver anexo IV) (132). A fecha de hoy la eficacia en las participación social o las actividades funcionales, sigue sin demostrarse (81) lo que indica seguir investigando (113) (133).

Tabla 4. Resultados de la infiltración de toxina botulínica tipo A sobre la MPI.

	Brunt D et al. 2004 (107)	Álvarez CM et al. 2008 (134)	Engström P et al. 2010 (18)
Nº pacientes	5	13	15 (4 pérdidas)
Edad	Media: 4,34 años	No disponible	5-13 años
Tipo de TxBA	No disponible	Onabotulinum (Botox®)	Onabotulinum(Botox®)
Lugar	Tríceps sural	Gemelos	Tríceps sural
Dosis	No disponible	No disponible	6 UI/kg
Tratamiento adyuvante	PT a partir de 20 días	PT e inmovilizaciones seriadas ± AFO	Ejercicios domiciliarios
Nº de dosis	Sólo 1 dosis	Sólo 1 dosis	Sólo 1 dosis
Seguimiento	12 meses	Media 48 sem (7-168)	12 meses
Variables	A 20 días/12 meses: a. Tiempo de contacto b. Duración de la actividad del tibial anterior en fase oscilante; c. Momento de activación gemelar	a. Dorsiflexión pasiva del tobillo con rodilla flexionada a 90° b. Dorsiflexión pasiva del tobillo con la rodilla en extensión	a. Percepción paterna b. Gravedad según AIM c. Dorsiflexión pasiva del tobillo con la rodilla en extensión
Resultados	a. Día 0:51%; Día 20:8% b. Día 0:345s Día 20: >350s; c. Día 0: 30 meses antes. Día 20: 36 meses después.	Mejora a las 2 semanas que se mantiene a las 12 semanas.	a. 3/11 cesaron y 4/11 atenuó las puntillas b. Mejora a los 6-12 meses en 9/14 niños c. Ausencia de cambios

1.5.7. Cirugía de alargamiento tendinoso del tríceps sural

Las cirugías de alargamiento del tendón de Aquiles, al igual que el resto de las intervenciones, también presentan limitaciones para la normalización de la marcha y mejora de la dorsiflexión de tobillo (95). Se ha observado en estudios retrospectivos un aumento de la satisfacción paterna tras la cirugía, sin descartar la relación con el sesgo de selección y el efecto “cuidado postoperatorio” implicado habitualmente tras una cirugía. En la **tabla 4** se resumen los principales resultados publicados sobre tratamiento quirúrgico (135). Hay estudios de series de casos retrospectivos que afirman que el alargamiento del tendón de Aquiles es un método apropiado de manejo inicial, pero dada la baja calidad de los mismos, las conclusiones extraídas por los autores tienen limitada aplicabilidad.

Tabla 5. Principales series en estudios de cirugía como tratamiento de la MPI.

	Stricker et al. 1998 (8)	Eastwood et al. 2000 (81)	Stott et al. 2004 (136)	Jahn et al. 2009 (87)
Tipo de estudio	Cohortes terapéuticas	Cohortes terapéuticas	Cohortes terapéuticas	Cohortes terapéuticas
Pacientes	15	46	7	28
Referencia (n° de pacientes)	Observación (45) e inmovilización seriada (17)	Observación (46) e inmovilización seriada (39)	Cirugía e inmovilizaciones seriadas frente a inmovilización sólo	Compara 2 cirugías
Edad	Media: 34 meses, Rango: 2-8 años	Mediana: 6,9 años Rango: 2,5-14,5 años	Media: 10.5 Rango: 7,5-14 años	Media: 8,9 años Rango: 5,6-12,6 años
Técnica quirúrgica	11 alargamientos de Aquiles abierta 4 apo-neurotomías cerradas	Alargamiento de Aquiles (AA) tipo Baker	Alargamiento (AA) y de soleo+gemelos tipo Baker	Alargamiento de Aquiles (AA: 14) y Vulpius (V: 14)
Tiempo hasta evaluación	2-8 meses	7,9 años (2-22 años)	Media de 10,8 años desde la última intervención	Media: 13,2 meses Rango: 8-20 meses
Máxima dorsiflexión con rodilla extendida	Mejora de 5°	NA	No significativo en ningún grupo	AA: mejora de 15° V: mejora de 5°
Otras variables	Satisfacción paterna (67% en cirugía Vs 25% en no tratados)	-Normalización de la marcha: 22% según paciente y 37% según médico -Disminución del tiempo que pasa andando de puntillas	Variables cinemáticas y cinéticas de marcha	Máxima dorsiflexión con rodilla flexionada (mejora) y pico de longitud normalizada del tríceps en apoyo y fase oscilante
Fracaso quirúrgico	1/3	1/46 de los pacientes empeoró	2 pacientes con marcha alterada y 3 visible a simple vista	Aquellos con longitud casi normal
Conclusión según los autores	El resultado es mejor y más duradero tras cirugía, pero ninguna técnica logra resultados definitivos	La cirugía permite mejores resultados que sus comparadores, pero no tiene unas indicaciones claras	Restricción común de la DF en la marcha tras cirugía. Requiere estudio prospectivo con análisis 3d para su objetivación.	La cirugía consigue un alargamiento muscular (quizá AA más) y es proporcional al grado de afectación

En general, aunque el tratamiento con inmovilizaciones (yesos seriados) progresivas o con cirugía consiguen mejoras, un patrón de marcha “normalizado” por completo rara vez se llega a alcanzar en ambos. Algunos autores han demostrado cambios cinemáticos persistentes en el tobillo de los pacientes tratados tanto con inmovilizaciones seriadas asociado o de forma independiente al alargamiento del tendón de Aquiles, siempre que sean tratados en la infancia tras adquirir la madurez esquelética (136).

Desde la perspectiva técnica, el alargamiento percutáneo y abierto del tendón de Aquiles mediante cirugía se lleva realizando desde hace más de 30 años (137). Varios autores (30) (74) opinan que el alargamiento debería llevarse a cabo cuando existan retracciones que no respondan a una terapéutica más conservadora, por lo que supone cualquier cirugía tanto para el paciente como para su familia y para la eficiencia del sistema sanitario, es decir, contracturas fijas del tendón de Aquiles en la MPI (135) con el objetivo de alcanzar al menos 10° de DF de tobillo (138). El alargamiento percutáneo del tendón de Aquiles generalmente se prefiere al alargamiento abierto por la menor aparición de dolor y cicatrices (135). Dentro de las diferentes técnicas de alargamiento quirúrgico una de las más comunes empleadas es la técnica de Vulpius para el alargamiento del tendón de Aquiles que consiste en una incisión del gemelo, pero incluyendo normalmente la fascia del sóleo. Otro procedimiento variante del anterior se ha perfeccionado por Baker donde el corte de la fascia del gemelo se realiza en forma de lengüeta y ojal en lugar de transversalmente (139), existiendo variantes cada día más elaboradas y eficaces en desarrollo.

1.6. Análisis instrumental de la marcha idiopática de puntillas (AIM-MPI): EMG, cinemática y cinética

La marcha es el movimiento de traslación por excelencia del ser humano y como tal suele verse alterada en no pocas patologías que afectan a alguno de los órganos implicados (140) (7). A fin de poder objetivar y caracterizar el movimiento humano, se han desarrollado herramientas que tratan de objetivar, estudiar y caracterizar en definitiva el fenómeno mediante diferentes instrumentos de medida. Todo ello ha dado lugar a la aparición de un conjunto de métodos conocidos como “análisis instrumental de la marcha” (AIM). Mediante el análisis instrumental de la marcha (AIM) se han podido medir sus ciclos en condiciones controladas, definiendo tanto la cinética como la cinemática de forma reproducible, lo que ha producido una importante repercusión traslacional para el estudio clínico del fenómeno de la marcha humana. El AIM se ha mostrado como un procedimiento muy útil para el estudio funcional y fisiopatológico de diferentes trastornos motores (141). La introducción del AIM en la clínica y la investigación ha supuesto en ocasiones una verdadera revolución para el estudio de las alteraciones de la marcha en patologías (142) tales como, deterioro cognitivo (150) (143), enfermedad de Alzheimer (143), enfermedad de Parkinson (144), ataxias (145), paraparesia espástica familiar (146), parálisis cerebral infantil (147) y, por supuesto, también la MPI (9) (67) En el caso concreto

de la parálisis cerebral infantil (20), el análisis instrumental de la marcha (AIM) constituye un pilar de indudable importancia en investigación donde ha aportado grandes avances en el conocimiento de esta enfermedad (148) y sus tratamientos (149) (150) y está ganando creciente relevancia en la evaluación clínica, donde se ha mostrado sumamente útil para cuantificar y cualificar objetivamente la enfermedad (151). El desarrollo de diferentes sistemas tecnológicos se ha acompañado de nuevos sistemas de medición cada vez más eficientes y fiables. Sin embargo, en paralelo se ha producido un aumento en la ingente cantidad de datos que pueden recogerse por los sistemas de registro lo que ha complicado el manejo y análisis de tanta información. La instrumentación empleada en el AIM facilita en tiempo real numerosas variables témporo-espaciales de la cinética, la cinemática o la electromiografía dinámica, de modo que se puede determinar con precisión la posición espacial de las articulaciones, su aceleración, los momentos de fuerza de los diferentes segmentos corporales, velocidades y aceleraciones de todos o parte de los segmentos involucrados ya sea de miembros inferiores, superiores o incluso tronco. Tan elevado número de datos requiere a su vez de nuevas técnicas estadísticas capaces de elaborar modelos relacionales y aproximativos más adecuados. Se han desarrollado así multitud de parámetros que van desde los índices de normalización de la marcha (152) hasta los basiogramas (153), junto otras soluciones adoptadas por diferentes equipos de investigación en un intento de normalizar la metodología de procesado de datos, pero que al final también se han mostrado incompletos. Para obviar este problema, en el presente estudio de investigación se han incorporado técnicas multivariantes y de minería de datos en esta tesis, algo más demostrativos, aunque el resultado siempre presente limitaciones.

La principal ventaja de estudiar la MPI monitorizando clínicamente al paciente varias veces a lo largo del tratamiento con metodología robusta de exploración permite “complementar” los hallazgos con diferentes test que aportan información relevante. Combinarlo con la aplicación del análisis instrumental de marcha, también permite estudiar la fisiopatología de las compensaciones subyacentes a la MPI, profundizar en los mecanismos de acción del tratamiento con TxBA y determinar en definitiva la efectividad terapéutica de la TxBA con o sin proteínas complejantes, en el trastorno.

Entre los estudios de la MPI con análisis instrumental de marcha (AIM) hay dos que destacan especialmente. El primero describe el patrón de marcha en la MPI (154) desde la perspectiva cinética y cinemática, mientras que el segundo evalúa el uso diagnóstico del AIM en la sospecha de MPI (83) proponiendo una clasificación al respecto para abordar mejor el tratamiento (83). En las series que han estudiado el patrón de MPI mediante electromiografía (EMG) y análisis instrumentado (AIM), se han encontrado datos EMG que muestran que la contracción del tibial anterior y del tríceps sural están fuera de fase durante la marcha en los niños con MPI, apareciendo una co-contracción anormal de ambos grupos musculares (22). En la MPI se ha observado además un “disparo” precoz y más intenso del gemelo durante la fase de balanceo y en postura estática, mientras que el tibial anterior presentaba una activación de mucho más baja amplitud durante cambios de la postura en la marcha (3).

Se ha estudiado la eficacia de los acelerómetros de forma ambulatoria para confirmar la existencia de un patrón de “marcha tipo” en la MPI y aunque los resultados en los estudios iniciales parecen atractivos (67), la ausencia de validaciones externas adecuadas, el tiempo y el coste de su introducción en la clínica habitual, limitan la utilidad real de estas interesantes herramientas. También se ha intentado utilizar para diferenciar los patrones de marcha de las distintas enfermedades que pueden presentar MPI, pero los resultados de esos estudios sugieren aún poca evidencia del uso de AIM como valor adicional a la correcta exploración física y a la valoración de los factores de riesgo de la historia clínica en el diagnóstico diferencial de la marcha de puntillas, si bien han aportado valiosas conclusiones sobre la fisiopatología de este fenómeno patológico (20) (66) (155) (155).

Otras técnicas como la EMG dinámica no han podido demostrar su consistencia como herramienta para el diagnóstico diferencial entre los niños con MPI o con PCI (22) (156). Sí se ha observado que aparecen anomalías de la EMG en los niños con MPI cuando intentan caminar en un patrón de talón (154) (3) y eso en el caso de aquellos que pueden talonear voluntariamente, pues, aunque ciertos niños con MPI son capaces de corregir voluntariamente la MPI taloneando, el cambio es sólo temporal (9) (22) (157).

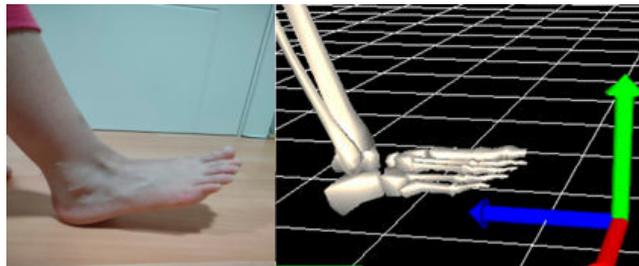


Figura 1. Primer rocker del pie.

La cinemática de la MPI está alterada de forma persistente y homogénea. En la marcha humana se define un ciclo de marcha normal como el espacio entre dos apoyos de talón del mismo lado siendo crítico en la MPI el paso del pie en fase de balanceo y en fase de carga, respecto al paso normal. A la hora de efectuar un paso en la fase de carga en el plano sagital, aparecen tres “balancines del pie (o “rocker del pie”). En un paso normal la fase de carga ocupa aproximadamente el 60% del total del paso, mientras que la de balanceo ocupa el 40% restante (158). En la MPI pueden existir alteraciones por presencia del primer balancín, aparición precoz del tercer balancín o predominio del primer momento de flexión dorsal del tobillo (83) (157) (159). Para comprender el proceso hay que tener en cuenta que, en el ciclo de la marcha habitual, se define el primer balancín (primer rocker) del pie al punto en el que finaliza el pie la fase de balanceo (40%) e inicia la de carga (60%), puesto que tras su primer contacto con el suelo el pie rota a través del calcáneo hacia delante y abajo, apoyando el antepié. Una de las causas más comunes de la aparición de este fenómeno son los problemas de acortamiento de la musculatura posterior de la pierna, donde no se produce un impacto inicial del pie contra el suelo por la zona del talón, sino por la zona del mediopié por la tracción hacia atrás y arriba que realiza el tendón del tríceps sural sobre el talón.

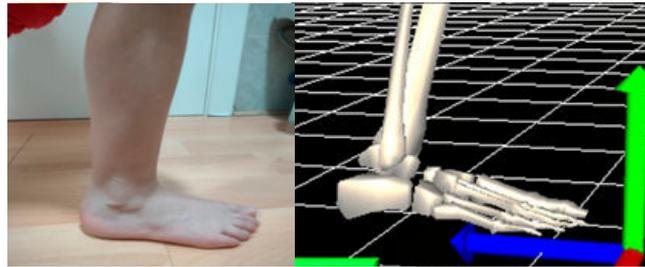


Figura 2. Segundo rocker del pie.

El segundo balancín (“rocker”) del pie o segundo balancín de tobillo, empieza tras el apoyo completo del pie avanzando la pierna por encima del pie gracias a la articulación del tobillo. Puede aparecer aumento o disminución de esta fase por problemas de congruencia articular o estructura del pie, siendo la pronación (según la tendencia individual del pie) una adaptación fisiológica, con mayor coste energético (157).



Figura 3. Tercer rocker de antepié.

Por último, el tercer balancín (o tercer rocker) de antepié empieza cuando despegamos el talón del plano, acabando con el despegue completo y final de todo el pie en la zona de los dedos al comenzar la fase de balanceo del pie. El movimiento de las articulaciones metatarso-falángicas evita que se produzcan sobrecargas de apoyo en la zona, especialmente la primera articulación metatarso-falángica activándose un mecanismo de “tensión” de la fascia plantar conocido como Windlass (20) (160), por el cual, tras la flexión dorsal del primer dedo, se eleva el arco longitudinal medial del pie (conocido en “argot clínico” como que “se eleva el puente”), y después el tendón del tríceps sural con la rotación externa de la tibia, estabilizando el pie para el despegue.

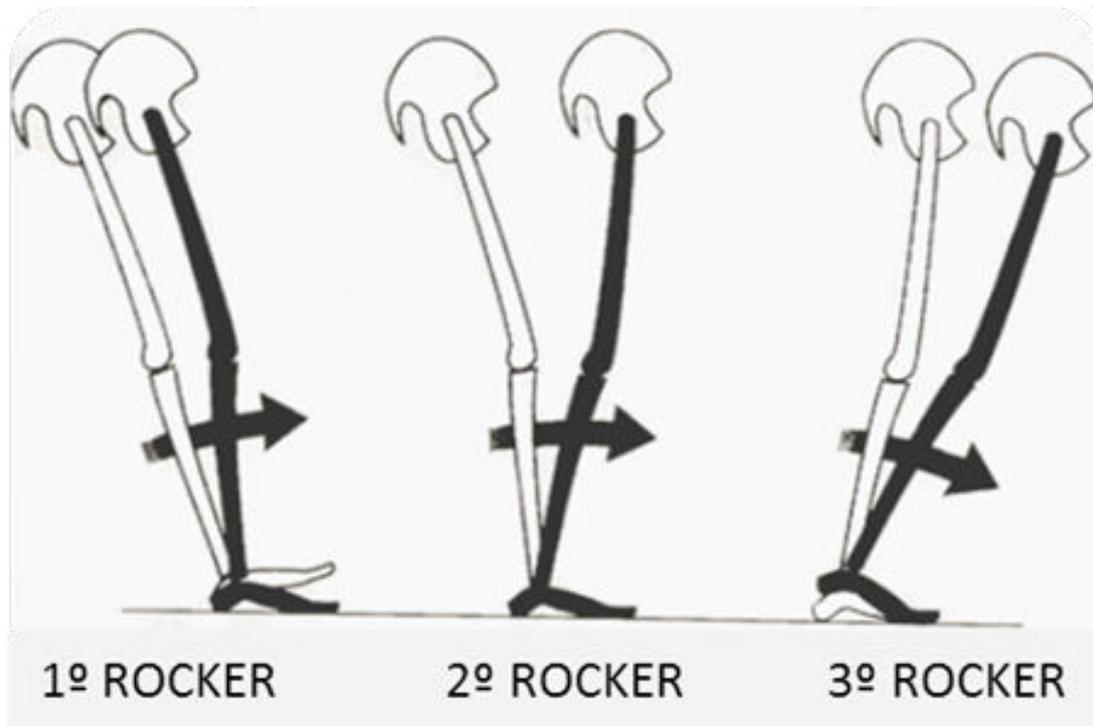


Figura 4. Secuencia de los balancines del pie en la marcha normal.

Los niños con MPI presentan todas o algunas de las siguientes desviaciones de la marcha: (78) (138) (136) (20) (28).

- Flexión plantar (PF) significativa del tobillo en posición y balanceo,
- Ausencia del primer balancín (PF del tobillo inmediatamente después del golpe del talón),
- Ausencia del segundo balancín (desplazamiento hacia adelante de la tibia sobre el pie en posición con tobillo en flexión dorsal progresiva),
- Disminución del tercer balancín (empuje),
- Desprendimiento prematuro del talón, puntera, hiperextensión de la rodilla y aumento de la inclinación de la pelvis anterior.
- Carga normal del pie y transferencia del cuerpo. En la MPI el peso corporal está ausente al caminar sobre los dedos de los pies (28).

1.7. Clasificación de la MPI según AIM

De los diferentes sistemas de clasificación para identificar la gravedad de la MPI destaca el propuesto por Álvarez (83) donde se clasifican los diferentes tipos de MPI según la presencia de primer balancín (rocker) de tobillo basculante y el momento del rocker del tercer tobillo basculante con primer rocker predominante de tobillo definen los tipos. El sistema de clasificación empleando equipos de análisis de movimiento y plataformas de fuerza es poco aplicable en la práctica clínica común, pese a permitir identificar aquellos niños con MPI que no siempre muestra patrón de apoyo en punta con apoyos talaes ocasionales en la clínica. Este sistema propuesto por Álvarez determina 3 grados de severidad:

- Leve (presencia de primer rocker de tobillo),
- Moderado (presencia de tercer rocker precoz de tobillo)
- Severo (momento precoz de tobillo predominante)

La pronación del pie, que podría incluir una abducción significativa del pie, es la forma más común de compensación de la deformidad que causa el equinismo de tobillo (39) (20). Los niños que llevan mucho tiempo con MPI muestran una torsión tibial externa excesiva evidenciada por un ángulo positivo muslo-pie aumentado (20), en estos casos es posible que puedan adaptar los dedos del pie a la musculatura contraída lo que explicaría la “disminución” de la marcha de los dedos (30). Y aunque sólo se ha encontrado una cierta relación de un posible vínculo entre la MPI y la disfunción del procesamiento sensorial (SPD) (36) (5) (53) (34), si se ha observado una correlación positiva entre los retrasos en el lenguaje (13) (30) (30), las dificultades de aprendizaje (30) y la MPI, que podrían obligar a adoptar otras medidas individuales para tratamiento precoz por y para estos pacientes más allá de la biomecánica alterada de la MPI.



2. HIPÓTESIS Y OBJETIVOS

2. HIPÓTESIS Y OBJETIVOS

La **Hipótesis principal** de la presente tesis es que la toxina botulínica tipo A (TxBA) con o sin proteínas complejantes es capaz de producir beneficios evidentes dentro de un protocolo de tratamiento estandarizado con fisioterapia diseñado al efecto para la MPI. Sin embargo, al no existir un protocolo de tratamiento estandarizado con fisioterapia este se ha convertido en sí mismo en uno de nuestros objetivos.

Las recomendaciones de las guías de práctica clínica y ficha técnica de la TxBA (97) (133) recomiendan el empleo sistematizado de la fisioterapia en patología neuromotora sin especificar el mejor protocolo posible en tiempo y duración.

Otras **hipótesis secundarias** derivadas de la principal son:

- La evaluación sistemática del paciente con escalas validadas como la herramienta TWT, para estandarizar el diagnóstico de la MPI son capaces de orientar eficazmente el diagnóstico diferencial y manifestar la presencia de patología subyacente.
- La evaluación sistemática del dolor y del acortamiento del tendón aquileo es importante para la monitorización de resultados.
- El diseño de un buen protocolo de tratamiento mejora los parámetros clínicos de los niños afectados con MPI.
- Dentro del protocolo de tratamiento diseñado, el uso de la fisioterapia junto a la toxina botulínica produce mejores respuestas clínicas en los casos que la fisioterapia aislada no es capaz de resolver.
- El protocolo de tratamiento diseñado produce mejoras en la cinemática de los pacientes con MPI.
- El protocolo de tratamiento diseñado es seguro y aplicable en un entorno real.
- La abstención terapéutica no es recomendable en casos sintomáticos.

El abordaje de la MPI, patología prevalente pero aún críptica y sin un protocolo de manejo unificado en nuestro entorno pese a la investigación mundial publicada, precisa diseñar una aproximación sistemática gradual, segura y reproducible a fin de extraer conclusiones clínicas útiles. La multitud de aproximaciones empleadas nos ha obligado a elaborar un protocolo específico, incluyendo su validación en un entorno sanitario público con limitados recursos humanos y materiales, seguros, eficientes y basados en la evidencia disponible. Esta aproximación se ha sistematizado en esta tesis en **cuatro diferentes objetivos** relacionados entre sí:

- **Objetivo 1: Descripción de las manifestaciones clínicas en un grupo de pacientes con marcha de puntillas idiopática (MPI)** incluyendo la descripción de los pacientes y métodos empleados, su aplicación como práctica habitual en un servicio de rehabilitación de un hospital público de la comunidad de Madrid, los resultados obtenidos y su discusión, elaborando conclusiones al respecto.
- **Objetivo 2: Generación de un algoritmo de manejo clínico, protocolo de fisioterapia estandarizado y la evaluación clínica de resultados de su aplicación.** Ello incluye la validación del mismo en nuestro entorno.
- **Objetivo 3: Descripción de los patrones de marcha encontrados en niños con marcha de puntillas** mediante análisis instrumental de marcha de los pacientes MPI, utilizando técnicas de agrupamiento jerárquico de una selección de parámetros cinemáticos de marcha y mediante el uso de la distancia DTW de las curvas cinemáticas.
- **Objetivo 4: Estudio de los cambios cinemáticos producidos en los niños con MPI tras la aplicación del protocolo con toxina botulínica mediante análisis de marcha y técnicas de análisis multivariante** incluyendo modelos de efectos mixtos como MCMC (Markov chain Monte Carlo) y paquetes estadísticos del sistema de programación R.



3. MATERIAL Y MÉTODOS GENERALES

3. MATERIAL Y MÉTODOS GENERALES

3.1. Herramientas de selección y evaluación de pacientes

3.1.1. Definición operativa de MPI. Recogida sistemática de datos.

Uso de la TWT

Comenzamos nuestro estudio con la evaluación, exploración y diagnóstico clínico del niño que acude a consulta con marcha de puntas mediante herramientas y exploración específicas para MPI..

Para facilitar el cribado de la MPI, Williams et al (164) desarrollaron un cuestionario denominado “Toe Walking Tool” (TWT) en 2010, validado para España en 2019 (163). La TWT valora 28 ítems: 17 de la entrevista clínica, 6 de exploración, 3 observacionales de marcha y 3 de Valoración del desarrollo. La herramienta TWT ha sido empleada exhaustivamente para validar el diagnóstico clínico de la MPI, de manera que para la recogida de datos se utilizó un cuestionario extendido basado en ella que incluyó características del examen físico, algunas con fiabilidad y validez demostrada para diferenciar la MPI de otras patologías médicas (164) (162).

VERSIÓN ESPAÑOLA DE LA TOE WALKING TOOL

Nº	Pregunta		
A ENTREVISTA CLÍNICA			
1	Nombre		
2	Fecha de nacimiento		
3	Sexo	MASC.	FEM.
4	¿Camina el niño de puntillas?	SÍ=1	NO=0
5	¿Padece el niño algún problema por el cual los padres hayan buscado asistencia médica y/o le ha sido diagnosticada alguna patología que cause marcha de puntillas?	SÍ=1	NO=0
6	¿Le han diagnosticado al niño algún trastorno del espectro autista?	SÍ=1	NO=0
7	¿Le han diagnosticado al niño parálisis cerebral?	SÍ=1	NO=0
8	¿Le han diagnosticado al niño distrofia muscular?	SÍ=1	NO=0
9	¿Hay antecedentes de distrofia muscular en la familia del niño?	SÍ=1	NO=0
10	¿Le han diagnosticado al niño trastorno generalizado del desarrollo?	SÍ=1	NO=0
11	¿Pesó el niño más de 2500g al nacer?	SÍ=0	NO=1
12	¿Fue el periodo de gestación superior a 37 semanas?	SÍ=0	NO=1
13	¿Tuvo que ser ingresado en la unidad de cuidados especiales/intensivos neonatales?	SÍ=1	NO=0
14	¿Caminaba el niño de forma independiente antes de los 20 meses de edad?	SÍ=0	NO=1
15	¿Hay algún miembro en la familia del niño que camine de puntillas sin ningún diagnóstico médico relacionado?	SÍ=1	NO=0
16	¿Camina el niño de puntillas debido a alguna molestia?	SÍ=1	NO=0
17	¿Caminaba antes utilizando toda la planta del pie y hace poco que camina de puntillas?	SÍ=1	NO=0
B EXPLORACIÓN CLÍNICA			
18	¿Están acortados los flexores de cadera para la edad del niño (test de Thomas)?	SÍ=1	NO=0
19	¿Están acortados los isquiotibiales para la edad del niño (test del ángulo poplíteo)?	SÍ=1	NO=0
20	¿Está acortado el tríceps sural para la edad del niño (test de Lunge)?	SÍ=1	NO=0
21	¿Aparece clonus o espasticidad en la exploración del rango de movimiento del tobillo y del ángulo poplíteo?	SÍ=1	NO=0
22	¿Presenta un reflejo rotuliano normal?	SÍ=0	NO=1
23	¿Presenta un reflejo cutáneo-plantar normal (signo de Babinski negativo)?	SÍ=0	NO=1
C OBSERVACIÓN DE LA MARCHA			
24	¿Camina el niño de puntillas?	SÍ=1	NO=0
25	¿Camina el niño de puntillas solo con un pie?	SÍ=1	NO=0
26	¿El niño puede caminar apoyando el talón si se le pide?	SÍ=0	NO=1
D VALORACIÓN DEL DESARROLLO			
27	¿Aparece signo de Gowers cuando se le pide al niño levantarse del suelo?	SÍ=1	NO=0
28	¿Presenta el niño un retraso significativo en más de 2 hitos del desarrollo psicomotor?	SÍ=1	NO=0
29	¿El niño muestra contacto visual limitado, rituales estrictos o comportamientos de carácter ritual (alinearse los juguetes, balancearse o girar en círculo)?	SÍ=1	NO=0
		PUNTUACIÓN TOTAL NUMÉRICA	

CLASIFICACIÓN DEL NIÑO O LA NIÑA (MARQUE LA QUE CORRESPONDA):

1. SIN ALTERACIONES DEL DESARROLLO, EL PIE O LA MARCHA
2. MARCHA DE PUNTILLAS IDIOPÁTICA
3. MARCHA DE PUNTILLAS DE ORIGEN NEUROLÓGICO
4. MARCHA DE PUNTILLAS DE ORIGEN NEUROMUSCULAR
5. MARCHA DE PUNTILLAS DE ORIGEN TRAUMATOLÓGICO

Figura 5. Versión final de la TWT en español (161) (162) (163)

La herramienta, una de las pocas validadas para población de nuestro entorno (163) se combinará con metodología para despistaje de trastornos tipo TDAH (trastornos por déficit de atención e hiperactividad) basado en el diagnóstico de test que incorporan los criterios DSM-5, pero empleados en entorno educativo por su practicidad. Tal es el caso del test EDAH, validado para el despistaje de TDAH (49) (48) y complementado en casos dudosos con un segundo test más específico como el test de Conners en su versión actualizada denominado CSAT (Children sustainability attention test) (51) (165), a fin de poder discriminar con certeza muestras válidas de MPI disponibles para análisis en las que aparezca dicho trastorno.

Además del anterior, en la anamnesis de los pacientes, junto al motivo de consulta asociado a la marcha de puntas (dolor, preocupación paterna, caídas...) se recogió una batería de datos complementarios según recomendaciones de la bibliografía:

- Datos recogidos en la HISTORIA CLÍNICA:
 - Edad gestacional al nacimiento.
 - Edad de inicio de la bipedestación.
 - Anamnesis sobre enfermedades perinatales y enfermedades durante el primer año de vida.
 - Presencia de gateo durante el primer año de vida.
 - Uso de tacatá (6).
 - Edad de inicio de la marcha.
 - Historia familiar de MPI (30).
 - Dominancia manual (166).

- Datos procedentes de la EXPLORACIÓN FÍSICA:
 - Peso, talla e índice de masa corporal (33).
 - Patrón de desgaste de calzado de uso frecuente (84).
 - Exploración neurológica básica reglada: Lenguaje, memoria y orientación espacial. Pares craneales. Fuerza, tono y actitud de las extremidades. Evaluación de los reflejos osteotendinosos profundos (bicipital, tricipital, cuadricipital y aquileo). Detección de clonus. Postura. Valoración del equilibrio en mono- y bipedestación. Test de Romberg y de Untenberger. Presencia de disdiacocinesia. Detección de reflejos arcaicos como Galant, presión palmar o plantar. Test de Babinski. Test de Gowers. Test de la sentadilla.

- Exploración ortopédica básica: Valoración de la presencia de espasticidad y contracturas en las principales articulaciones del miembro inferior con recogida de su rango de movilidad. Test de Thomas, ángulo poplíteo/Angulo LH (lumbo-horizontal)(167), test de Silfverskiöld, valoración del pie mediante podómetro, Detección de desviaciones en el tren inferior y test de Adams.
- Valoración de la funcionalidad de la función motora gruesa con el *Gross Motor Function Measure* item 66 corregido por Rusell (168) sólo en caso de dudas clínico-funcionales.
- Valoración de habilidad manual: *Manual Ability Classification System*. (169) en similar situación.
- Valoración de la funcionalidad de la marcha mediante el *Gillette Functional Assessment Questionnaire* (169) de igual manera.
- Evaluación observacional de la marcha en un pasillo de 6 m de longitud con y sin maniobras de distracción mediante la PRS (*Physician Rate Scale*) (170) en casos dudosos. De esta manera se intentó obtener la medida del apoyo talar, la presencia de intra - extrarrotación del pie o alteraciones pélvicas observacionales durante la marcha.

La recogida de datos que se incluyeron en todas las visitas clínicas se realizó con un contenido mínimo de variables consideradas de interés para monitorizar los efectos del tratamiento.

- Datos de la exploración física empleados para monitorización evolutiva:
 - Máxima dorsiflexión del tobillo con rodilla extendida y calcáneo en posición neutra.
 - Máxima dorsiflexión del tobillo con rodilla en flexión de 90°
 - Rango de movilidad pasiva del tobillo.
 - Rango de movilidad activa del tobillo: los pacientes con MPI tienen un riesgo de 3,2 (IC95% 2,1-5) veces más de tener este rango disminuido (33) siendo una variable importante usada para monitorizar tratamiento.
 - Ángulos poplíteo (33) (AP) y/o lumbo-horizontal (ALH) (95).

3.1.2. Parámetros de evaluación utilizados en el estudio

Extraídos de lo anterior y complementando los datos clínicos, se recogió una batería simplificada de datos, que permitían ver evolución en primera y sucesivas visitas:

1. Descripción sistemática del fenotipo del paciente (si había cambios evidentes).
2. Exploración de la dorsiflexión máxima del tobillo con la rodilla extendida y calcáneo en posición neutral.
3. Valoración observacional de la marcha y de la postura.
4. Grado de dolor en los pacientes que lo refieren mediante escala EVA o similar según la edad y mediante el grado de absentismo escolar.
5. Análisis instrumental de marcha (AIM pre y postratamiento).

3.1.2.1 Características de las variables clínicas y su manejo

La **tabla 6** muestra las variables clínicas recogidas y sus categorizaciones tras anonimización, encriptado y procesado, diseñado específicamente para este estudio.

Tabla 6. Variables recogidas en consulta incorporadas a la base de datos.

VARIABLE	DEFINICIÓN	TIPO	CATEGORÍAS
Edad		Cuantitativa continua truncada	Años cumplidos.
Sexo		Cualitativa nominal dicotómica	Varón/mujer.
DF_RE_der	Flexión dorsal pasiva del tobillo derecho con rodilla extendida. Medida a través de un goniómetro.	Cuantitativa discreta	Grados (°).
DF_RE_izq	Flexión dorsal pasiva del tobillo izquierdo con rodilla extendida. Medida a través de un goniómetro.	Cuantitativa discreta	Grados (°).
Acortamiento_ aquileo (variable principal)	Presencia de acortamiento aquileo. Se midió mediante el test de Silfverskiöld. Se consideró positivo si la flexión dorsal pasiva del tobillo con rodilla extendida era < 10° (4). Forma también parte de las variables de la exploración clínica pertenecientes a la <i>Toe Walking Tool</i> .	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
DF_IM	Flexión dorsal pasiva del tobillo con rodilla extendida alterada en un solo miembro.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
DF_RF_der	Flexión dorsal pasiva del tobillo derecho con rodilla flexionada. Medida a través de un goniómetro.	Cuantitativa discreta	Grados (°).
DF_RF_izq	Flexión dorsal pasiva del tobillo izquierdo con rodilla flexionada. Medida a través de un goniómetro.	Cuantitativa discreta	Grados (°).
Afectación_ aislada_ gastrocnemio	Afectación aislada del gastrocnemio (flexión dorsal con rodilla extendida < 10° que se corrige con rodilla flexionada). Se consideró positivo cuando existía un mínimo de 13° grados de diferencia entre dorsiflexión con rodilla extendida y con rodilla flexionada (16). Dato recogido solo en pacientes con acortamiento aquileo.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
Ángulo_ popliteo_der	Ángulopoplíteo del miembro inferior derecho. Medido a través de un goniómetro.	Cuantitativa discreta	Grados (°).
Ángulo_ popliteo_izq	Ángulopoplíteo del miembro inferior izquierdo. Medido a través de un goniómetro.	Cuantitativa discreta	Grados (°).
Ángulo_LH	Ángulolumbo-horizontal. Medido a través de un goniómetro. En el servicio de Rehabilitación del Hospital Infanta Sofía, se suele medir el valor complementario del ángulo LH, considerándose alterado un valor mayor de 30°. Se ha recogido únicamente en pacientes con acortamiento de los isquiotibiales.	Cuantitativa discreta	Grados (°).
Acortamiento_ IT	Presencia de acortamiento de los isquiotibiales. Se midió mediante el test del ángulo poplíteo. El ángulo poplíteo se consideró alterado según los resultados del estudio Katz et al, enunciados en la introducción (19). Forma también parte de las variables de la exploración clínica pertenecientes a la <i>Toe Walking Tool</i> .	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.

VARIABLE	DEFINICIÓN	TIPO	CATEGORÍAS
TDAH	Presencia de trastorno por déficit de atención e hiperactividad.	Cualitativa nominal politómica.	Sí, no, sospecha.
Dolor	Presencia de dolor como síntoma asociado a la MPI durante o después de caminar, referido por el paciente o por los padres / tutores el primer día de la consulta.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
Uso_tacatá	Utilizo andador de tipo tacatá durante la infancia.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_TEA	Variable de la entrevista clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de diagnóstico de algún trastorno del espectro autista.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_PCI	Variable de la entrevista clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de diagnóstico de parálisis cerebral.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_Distrofia_Muscular	Variable de la entrevista clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de diagnóstico de distrofia muscular.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_AF_DM	Variable de la entrevista clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de antecedentes familiares de distrofia muscular.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_TGD	Variable de la entrevista clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de diagnóstico de trastorno generalizado del desarrollo.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_RN>2500g	Variable de la entrevista clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Peso al nacer > 2500 gramos.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_G>37s	Variable de la entrevista clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Periodo de gestación > 37 semanas.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_UCI	Variable de la entrevista clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Ingreso en la Unidad de Cuidados Intensivos / cuidados especiales neonatales.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_Marcha<20m	Variable de la entrevista clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Marcha independiente antes de los 20 meses de edad.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_AF_MPI	Variable de la entrevista clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de antecedentes familiares de marcha de puntillas idiopática.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.

VARIABLE	DEFINICIÓN	TIPO	CATEGORÍAS
TWT_Clonus	Variable de la exploración clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de clonía o espasmo en la exploración del rango de movimiento del tobillo y del ángulo poplíteo.	Cualitativa nominal politómica.	Sí, no, dudoso.
TWT_REM_Rotuliano	Variable de la exploración clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de un reflejo rotuliano normal.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_RCP	Variable de la exploración clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia del reflejo cutáneo-plantar normal (ausencia del signo de Babinski).	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_Flexores_Cadera_Cortos	Variable de la exploración clínica perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de acortamiento de los flexores de la cadera. Se midió mediante el test de Thomas. El ángulo de extensión se consideró alterado según criterios bibliográficos.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_Talonea	Variable de la observación de la marcha perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Capacidad para caminar apoyando el talón, al pedírselo; se incluyeron también a los niños con MPI intermitente.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_Gowers	Variable de la valoración del desarrollo perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia del signo de Gowers.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_Retraso_Desarrollo	Variable de la valoración del desarrollo perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de un retraso significativo en más de dos hitos del desarrollo psicomotor.	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.
TWT_Preguntas_TEA	Variable de la valoración del desarrollo perteneciente a la <i>Toe Walking Tool</i> . Presencia de contacto visual limitado, rituales estrictos o comportamientos de carácter ritual (alinear los juguetes, balancearse o girar en círculo).	Cualitativa nominal dicotómica	Sí, no.

Los datos fueron recogidos en las historias clínicas de la primera consulta en el software hospitalario “Selene”, con acceso confidencial y protección de datos en el HUIS (171). Para garantizar el anonimato, a partir de la anterior se elaboró una base de datos pseudoanonimizada, donde separamos los datos clínicos, de los personales. Se elaboraron así dos bases de datos. La primera era pseudoanónima con datos clínicos pero sin datos identificativos (filiación e historia clínica); asignándose un código numérico aleatorio por caso. La segunda base, que contenía datos identificativos, fue encriptada y custodiada por los investigadores, pues incluía datos originales bajo control de seguridad de Selene centralizados en un servidor del SERMAS, evitando así cualquier dispositivo que no respetara la legislación sobre protección del datos (172). El procesado de la información se realizó con una base de datos disociada y validada, que almacenaba los datos útiles para análisis anonimizada, aleatorizando datos mediante herramientas informáticas.

- <https://docs.microsoft.com/es-es/cloud-app-security/cloud-discovery-anonymizer>
- [Anonimización de datos de usuario en Defender for Cloud Apps | Microsoft Docs](#)

3.1.2.2. Análisis observacional de la marcha (AOM) y de la postura

El análisis observacional de la marcha es una parte más de la exploración habitual de consulta. La forma tradicional del análisis se ha complementado mediante sistemas de grabación de video que permiten la reproducibilidad y estudio evolutivo del fenómeno. De forma habitual se han empleado diferentes herramientas y test que permiten objetivar cambios a simple vista de fenómenos motores. En concreto, para estudiar la marcha normal y sus variantes patológicas se han empleado escalas como la PRS (Physician rate scale), VGATS (Visual Gait Analysis Interval Testing Scale) GOS (Gait observation scale) y otras muchas capaces de realizar una categorización observacional (173) con alta reproductividad intraobservador pero no tan alta reproductividad inter-observador. Este es un detalle importante para su aplicación en estudios de investigación que obliga a recomendar soporte video de las exploraciones (174), alargando el tiempo de consulta excesivamente, motivo por el que acabó siendo abandonada como sistemática por “duplicidad” en nuestro estudio. Análogamente y mediante la metodología diseñada para el estudio de la marcha de puntillas elegimos los datos obtenidos del AIM en detrimento del AOM pues la MPI se caracterizaba por ser voluntaria en muchas ocasiones, lo que alargaba las consultas en el intento de obtener un ciclo útil, perdiendo peso como herramienta, a medida que la MPI se presentaba de forma menos evidente o ni siquiera aparecía, pues era frecuente que el menor “escondiera” de forma voluntaria la marcha por diferentes motivos. Además, el entrenamiento del clínico en la identificación de las distintas variantes y ciclos, incluía el uso de “maniobras de distracción” para reproducir el fenómeno que se relataba por la familia. Como adelantábamos, el método resultó tener una utilidad parcial, por lo que se abandonó la recogida de datos tras un año, ya que era demasiado laborioso y no aportaba mucha más información que el AIM, el cual se mostraba como herramienta superior más reproducible y eficiente. La necesaria complejidad que tiene la sistematización del análisis observacional pese a su dificultad, permite entrenar el “ojo clínico” para detectar sutiles variantes, pero el tiempo y el espacio de observación eran limitados en consulta, por lo que restringimos esta observación a la duda clínica, complementándola con la huella de

desgaste en calzado usado, otra medida que tuvo que ser apartada al final de la sistemática por la variabilidad encontrada (ver **tabla 8C**).

Es interesante recordar a la hora de observar visualmente, la interesante relación de los fenómenos postura y movimiento, pues el proceso de ejecución de marcha como se muestra en la **figura 6** se inicia siempre desde una situación de control postural en la que se encuentra el sujeto. No olvidemos el aforismo clásico de que “la postura sigue el movimiento como la sombra al cuerpo, cada movimiento empieza y termina en una postura determinada” (175). El movimiento voluntario comienza en áreas de asociación corticales y para planificar dicho movimiento cooperan corteza, ganglios basales y cerebelo. Posteriormente la corteza ejecuta la orden a través de los tractos cortico-espinales y cortico-bulbares hasta las neuronas motoras, facilitando el cerebelo patrones de retroalimentación y modulación que permiten ajustar el movimiento “suavizándolo” (176). El “feedback” del proceso es complejo pero siempre parte desde la planificación (querer andar) hasta la ejecución motora (caminar) incorporando numerosas estructuras jerárquicas del SNC (176). Esa colaboración entre estructuras capaces de modular postura y movimiento en un proceso continuo, explica los conceptos de Magnus, De Klejin (175) y Sherrington (177) afirmando que “donde acaba la postura comienza el movimiento y viceversa”.

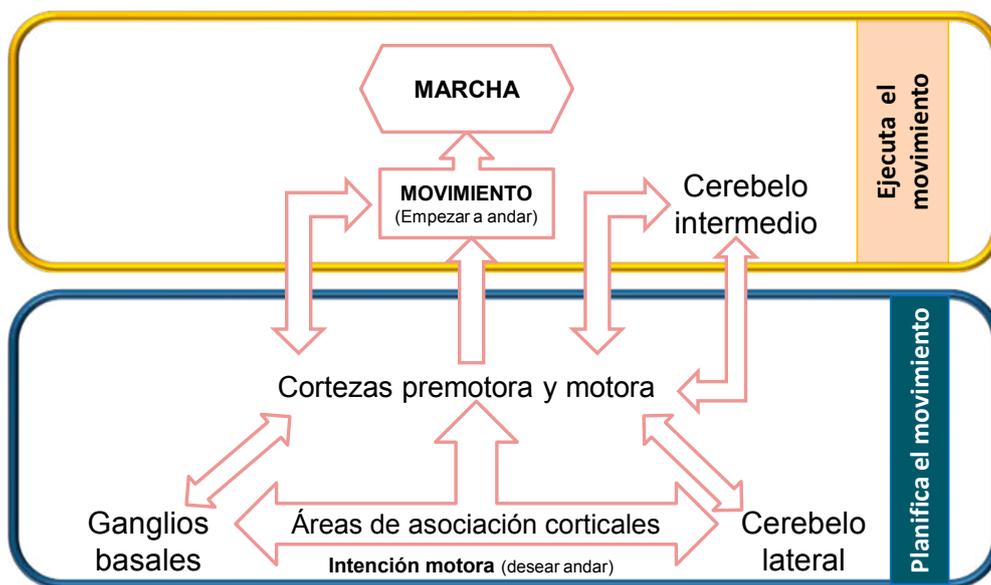


Figura 6. Esquema básico de planificación - ejecución motora.

El proceso se inicia en las áreas de asociación cortical donde se desarrolla la **intención motora** y se planifica el movimiento, todo desde una **postura**, con mediación del cerebelo lateral. Para la ejecución del **movimiento** se activan las neuronas de las cortezas premotora y motora, empleando patrones del cerebelo lateral y modulado por los ganglios basales. La secuencia, postura y movimiento es continua y se afirmaban que “donde acaba la postura empieza el movimiento y viceversa”. Adaptado de Ganong’s review of medical physiology. (176)

3.1.2.3. Análisis instrumental de marcha (AIM)

A fin de eliminar el componente subjetivo y la variabilidad del análisis observacional se desarrolló metodología útil para estudiar la marcha de modo más objetiva y reproducible a lo largo de varios ciclos de marcha mediante mecanismos de detección y procesamiento del movimiento. En nuestro caso disponíamos para realizar el AIM de un sistema optoelectrónico de captura de movimiento en tres dimensiones con análisis asociado conocido como CODA (“Cartesian Optoelectronic Dynamic Anthropometer”), empleado por el grupo MOVUAM y situado físicamente en la Escuela Universitaria de Fisioterapia ONCE-UAM. A las familias de los niños que se derivaron al estudio de AIM procedentes de la consulta de rehabilitación se les aplicó un protocolo previamente establecido incluyendo consentimiento informado específico del laboratorio (Anexo III). Se asesoraba a la familia en consulta sobre metodología y accesibilidad para llegar al centro de análisis en la Escuela Universitaria de la ONCE evitando cualquier interferencia con la asistencia clínica y adaptando horarios al paciente y su familia en la medida de lo posible. Todo el proceso fue realizado de forma totalmente voluntaria y altruista.

3.1.2.3.1. Hardware del sistema

El hardware del sistema CODA consiste en una serie de marcadores de posición que pueden colocarse en cualquier parte del cuerpo y que emiten luz infrarroja hacia unos sensores colocados a ambos lados de un pasillo donde el sujeto va a realizar los ciclos de marcha. Dichos sensores transmiten en tiempo real la información a un ordenador donde un software proporciona una imagen simplificada del sujeto asociada a imágenes de vídeo obtenidas por una webcam; a su vez, el programa calcula el movimiento de los sensores en los 3 ejes cartesianos del espacio respecto al tiempo y estima los ángulos articulares en el tiempo y espacio en cada momento, integrando toda la información recibida. La descripción de los elementos del hardware incluye:

Unidades sensor (Figura 7): Se emplean 2 unidades sensor para captar la posición de los marcadores de manera eficaz durante la marcha. Las unidades sensor están diseñadas para dar una gran resolución espaciotemporal y consisten a su vez en 3 sensores colocados en un marco rígido. Los sensores del borde de la unidad miden el movimiento horizontal y el sensor del medio mide el movimiento vertical permitiendo a la unidad sensor estar pre-calibrada en las tres dimensiones sin necesidad de determinar un campo de exploración. A medida que el marcador LED se mueve, la unidad sensor lo localiza. En el caso de que no se pueda localizar la señal, el sistema es capaz de sustituirla mediante una estimación matemática basada en la trayectoria previa y siguiente al periodo de ocultación del marcador o periodo “sombra”. El error estimado en la localización espacial del sensor es muy bajo (0,05 mm) presentando un tiempo de latencia de sólo un milisegundo para las mediciones. La fuente de error ocurre en el caso de que la unidad sensor no localice el marcador LED por un periodo de “sombra” denominado así, como adelantábamos antes, al momento en el que el propio cuerpo del sujeto obstaculiza la detección del marcador por los sensores y en el que el sistema no es capaz de reconstruir su movimiento de manera adecuada. Esto ocurre fundamentalmente en periodos de sombra demasiado largos.



Figura 7. Unidad sensor del sistema CODA.

Marcadores (Figura 8): El sistema CODA utiliza diodos de emisión de luz infrarroja que se localizan en posiciones claves del individuo para estudiar su movimiento. Técnicamente, estos marcadores se alimentan por un dispositivo controlador que contiene baterías recargables y que se colocan también incorporadas sobre el individuo objeto de medición. El circuito que controla estos dispositivos activa hasta 56 marcadores diferentes en una secuencia organizada, permitiendo a la vez una gran resolución espacial, haciendo imposible que se cometa un error de identificación durante su trayectoria y sin impedir por ello una buena resolución de los marcadores. Para el análisis de marcha, se emplean además unas cintas de velcro que permiten colocar rápidamente los marcadores en las posiciones sistematizadas. La posición de los marcadores a lo largo del cuerpo no está plenamente consensuada, pero en el laboratorio de la ONCE se ha sistematizado y validado su posicionamiento con población sana previamente.

La **tabla 7** muestra la posición de los marcadores indicada por el fabricante para la realización de los estudios de marcha. Las posiciones de los diferentes marcadores (**figura 9**) que se han utilizado para la realización de nuestro estudio se ubicaron exactamente según las indicaciones del fabricante a fin de que adquirir los ciclos de marcha de manera estandarizada (**figura 8**).

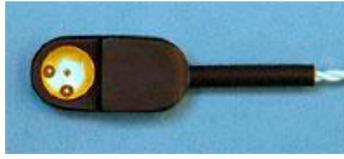


Figura 8. Marcador del sistema CODA.

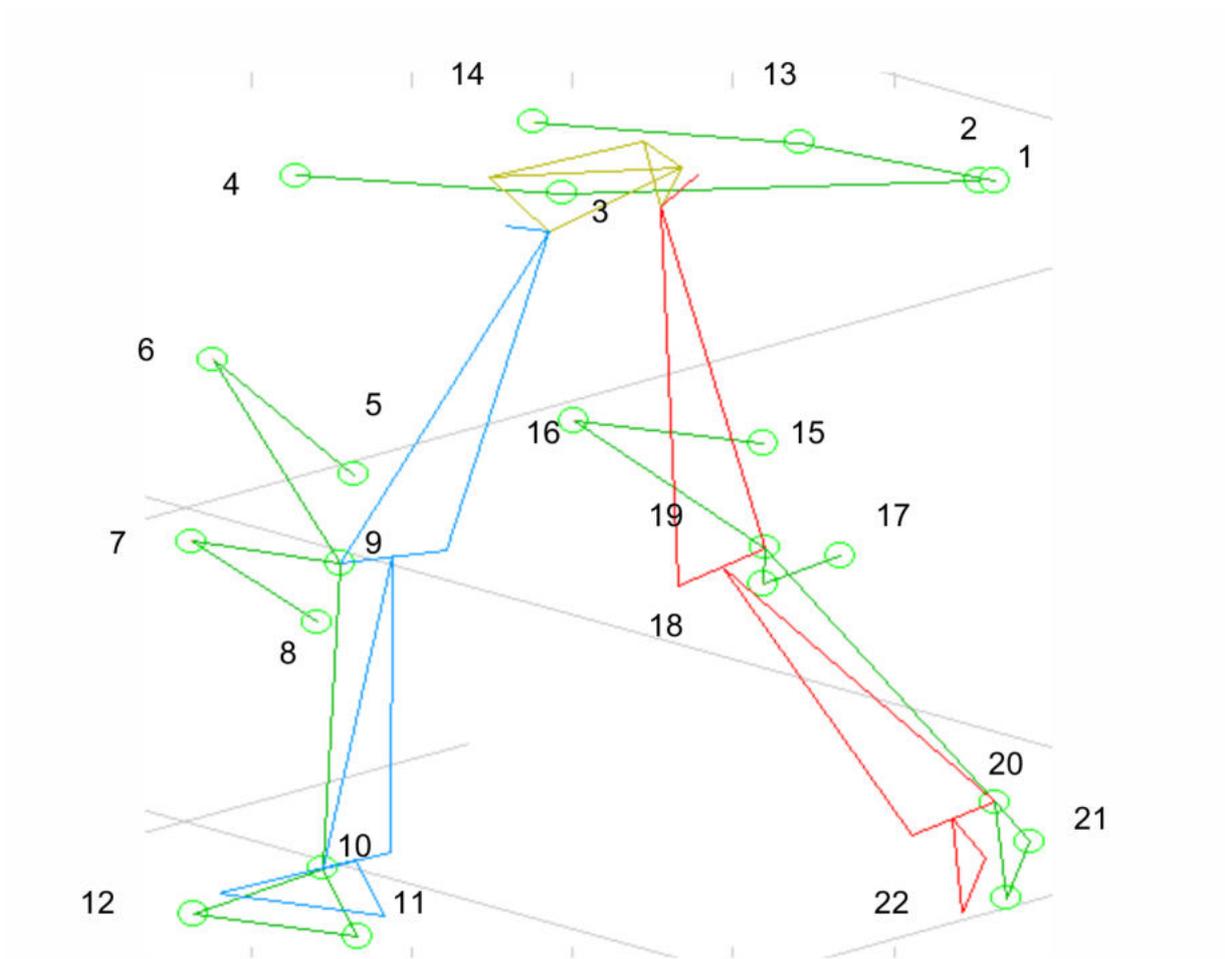


Figura 9. Posición de los marcadores según las indicaciones del fabricante y usada para la adquisición de los ciclos de marcha.

Tabla 7. Localizaciones anatómicas donde se emplazan los emisores.

NÚMERO	POSICIÓN ANATÓMICA
1	Extensión sacra izquierda
2	Extensión sacra derecha
3	Espina iliaca posterosuperior izquierda
4	Espina iliaca anterosuperior izquierda
5	Femoral posterior izquierda
6	Femoral anterior izquierda
7	Tibial posterior izquierda
8	Tibial anterior izquierda
9	Rodilla izquierda
10	Tobillo izquierdo
11	Talón izquierdo
12	Pie izquierdo
13	Espina iliaca posterosuperior derecha
14	Espina iliaca anterosuperior derecha
15	Femoral posterior derecha
16	Femoral anterior derecha
17	Tibial posterior derecha
18	Tibial anterior derecha
19	Rodilla derecha
20	Tobillo derecho
21	Talón derecho
22	Pie derecho

Dispositivos controladores (Figura 10): Los dispositivos controladores funcionan de dos maneras, por un lado, actúan como alimentador de los marcadores LED infrarrojos, pero por otro actúan como receptores y moduladores de los pulsos sincronizadores que emiten las diferentes unidades sensor. Una vez recibida la señal, el circuito del controlador hace que los marcadores emitan su propia señal en el momento adecuado de la secuencia. Cada dispositivo controlador se identifica mediante un número en la conexión del marcador que lo representa y permite su ubicación normalizada.



Figura 10. Dispositivo controlador.

“Cubo” (Figura 11): El “cubo” facilita las comunicaciones de datos entre las unidades sensor y las proporciona energía. Para completar el análisis de marcha precisamos tener dos cubos.

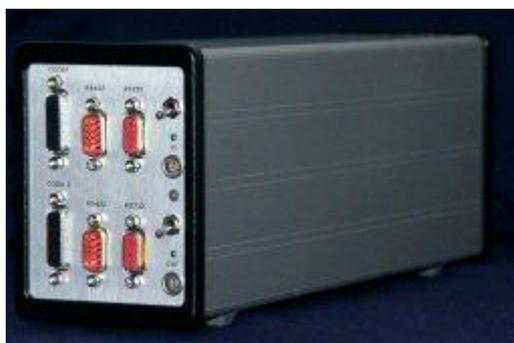


Figura 11. “Cubo”.

3.1.2.3.2. Software

El software de este sistema permite acceder a todos los datos “crudos”, pero también permite crear configuraciones definidas por el usuario para mostrar múltiples datos de diversas maneras mediante gráficos, figuras que reproducen al sujeto o informes para imprimir. De ese modo, podemos calcular variables como ángulos articulares o ángulos respecto al plano del suelo junto a velocidades y aceleraciones de los marcadores.

Sin embargo, la utilidad del software está limitada porque este no es aún lo suficientemente automático en la extracción de los datos y en su interpretación rápida y apropiada, complicando bastante el proceso. Para obtener por tanto los datos necesarios de este estudio y como no se pudo crear una configuración que los ofreciera de manera directa con las herramientas disponibles en el software, se utilizó un software propio que permite adquirir los datos, hacer los cálculos necesarios y controlar la calidad de los resultados de manera semiautomática. Todo este trabajo de programación fue parte de la tesis de otro de los integrantes del grupo de investigación (178) en concreto, nuestro grupo empleó para la extracción de resultados “read.mdx”, “calculation2”, “total.extraction.without.reference” y “build.group”.

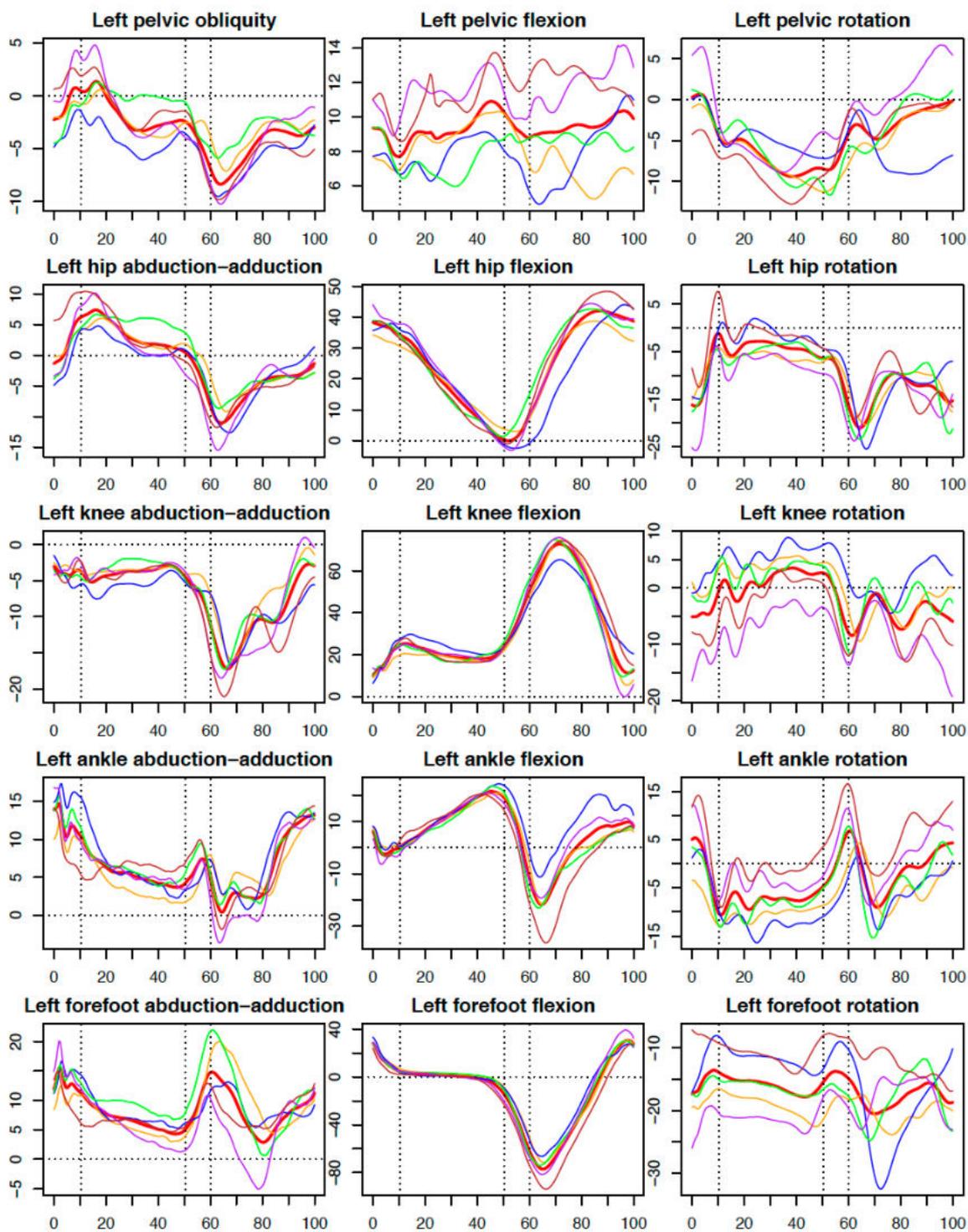


Figura 12. Ejemplo de las gráficas obtenidas mediante la extracción de datos de AIM con el programa en R diseñado en el laboratorio MOVUAM.

En el eje de ordenadas se representan los grados de movimiento articular mientras que en el eje de abscisas, se representa el porcentaje del ciclo (179)

Estos programas nos permitieron la lectura automática de los archivos que produce el software comercial, ayudaron en el control de calidad y permitieron obtener una descripción inicial de los datos de marcha. En la **figura 12** vemos cómo se representan las gráficas producidas por el software del laboratorio.

3.1.2.3.3 . Realización de los análisis de marcha: captura de los datos

En cuanto el menor y su familia llegaban al laboratorio MOVUAM-ONCE, eran recibidos y acompañados por miembros del equipo investigador, incluyendo al doctorando. No menos de 24 horas antes de la cita, a la familia se le había explicado y entregado el consentimiento informado, que se recepcionaba a su llegada al laboratorio, tras enseñar instalaciones, explicar el proceso de recogida de datos, los fines y la metodología completa, adaptándose el procedimiento al menor y su familia (**Figura 13**) (180) (181).



Figura 13. La metodología de AIM en MOVUAM-ONCE se explicaba por completo antes de firmar el consentimiento.

El proceso respetó fielmente la legislación actual.

Una vez aceptado el consentimiento (anexo III) se confirmaban datos como la edad, el sexo, la talla, el peso, el índice talla/peso, el índice de masa corporal (IMC), la longitud de la extremidad inferior, la amplitud y profundidad pélvica, la distancia intercondílea y la distancia intermaleolar, a fin de representar la antropometría de la forma más actualizada posible (**Figura 14**).



Figura 14. MOVUAM. Tras la firma del CI (consentimiento informado) se completaba anamnesis y exploración, colocando los marcadores en el niño con su familia presente.

Una vez colocados en el sujeto los marcadores (figura 14-15), este caminaba para habituarse a la presencia de los mismos. La motivación incluyó maniobras de distracción para obviar la presencia de los marcadores, creando el interés suficiente para permitir que obedeciera las órdenes del interlocutor mientras mantenía la marcha más natural posible. El proceso era lento pero mantenía una alta calidad metodológica, empleando un pasillo de 15 metros mientras el sistema recogía sus parámetros de marcha



Figura 15. Metodología MOVUAM-ONCE para AIM. El niño efectuaba 10 ciclos válidos estandarizados, tal como se hizo en MOVUAM-ONCE con menores sanos.

El experimento se repitió un mínimo de 10 veces por niño para garantizar la homogeneidad en los datos y su calidad (Figura 15).

De todas las adquisiciones de marcha realizadas, se seleccionaban un mínimo de 4-5 ciclos lo suficientemente óptimos para representar la realidad de la marcha del sujeto. Se descartaron aquellos ciclos en los que un marcador tenía un tiempo de sombra lo suficientemente grande para alterar los resultados o la sombra ocurría en momentos claves del ciclo como el apoyo o el despegue. Es importante señalar que no todos los laboratorios realizan así sus estudios y seleccionan un solo ciclo que ellos consideran “representativo de la marcha del sujeto” para realizar los cálculos. Nuestro grupo prefiere, debido a la importante variabilidad en la marcha, recoger la media de cinco ciclos representativos (diez en numerosas ocasiones), restando subjetividad a la elección de medidas y mejorando mucho la calidad de la información obtenida.

Una vez seleccionadas las adquisiciones de mayor calidad técnica, se efectuó el marcaje de los ciclos de ambos lados. Un ciclo de marcha se define por los fenómenos de marcha que ocurren entre dos apoyos de una misma extremidad. Como el sistema CODA requiere que los ciclos sean marcados para poder analizar posteriormente los datos, para definir el ciclo de marcha y sus fases se realizaron análisis visuales de las adquisiciones seleccionadas y se marcó para cada lado:

- 1) El momento de la realización del contacto inicial de la extremidad,
- 2) El despegue de la extremidad contralateral,
- 3) El contacto inicial de la extremidad contralateral,
- 4) El despegue de la extremidad ipsilateral y
- 5) El contacto final de la extremidad.

Durante la grabación de la marcha, se realizó un análisis inicial de la calidad de los datos obtenidos y posteriormente, se reforzó por otra realizada durante el procesamiento. Aquellos ciclos con calidad insuficiente bien por insuficiente captura de los marcadores o bien por artefactos característicos de los movimientos provocados por desplazamientos o rotaciones de los marcadores fueron eliminados del análisis.

3.1.2.4. Procesamiento de datos

Mediante el software desarrollado en nuestro equipo de investigación, obtuvimos características propias de la marcha incluyendo los datos espaciotemporales (velocidad normalizada por longitud de pierna, cadencia y duración del primer doble apoyo, apoyo único, segundo doble apoyo y tiempo de balanceo) y datos cinemáticos de cada ciclo de marcha del sujeto. Para los datos cinemáticos, extrajimos parámetros puntuales que nos sirvieron para cuantificar aspectos concretos del ciclo de marcha y la curva completa del movimiento angular en el plano sagital de la pelvis, cadera, rodilla, tobillo y antepié.

3.1.2.5. Grupo de control de referencia

Como control de referencia, en paralelo al estudio, se empleó otra muestra de 33 sujetos sanos (10 mujeres y 23 varones; mediana edad 7, media 7,58, rango 4-16) correspondientes en edad con la muestra de estudio y que previamente había sido publicada por nuestro grupo de investigación (136). La muestra se reclutó con los siguientes criterios de inclusión:

- Edades comprendidas entre los 4 y 16 años, con predominio motor derecho.
- Escolarización, cognición y conducta adecuadas para la edad.
- Ausencia de alteraciones en PROM, fuerza, tono y reflejos de los MMII.
- Ausencia de trastornos visuales o auditivos no corregidos.
- Ausencia de patologías ortopédicas conocidas en los 6 meses anteriores con cribado ortopédico adaptando protocolo del "Scottish Rite Hospital" (182).
- Ausencia de patologías neurológicas, cardiovasculares o sistémicas.
- Autorización de padres o tutores con consentimiento informado tras explicaciones adecuadas, incluyendo el del paciente según su capacidad.

En la **tabla 8** se describen las características de la población sana tomada como referencia para calcular los valores normalizados de la marcha utilizables para comparar parámetros con nuestra muestra de MPI.

Tabla 8. Características de los voluntarios sanos

Código	Sexo	Edad (años)	Altura (cm)	Peso (Kg)
C1	Varón	8	126	24
C2	Varón	5	116	23
C3	Mujer	16	162	55
C4	Mujer	7	128	25
C5	Varón	16	170	65
C6	Varón	7	123	22
C7	Varón	7	130	27
C8	Mujer	10	140,5	31
C9	Varón	15	175	74
C10	Varón	7	110	22
C11	Varón	6	118	23,5
C12	Varón	4	125	18,5
C13	Varón	10	138	30
C14	Varón	9	141	30
C15	Varón	8	125,5	24
C16	Varón	7	123	22
C17	Varón	7	127,5	27,5
C18	Mujer	9	142,5	26
C19	Mujer	9	141	37
C20	Varón	9	137	30
C21	Mujer	5	115,5	21
C22	Varón	6	122	26
C23	Varón	6	111	17
C24	Varón	7	124	22
C25	Mujer	5	124	26
C26	Mujer	6	128	25
C27	Varón	6	120	26
C28	Mujer	9	131	40
C29	Varón	7	127	25
C30	Varón	6	135	38
C31	Varón	6	125	24
C32	Varón	9	134	26
C33	Mujer	10	147	34

3.1.3. Definición de la población diana: criterios de inclusión y exclusión

El estudio incluyó todos los niños, de más de 2,5 años (3 al momento de estudio), con diagnóstico de MPI, remitidos a consulta de rehabilitación del HUIS entre 2010 y 2018.

Se excluyeron del estudio todos aquellos niños con marcha de puntillas que persistía más allá de 3 años y que habían sido sometidos a cirugía de alargamiento del tendón de Aquiles, también los pacientes con exploración compatible con diagnóstico de algún trastorno neuromuscular, neurológico y traumatológico, que pudiese justificar la presencia de marcha de puntillas y en definitiva todos aquellos en los que la herramienta TWT orientara otro diagnóstico (163) (161), de este modo quedaban resumidos los criterios de la siguiente forma:

3.1.3.1. Criterios de inclusión

- Pacientes diagnosticados de MPI en el HUIS tras visita al médico rehabilitador y aplicación de la herramienta TWT, incluyendo una valoración neurológica sistematizada que incluía ausencia de alteraciones en el tono, la fuerza, la sensibilidad, los reflejos osteotendinosos, la exploración del test de Gowers (pese a su baja especificidad) (183) y niveles de enzima creatín fosfoquinasa (CPK) normales (184), todo ello combinado con una exploración ortopédica normal que descartaba la presencia de contracturas, de anomalías en el pie o de atrofia de músculos peroneos.
- Historia clínica no compatible con las entidades previamente descritas como diagnóstico diferencial (tabla 2) que cumplan los siguientes criterios:
 - Edad: 3-12 años.
 - Diagnóstico de marcha de puntillas confirmado mediante análisis instrumental de la marcha (apoyo en flexión plantar en el contacto inicial y/o dorsiflexión incompleta en el apoyo medio) (159).
 - Toe Walking Tool compatible con MPI (164).
 - Niños con la suficiente capacidad para cooperar durante la realización de un análisis de marcha.
 - Tutores capaces de participar en el procedimiento de consentimiento informado necesario para incorporarse al estudio.

3.1.3.2. Criterios de exclusión

Pacientes que en el momento de entrar a participar en el estudio presenten:

- Contracturas a nivel del tríceps sural o deformidades fijas (185).
- Antecedentes de tratamiento quirúrgico en miembros inferiores (73).

Como apoyo al diagnóstico diferencial clínico de la muestra, se complementó el diagnóstico del trastorno por déficit de atención e hiperactividad (TDAH) (186) mediante el TEST EDAAH o escala de Conners revisada, (187) una de las más empleadas por su sencillez, aplicabilidad y utilidad clínica, aprovechando que este tipo de instrumentos presenta excelentes propiedades psicométricas (188).

3.1.4. Ámbito y población del estudio.

Representatividad de las muestras

Los pacientes fueron reclutados en la consulta de Rehabilitación Infantil del Hospital Universitario Infanta Sofía con los criterios de inclusión descritos y referenciados en la metodología, remitidos de forma habitual a la consulta de rehabilitación infantil del hospital, única disponible del área. La población de estudio fueron por tanto niños diagnosticados de marcha de puntillas idiopática, remitidos a la consulta de rehabilitación del Hospital Universitario Infanta Sofía de San Sebastián de los reyes entre los años 2010 a 2018.

El área de influencia del Hospital Infanta Sofía abarca la atención a la salud de aproximadamente 52.000 menores de 14 años (1) o aproximadamente 44.000 de entre 3 y 12 años (2) según la referencia poblacional que tengamos en consideración, demografía del padrón estatal o población asegurada del SERMAS. Dado que los pacientes pueden solicitar consulta por área única en otros centros, entendemos que únicamente hemos tenido acceso a una parte de la población afectada por la presencia de listas de espera, problemática característica de hospital de segundo nivel con limitación de recursos. La amplia prevalencia de la marcha de puntas junto a la variabilidad clínica, ha obligado a elaborar protocolos consensuados de manejo, restringiéndose como se nombraba anteriormente el término de “marcha de puntillas idiopática” o MPI (“idiopathic toe walking” ó ITW en nomenclatura anglosajona más extendida) en la actualidad a aquellos casos en los que persiste el origen desconocido y la marcha sin taloneo regular como señas de identidad exclusivamente descartable que parte de los potenciales pacientes de la zona hayan sido evaluados o tratados en otras áreas. La prevalencia estimada de MPI en poblaciones europeas menores de 5 años indica que podríamos encontrarnos en torno a 800 menores con MPI a los 5 años que corresponderían al área de influencia del hospital infanta Sofía durante el período de estudio, en tan solo 330 no desaparecería el trastorno, persistiendo el patrón en gran cantidad de ellos, no siempre con clínica. Sin restar representatividad a la muestra y considerando que en unos 500 casos desaparecería el trastorno, a la consulta en ese período llegaron “un centenar de sospechas” a razón de más

50 anuales, de los cuales el 77% superaban el cribado. Aspectos como la incapacidad de acceso al valor global de la población, la posibilidad de los menores de elegir otros centros de referencia de tercer nivel asistencial, como el Hospital Universitario La Paz (HULP) y la enorme variabilidad descrita en la bibliografía para la incidencia y prevalencia de la MPI, no permitía calcular datos epidemiológicos precisos del área. Del porcentaje de los menores con MPI que no llegaron a la consulta, sospechamos que se incluyeron en el estudio especialmente aquellos con clínica menos llamativa y/o menor edad en la espera de que otros profesionales encargados de la salud de los menores o sus familias confiaban que el trastorno se resolvería espontáneamente. El “sesgo selección” no puede evitarse con un diseño centrado en acceso a los menores para consultas de rehabilitación infantil a donde llegan generalmente casos seleccionados por motivo clínico desde atención especializada. Los motivos clínicos incluyen la preocupación de padres y/o profesionales por malformaciones evolutivas potenciales lo suficientemente importante como para solicitar solución a “su problema”, lo que ya de por sí apoyaría el “sesgo de selección terapéutico” a tener en cuenta para interpretar resultados, al no estar incorporada de forma específica la detección sistemática de la MPI en la exploración habitual de la consulta del niño sano (189).

El seguimiento del paciente en nuestro estudio ha incluido observación o tratamiento siempre según parámetros clínicos, lo que por un lado ha permitido cumplir la función para la que se encomendaba la asistencia clínica, interviniendo en clínica de dolor, torpeza motora, persistencia de síntomas (pese a otras intervenciones o programas de fisioterapia), control motor, tonificaciones y estiramientos previos para atenuar la retracción muscular progresiva. Dicha retracción ha sido descrita casi siempre del músculo tríceps sural, marcándose en nuestro protocolo como objetivo mantener al menos 10° e intervenir de forma más insistente cuando alcanzaba menos de 5° de flexión dorsal de tobillo. Parámetros como la preocupación paterna o profesional significativa han sido también tenidos en cuenta sin ser definitivos para tratamiento. En los casos que han requerido infiltraciones se ha empleado TxBA con o sin proteínas complejantes, asociada a un programa de fisioterapia de dos semanas mínimo de terapia intensiva. La versión de fisioterapia empleada en este estudio fue incorporada por la comisión de calidad en rehabilitación en Junio de 2022, aplicando las lecciones aprendidas del presente estudio y modificando levemente al que se venía aplicando en Rehabilitación desde 2011. La nueva versión incorpora la estandarización de ejercicios domiciliarios puesta en marcha en 2018 tras ser aplicado a nuestro estudio (**Figura 16-Anexo I**) y otros detalles como el cálculo de cargas simplificado por ejemplo.



Figura 16. Protocolo definitivo de fisioterapia en MPI del HUIS.

El protocolo empleado en este estudio fue presentado el 1/6/22 a la comisión de calidad para su empleo rutinario en el HUIS. Sustituyó al protocolo piloto empleado desde 2011 en el servicio de rehabilitación del HUIS, estandarizando tiempos, derivaciones y ejercicios en casa.

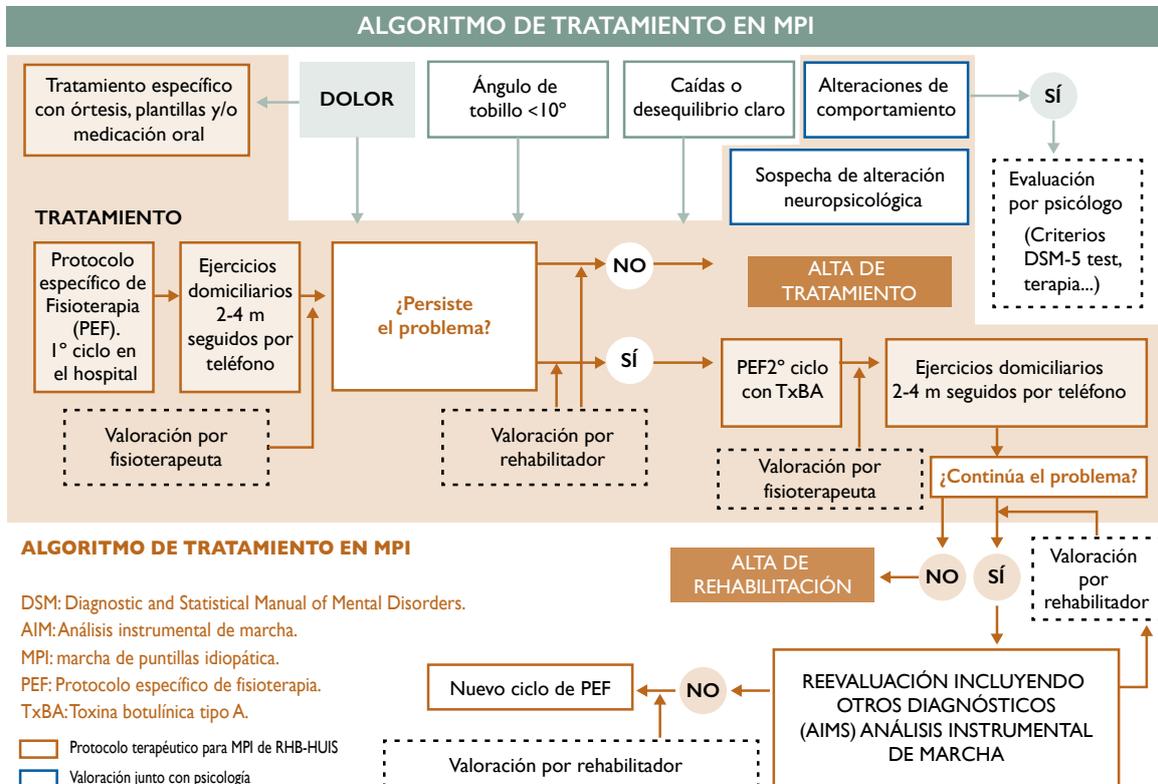


Figura 17. Algoritmo terapéutico empleado en el HUIS desde 2011.

El algoritmo terapéutico completo puede observarse más detallado en la figura 27

Para limitar los problemas de demoras en el acceso al gimnasio y siempre hasta revisión, especialmente en aquellos casos que con similar protocolo de fisioterapia no conseguían yugular el trastorno total o parcialmente en al menos 6-12 meses desde su inicio (**Figura 17**) (190), explicábamos ejercicios domiciliarios desde la propia consulta.

3.1.5. Algoritmo diagnóstico y flujo de pacientes

La investigación comenzó como estudio observacional sobre casos consecutivos derivados a la consulta de Rehabilitación Infantil del Hospital Universitario Infanta Sofía para valoración de marcha de puntillas. En el estudio se fue progresivamente incluyendo a todos los niños mayores de 24 meses que presentaron marcha de puntas para valoración. Entre los 24 y 36 meses se les mantuvo en observación y seguimiento sin incluirse en el estudio, hasta confirmar criterios de inclusión. Todos fueron remitidos a la consulta de rehabilitación entre los años 2008 a 2018 alcanzando 100 pacientes que cumplían los criterios de selección y expresaron consentimiento para participar en el presente estudio. Se apartaron del grupo de estudio todos los que cumplían criterios de exclusión como haber sido sometidos a cirugía de alargamiento del tendón de Aquiles, pacientes con diagnóstico o sospecha de algún trastorno neuromuscular, neurológico y/o traumatológico, que pudiese justificar la presencia de marcha de puntillas y en definitiva, se descartaron todos aquellos en los que la herramienta TWT (164) orientó hacia otro diagnóstico y/o que tras la evaluación clínica y de las pruebas complementarias disponibles persistiera una sospecha de patología alternativa (23). Mediante la aplicación de la herramienta TWT, previamente validada en población de nuestro medio (163) y los criterios referidos, se seleccionaron 77 casos entre 2-14 años (media 7.1 +/- 3.1 años) que cumplían condiciones de MPI tras la evaluación clínica neurológica y ortopédica ya descrita. La **Figura 18** recoge el flujo de pacientes que intervinieron en cada grupo. En ella vemos que de 100 pacientes inicialmente derivados a rehabilitación, en consulta se diagnosticó por anamnesis y exploración un paciente con parálisis cerebral y otros 22 fueron diagnosticados de alteración de otro tipo mediante el cribado con TWT y sistemática de estudio, formando la “**cohorte 1**” de pacientes con MPI de los cuales surgió la “**cohorte 2**” de 27 pacientes en los que debido a la clínica se aplicó el protocolo terapéutico presentado. 30 pacientes de la “**cohorte 1**” presentaban dolor que fue estudiado en 26 de ellos antes y después de 2 – 3 años mediante cuestionarios validados. En paralelo se estudiaron 32 pacientes de la “**cohorte 1**” con TDAH diagnosticado previamente (6) o sospechado por rendimiento escolar inadecuado, problemas de inquietud y/o sospecha de inatención referidos por padres o profesores. Ese grupo fue evaluado mediante test EDAH y Conners encontrando 21 casos positivos para TDAH, alcanzando un total de 27 casos encontrados en la “**cohorte 1**” con MPI y TDAH.

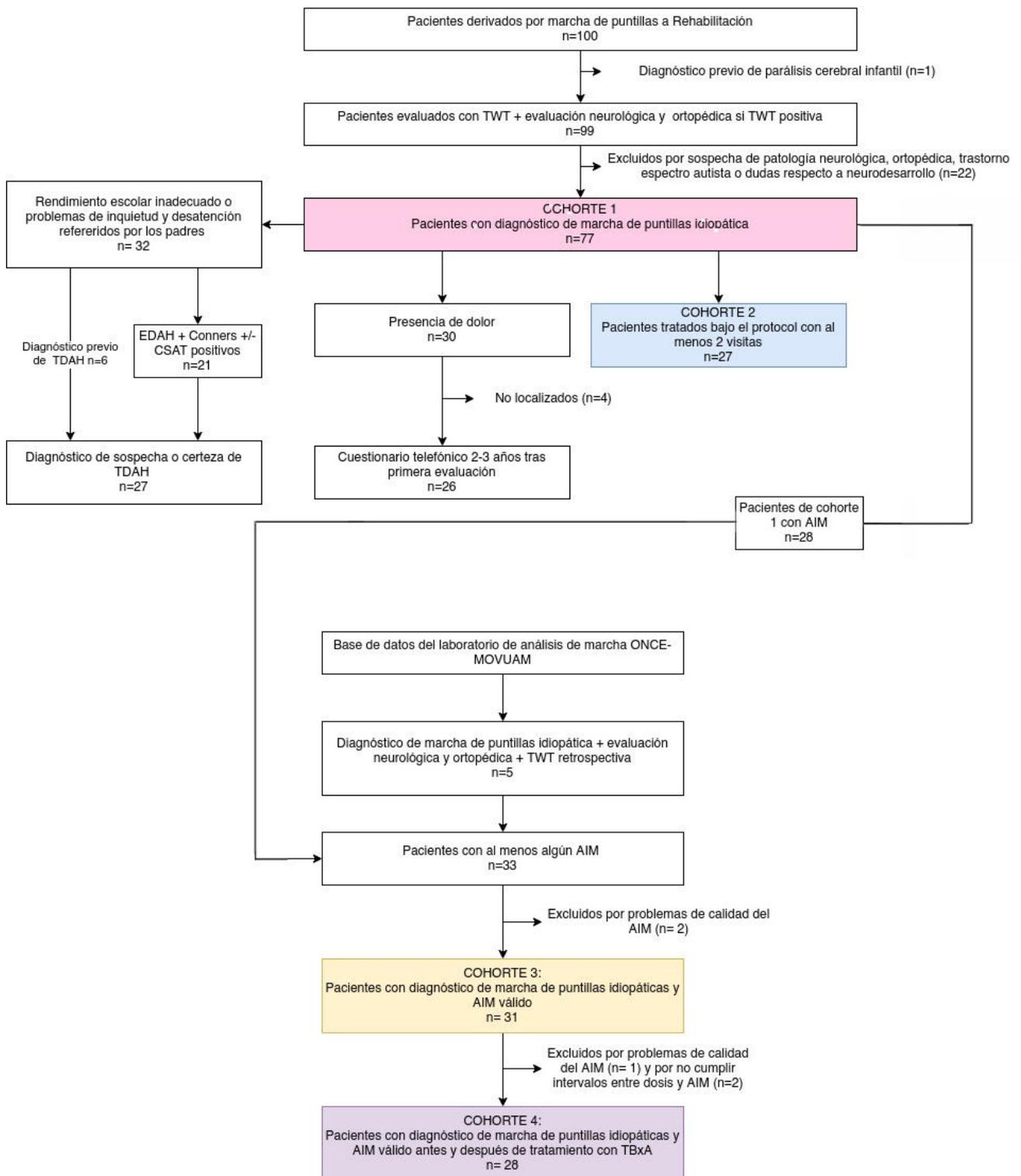


Figura 18. Flujo de pacientes reclutados en cada grupo.

También en paralelo, de los 77 casos de la “cohorte I” aceptaron ser estudiados mediante AIM, 26 casos. Para mejorar la casuística, empleando el mismo cribado retrospectivo de nuestro estudio, 5 niños provenientes del HULP con MPI se incorporaron al AIM, formando la “cohorte 3” de 31 niños con MPI y AIM válido para estudio, de la cual surgió la “cohorte 4” de pacientes con MPI sometidos a tratamiento con TxBA para estudiar su AIM post-tratamiento.

3.1.6. Organización del equipo clínico y de investigación

En el presente estudio se han seguido las pautas de consenso de la Universidad de Michigan en la que dos clínicos (un médico especialista en neuropediatría y otro de rehabilitación dedicado especialmente a menores) tras adaptar la terapia al problema clínico subyacente, según varias guías de práctica clínica de uso extendido (68) (113) y siempre según la evolución del caso (75), evaluaron el efecto de la intervención en menores con diagnóstico de MPI tratados con y sin TxBA de diferentes características.

También ha sido importante la valoración por parte de fisioterapeutas especializados en la práctica clínica con menores, todos integrados dentro del equipo de rehabilitación. Por último, el análisis de marcha ha sido realizado por un equipo experto y los análisis empleados se basan en investigaciones previas de nuestro grupo (MOVUAM) (178) (179) (191).

3.1.7. Aspectos éticos y legales

El plan de investigación completo fue revisado, evaluado y aprobado por el Comité Ético de Investigación Clínica del Hospital Universitario Infanta Sofía (Anexo II). El proyecto de investigación respetó las normativas en materia de bioética según la declaración de Helsinki (180), el informe de Belmont (192) y el convenio de Oviedo sobre los derechos humanos y biomedicina (193). Además cumplió la Ley 14/2007, de 3 de julio, de Investigación biomédica, realizándose conforme al Reglamento (UE) 2016/679 del Parlamento europeo y del Consejo de 27 de abril de 2016 de Protección de Datos (RGPD). El manejo de los datos personales de los pacientes se realizó cumpliendo la Ley Orgánica 3/2018, de 5 de diciembre, de Protección de Datos Personales y garantía de los derechos digitales (172), el Real Decreto 1720/2007 (194) y la Ley 41/2002 (132). La muestra y los resultados obtenidos del estudio podrían emplearse para su estudio a posteriori sólo con fines científicos y divulgativos sin ánimo de lucro.

El presente estudio se realiza al amparo de las recomendaciones de la última revisión Cochrane sobre intervenciones en la MPI (113) donde se recomienda considerar medidas de resultado consistentes y reproducibles tanto en entornos clínicos como de laboratorio, sugiriendo tiempos de seguimiento mínimo de seis meses y recomendables de un año para comprender el impacto a largo plazo del tratamiento. Dicha revisión incide en la necesidad de ensayos clínicos aleatorizados (ECA) de alta calidad para las intervenciones comúnmente utilizadas para MPI en las que generalmente se busca aumentar la limitación de la dorsiflexión del tobillo de forma mantenida, si bien nuestro estudio no ha sido diseñado como tal.

El procedimiento siempre respetó la LOPD así como los criterios de ética para la investigación de Helsinki (180) recogiendo los datos de forma anónima y codificada, con consentimiento escrito aprobado por el comité correspondiente del HUIS y realizado sobre la población diana asignada la zona adscrita, respetando la legislación vigente (172) y sin conflicto de intereses por parte de los investigadores.

3.2. Cálculo del tamaño muestral y representatividad de la muestra

Estudios actualizados (186) en poblaciones europeas similares a la española (195) admiten la incidencia media del 4.9 % entre los 5 y 6 años. Nuestra población de referencia en el área geográfica del HUIS corresponde a 45.623 menores de 3 a 12 años (1) a finales de 2018: 43.328; en 2020 (media de 43.803 en Enero 2020 y 42.853 en diciembre 2020). Toda esta población puede ser derivada a la consulta de rehabilitación desde la que se desarrolló el estudio. En este escenario con una población de 4.950 niños de 5 a 6 años en el área según los datos demográficos disponibles (1) (2) se estima según la prevalencia publicada que tendríamos que atender anualmente 243 niños de entre 5 y 6 años con MPI para abarcar la totalidad de los afectados. Dado que se atendieron 17 menores en ese rango, anualmente valorábamos en la consulta de rehabilitación infantil una estimación aproximada del 7% del número global de MPI del área.

Entendiendo que el diseño del estudio limitaba la muestra a niños sintomáticos pues los menores se remitían en gran parte por dolor y/o para tratamiento, y admitiendo un cribado con TWT que limitaba el 77% de las puntillas como MPI, con un seguimiento bianual, esperábamos encontrar que de los 187 posibles pacientes anuales de 5 a 6 años (374 esperados bianuales), que aparecían con MPI al año, atender 17 equivalía a atender el 5 - 6% de la población total estimada en el mejor de los casos. En una patología tan prevalente, muestreos del 5% se presentan capaces de poder describir el grupo etáreo de 3-12 años, la epidemiología y por ende los hallazgos clínicos aplicables a la población con MPI de la zona del HUIS.

A la pregunta de cuántos pacientes se precisaban para estimar la prevalencia equivalente de acortamiento aquileo en pacientes con MPI del área y siempre que deseáramos alcanzar un nivel de confianza del 95%, con una precisión del 2%, encontramos que tendríamos que atender a algo más de un centenar de pacientes de 5 a 6 años para conseguir representatividad y para que el valor encontrado de acortamiento fuese comparable al resto de la bibliografía (valores del 30-45% de acortamiento según series). Las dificultades para alcanzar y manejar tamaños muestrales mayores, obligaron al autor a emplear la metodología de “cribado TWT” y extender su aplicación no sólo sobre las consultas desde 2018 sino también retrospectivamente desde 2010 a 2018 para mejorar la representatividad siempre sobre valores muestrales máximos del 5-6% de población atendida con diagnóstico de MPI en el mejor de los casos (190).

Resumiendo, los resultados de muestras de alta calidad diagnóstica, igual o superior a la de Sobel, Engelbert y resto de autores, gracias el cribado, permiten aceptar razonablemente que los datos obtenidos en nuestro estudio pueden ser comparados con rigor con los publicados en otros estudios clínicos similares para pacientes de patología prevalente, a pesar de las limitaciones del diseño de nuestra investigación y los recursos limitados.

3.3. Grupos de estudio empleados

Se seleccionó una cohorte de pacientes diagnosticados de marcha de puntillas idiopática remitidos a la consulta de rehabilitación infantil del Hospital Universitario Infanta Sofía de san Sebastián de los Reyes entre los años 2010 y 2018. El área de influencia del Hospital incluye la atención a la salud de aproximadamente 52.000 menores de 14 años (1) o aproximadamente 44.000 de entre 3 y 12 años (2). Dado que los pacientes pueden solicitar consulta por área única en otros centros, los investigadores sólo podrían acceder a una parte de la población afectada. La amplia prevalencia de la marcha de puntas junto a la variabilidad clínica obligó a elaborar protocolos consensuados de manejo, restringiéndose el término de “marcha de puntillas idiopática” o MPI, (también denominado idiopathic toe walking o ITW en nomenclatura anglosajona, como ya comentamos) con origen desconocido y marcha sin taloneo regular como señas de identidad. El flujo de pacientes se muestra en la **Figura 18** tras diagnóstico diferencial de los pacientes de la zona hayan sido evaluados o tratados en otras áreas. Entendiendo que a la consulta de RHB infantil llegan generalmente casos seleccionados por motivo clínico (dolor y caídas en su mayoría) desde consultas de atención especializada directamente (pediatría y COT principalmente) o detectados en primaria y secundariamente remitidos a RHB. Se tuvo en cuenta la preocupación de padres y/o profesionales como para solicitar valoración por clínicos especializados lo que por sí sólo actuaría como sesgo de selección a valorar respecto a todos los menores con posible patrón de MPI. El seguimiento del paciente ha incluido observación o tratamiento siempre según parámetros clínicos, interviniendo por clínica de dolor, caídas frecuentes y/o MPI refractaria pese a programas de fisioterapia previos o en caso de retracción muscular progresiva (casi siempre del músculo gastrosóleo) con menos de 5° de DF de tobillo. Parámetros como la preocupación paterna o profesional significativa han sido también tenidos en cuenta sin ser definitorios del tratamiento.

Para la recogida de datos se empleó el cuestionario extendido basado en la herramienta TWT (Toe Walking Tool) que incluye características del examen físico con fiabilidad y validez demostrada para el diagnóstico diferencial entre la MPI y otras patologías médicas (162). Esta herramienta tiene la ventaja de ser una de las pocas validadas en población de nuestro entorno (163) pudiendo ser combinada con otras herramientas para despistaje de trastornos atencionales (trastornos por déficit de atención e hiperactividad) empleadas con profusión en entorno educativo, tales como el test EDAH, test de cribado validado para el despistaje de TDAH (49) (48), y en aquellos casos en que persistía la duda empleando un segundo test clínico más específico denominado CSAT (51) (165), junto a encuestas telefónicas validadas caso de aparecer variables como el dolor.

DATOS PROCEDENTES DE LA HISTORIA CLÍNICA (ya referidos):

- Edad gestacional al nacimiento.
- Edad de inicio de la bipedestación.
- Anamnesis sobre enfermedades perinatales y enfermedades en el primer año de vida.
- Presencia de gateo durante el primer año de vida.
- Uso de tacatá (6).
- Edad de inicio de la marcha.
- Historia familiar de MPI (30).
- Dominancia manual (166).

DATOS PROCEDENTES DE LA EXPLORACIÓN FÍSICA (ya referidos):

- Peso, talla y índice de masa corporal (33).
- Patrón de desgaste de calzado de uso frecuente (84).
- Exploración neurológica básica reglada: Memoria y orientación espacial. Pares craneales. Fuerza, tono y actitud de las extremidades. Evaluación de los reflejos osteotendinosos profundos (bicipital, tricipital, cuadrícipital y aquileo). Presencia o ausencia de clonus. Postura. Valoración del equilibrio en mono- y bipedestación. Test de Romberg y de Untenberger. Presencia de disdiacocinesia. Detección de reflejos arcaicos como Galant, prensión palmar o plantar. Test de Babinski. Test de Gowers. Test de la sentadilla.
- Exploración ortopédica básica: Valoración de la presencia de espasticidad y contracturas en las principales articulaciones del miembro inferior con recogida de su rango de movilidad. Test de Thomas, ángulo poplíteo/Angulo LH, test de Silfverskiöld, valoración del pie mediante podómetro, Detección de desviaciones en el tren inferior. Test de Adams.
- Valoración de la funcionalidad de la función motora grosera con el *Gross Motor Function Measure* item 66 corregido por Rusell et al. (168).
- Valoración de habilidad manual: *Manual Ability Classification System* (169).
- Valoración de la funcionalidad de la marcha mediante el *Gillette Functional Assessment Questionnaire* (169).
- Evaluación observacional de la marcha en un pasillo de 6 m de longitud con y sin maniobras de distracción mediante la *Physician Rate Scale* (170). Se presta especial atención a la presencia de intra-extrarrotación del pie y alteraciones pélvicas durante la marcha.

RECOGIDA DE DATOS QUE SE INCLUYEN EN TODAS LAS VISITAS CLÍNICAS: Según selección de variables consideradas de interés para monitorizar los efectos del tratamiento (ver 3.4).

EXPLORACIÓN FÍSICA:

- Máxima dorsiflexión del tobillo con rodilla extendida y calcáneo en posición neutra (196).
- Máxima dorsiflexión del tobillo con rodilla en flexión de 30-90° (197) (86).
- Rango de movilidad pasiva de tobillo (PROM) (198) con test Lunge (199) (200) y/o Silfverskiöld (196)
- Rango de movilidad activa del tobillo: los pacientes que han tenido MPI tienen un riesgo de 3,2 (IC95% 2,1-5) veces más de tener este rango disminuido (33) y es una variable importante a la hora de monitorizar el tratamiento especialmente en pacientes con patología (198).
- Ángulo poplíteo (33) (201) (202) y/o lumbo-horizontal (95).

3.4. Selección de variables

La selección y definición de las variables de entre todas las recogidas se realizó tras revisión de la bibliografía, adaptando las más relevantes, reproducibles y viables para ser medidas en la consulta con tiempo y fiabilidad razonables.

3.4.1. Variables principales clínicas empleadas para medir evolución

1. Máxima dorsiflexión del tobillo con rodilla extendida y calcáneo en posición neutra a través del test de Silfverskiöld (86) (197) (196) (198)
2. Las recogidas en el "TWT" en consulta (163) (162) y/o análisis observacional, incluyendo la posibilidad de añadir "MDP" "Movement Deviation Profile" (203) en casos dudosos para ampliar información de la anterior herramienta.
3. Las recogidas en el TWT en entrevista paterna 12-24 meses después en caso de presentar clínica y/o patología en los que haya alteraciones en uno o más elementos del TWT que precisen ampliar información con el MDP y/o análisis observacional.
4. Presencia/ausencia de patología en revisión de historia clínica de menores con MPI (orientada por el TWT o no).
5. Las obtenidas del cuestionario telefónico de dolor aplicado en todo paciente que acudía con este como causa de consulta.

3.5. Datos procedentes de la historia clínica y de la exploración clínica. Muestreo de la discrepancia de medidas

A la hora de completar la base de datos de exploración clínica había cuestiones de especial relevancia. La primera era determinar qué grado de fiabilidad de la medida teníamos en las distintas consultas. Aunque empleamos datos presentes en la Historia clínica que casi siempre procedían del mismo evaluador, un rehabilitador con experiencia “armado” de goniómetro y diversos “test”, se buscaba controlar sesgos inter-observador de diferentes profesionales (pediatras, traumatólogos, neurólogos pediátricos, fisioterapeutas o rehabilitadores). Desde 2018 se aplicó la TWT en la consulta, y todo se sistematizó aún más, acotando mejor los datos. Ese año se observó al verificar la base de datos que muchos parámetros no ordinales tenían demasiada variabilidad. Toda medición de valores clínicos siempre está sometida a sesgo de medida intra e inter-observador, pero a la hora de elegir parámetros para el estudio evolutivo, se trataba de rentabilizar el tiempo disponible, por lo que se quiso determinar cuáles eran los más fiables según momento de medida en la consulta. Una serie aleatoria de 10 casos comparó el valor obtenido de la consulta con el medido en gimnasio por un fisioterapeuta. La sistemática de exploración y goniometría fueron consensuadas y pese a ello se objetivaron similitudes y diferencias (tabla 8A, 8B, 8C). La búsqueda de rigor comparativo en muestreo recomendaba estimar el índice kappa como fiabilidad inter-observador, pues al margen de la bibliografía, queríamos saber que estaba pasando con nuestras mediciones de forma independiente, buscando cuales eran los valores más rentables para medir en el poco tiempo de una consulta. Ese muestreo de comparación de dos observadores, un médico y un fisioterapeuta, sólo permitía evaluar el grado de discrepancia de forma puntual para ciertas variables por limitaciones varias. Para delimitar que datos de exploración presentaban más fiabilidad elegimos aquellos con kappa más cercana a 1. Kappa mide los valores con mayor concordancia cercanos a 1 y con mayor discordancia a -1. Nuestro muestreo interno se realizó con mediciones paralelas en el tiempo menos de 2 semanas en niños sin tratar, encontrando mejor fiabilidad Kappa para el ángulo LH, ángulo poplíteo, el test de Silfverskiöld con goniometría y menor en medición de longitud de MMII, huella de desgaste de calzado o grados del test de Adams. La no concordancia temporal, limitaciones en consulta y otras dificultades organizativas hicieron imposible extender la medición a más datos. Para complicarlo aún más si cabe, había menores no citados con los mismos profesionales, tratamientos externos no controlados entre medidas y otras cuestiones organizativas que impedían un estudio más ortodoxo aún.

Tabla 9A. Muestreo en 10 pacientes del estudio de la discrepancia de medida en los valores del test de Silfverskiöld al medir el ángulo de dorsiflexión con rodilla en flexión (DF+RF) y en extensión (DF+RE) evaluados por el médico (M) y el fisioterapeuta (F).

Caso	Sexo	Años	altura	Peso (Kg)	DF+RF M	DF+RF F	%diferencia	DF+RE M	DF+RF F	% diferencia
P1	Varón	7	124,0	22,0	20,00	15,00	7,14	22,00	20,00	2,38
P2	Varón	15	177,0	74,0	15,00	15,00	0,00	15,00	15,00	0,00
P3	Mujer	10	143,5	31,0	22,00	20,00	2,38	20,00	18,00	2,63
P4	Varón	8	125,5	24,0	15,00	10,00	10,00	18,00	15,00	4,55
P5	Varón	4	125,0	18,5	25,00	22,00	3,19	25,00	24,00	1,02
P6	Varón	7	130,0	27,0	22,00	20,00	2,38	25,00	20,00	5,56
P7	Varón	10	138,0	30,0	12,00	10,00	4,55	10,00	8,00	5,56
P8	Mujer	9	141,0	29,5	20,00	20,00	0,00	20,00	18,00	2,63
P9	Varón	6	118,0	23,5	15,00	12,00	5,56	5,00	5,00	0,00
P10	Varón	7	112,0	22,0	15,00	12,00	5,56	18,00	15,00	4,55
							% de discrepancia	4,08	% de discrepancia	2,89

Los valores presentan apenas un 4% máximo de dispersión de medida (Kappa >0.95)

Tabla 9B. Resultados de similar muestreo de discrepancia en los valores de los mismos pacientes para el ángulo Lumbo-horizontal LH y el ángulo poplíteo entre médico(M) y fisioterapeuta (F).

Caso	Sexo	Años	altura	Peso (Kg)	Ángulo LH M	Ángulo LH F	diferencia	Popliteo M	Popliteo F	% DIF
P1	Varón	7	124,0	22,0	45,00	40,00	2,94	45,00	40,00	2,94
P2	Varón	15	177,0	74,0	45,00	45,00	0,00	30,00	25,00	4,55
P3	Mujer	10	143,5	31,0	85,00	80,00	1,52	1,00	1,00	0,00
P4	Varón	8	125,5	24,0	60,00	60,00	0,00	45,00	35,00	6,25
P5	Varón	4	125,0	18,5	90,00	90,00	0,00	1,00	1,00	0,00
P6	Varón	7	130,0	27,0	40,00	40,00	0,00	40,00	35,00	3,33
P7	Varón	10	138,0	30,0	70,00	70,00	0,00	1,00	1,00	0,00
P8	Mujer	9	141,0	29,5	75,00	68,00	2,45	1,00	1,00	0,00
P9	Varón	6	118,0	23,5	90,00	90,00	0,00	1,00	1,00	0,00
P10	Varón	7	112,0	22,0	60,00	40,00	10,00	45,00	40,00	2,94
							% de discrepancia	1,69	% de discrepancia	2,00

Los valores discrepan apenas 1,69-2%. (Kappa >0,95)

Tabla 9C. Medidas de valor como la “huella de desgaste del zapato” obtenido de las historias clínicas y extensible a otros parámetros subjetivos no ordinales ofrecieron una discrepancia de al menos el 40% al categorizarlas.

Caso	Años	altura	PISADA M	PISADA F	diferencias
P1	7	124,0	desgasta talón	desgasta talón	0,00
P2	15	177,0	desgaste talón	desgaste simétrico talón	0,00
P3	10	143,5	desgaste interno y medio talón	desgaste talón y antepié	-0,50
P4	8	125,5	desgasta punta, mediopié interno y talón interno	desgasta talón	-0,50
P5	4	125,0	desgasta talón y puntera	desgasta talón y puntera medio	0,00
P6	7	130,0	no talón, solo mediopié	desgasta talón-mediopié antepié	-0,50
P7	10	138,0	desgasta talón y puntera	desgasta todo el pie igual	-1,00
P8	9	141,0	no desgasta talón y si puntera	no desgasta talón	-0,50
P9	6	118,0	no desgasta talón	desgasta talón	-1,00
P10	7	112,0	desgasta talón	desgasta talón	0,00

(0): sin diferencias	% de discrepancia	40,00
(-0,5): 50% coinciden, 50% no		-0,40
(-1): valores opuestos		

La categorización se realizó según el valor 0 cuando no hubo diferencias, -0,5 cuando se discrepaba en el 50% de la medición y -1 cuando era el 100%. La variable huella de desgaste de talón alcanzó una discrepancia del 40% (coeficiente Kappa negativo > 0.4), desaconsejando su empleo reglado como parámetro evolutivo para toma de decisiones.

Por cuestiones éticas primaba que el menor cumpliera protocolo terapéutico, de manera que las medidas no se contrastaron en el mismo espacio físico, aunque sí con mismo protocolo de exploración, lo que incluyó ciertas variables (entre 6 y 8) fiables metodológicamente. Se admitió como óptimo un valor menor del 5% de fiabilidad inter-observador, que por suerte fue encontrado para ángulos de DF de tobillo, poplíteo y LH (tablas 9A y 9B).

Ciertos valores no resultaron tan relevantes a la hora de determinar la presencia de puntillas pese a su aparente sencillez. Como no obtenían porcentajes de discrepancia aceptables a la hora de incluirse en la toma de decisiones, hubo que descartar su empleo en la medición del evolutivo. Un ejemplo sería la valoración de la huella de desgaste de la pisada, que no se tuvo en consideración final por la elevada dispersión de la medida (tabla 9C)

Aunque no se pudieron obtener los valores de discrepancia para todos los parámetros del estudio por cuestiones organizativas y de protocolo de medida (no incluían en su evaluación la batería completa de variables que si se estudiaba en consulta y tampoco se realizó siempre o

reflejó de forma sistemática), lo que podría dar lugar a un estudio específico del tema, nuestro muestreo interno permitió al equipo definir algunos parámetros relevantes y fiables para tomar decisiones como el caso del test de Silfverskiöld y los ángulos LH o poplíteo, valores que podemos recomendar encarecidamente no falten nunca en toda exploración de un menor con MPI por su sencillez, fiabilidad y relevancia realizados adecuadamente, con mínimo entrenamiento.

3.6. Metodología de análisis de datos

3.6.1. Análisis de datos en el objetivo 1

Se realizó el análisis estadístico con la ayuda de la programación con R. Se utilizaron la frecuencia absoluta y la frecuencia relativa para la descripción de variables categóricas y la mediana, el mínimo y el máximo para las variables cuantitativas. La relación entre variables categóricas se evaluó mediante Chi cuadrado y entre variables categóricas y cuantitativas mediante t de Student y análisis de la varianza. La relación entre variables categóricas y variables ordinales se estudió mediante el test de Wilcoxon. En los análisis multivariantes, se empleó regresión logística en aquellos casos en que la variable dependiente era dicotómica (dolor) y modelos lineales mixtos en aquellos casos en los que la variable dependiente estaba repetida dentro del mismo individuo (ángulos de dorsiflexión del tobillo). Como método descriptivo multivariante para las variables dicotómicas de localización y tratamiento recogidas en la encuesta de dolor, se elaboraron “heatmaps” con dendrogramas calculados mediante agrupamiento jerárquico agregativo usando como medida de distancia, la distancia binaria y como criterio de enlace, el agrupamiento de máximo.

3.6.2. Análisis de datos en el objetivo 2

Se utilizó una hoja de cálculo Excel estandarizada (Versión 2010, Microsoft Corporation, Richmond, WA) para extraer y procesar la recogida de datos de los pacientes. Para el análisis de datos se utilizó Stata (versión 16). Realizamos la prueba de Wilcoxon y la prueba de Chi cuadrado para determinar las diferencias estadísticamente significativas en las diferencias de ángulo y el equilibrio, la marcha y la fuerza del tendón de Aquiles entre las visitas anteriores y sucesivas para los pacientes que recibieron inyecciones de TxBA y los que no. Dado que no todos los pacientes que asistieron a la segunda y tercera visita posterior al tratamiento recibieron inyecciones de TxBA, no se pudieron calcular estadísticamente diferencias entre uso de la TxBA y/o la fisioterapia.

3.6.3. Análisis de datos en el objetivo 3

Dividiremos este apartado en varios epígrafes

3.6.3.1. Descripción de los parámetros espaciotemporales y cinemáticos

Los parámetros de marcha en los niños de ambos grupos (control y MPI) se representaron mediante estadísticos (media y desviación típica) y gráficamente con la construcción de gráficos de violín (paquete “vioplot” en R). Estos gráficos nos informan de la distribución de los valores de una variable (248).

La **figura 19**, situada a continuación, muestra una guía esquemática que facilita la interpretación de este tipo de gráficos.

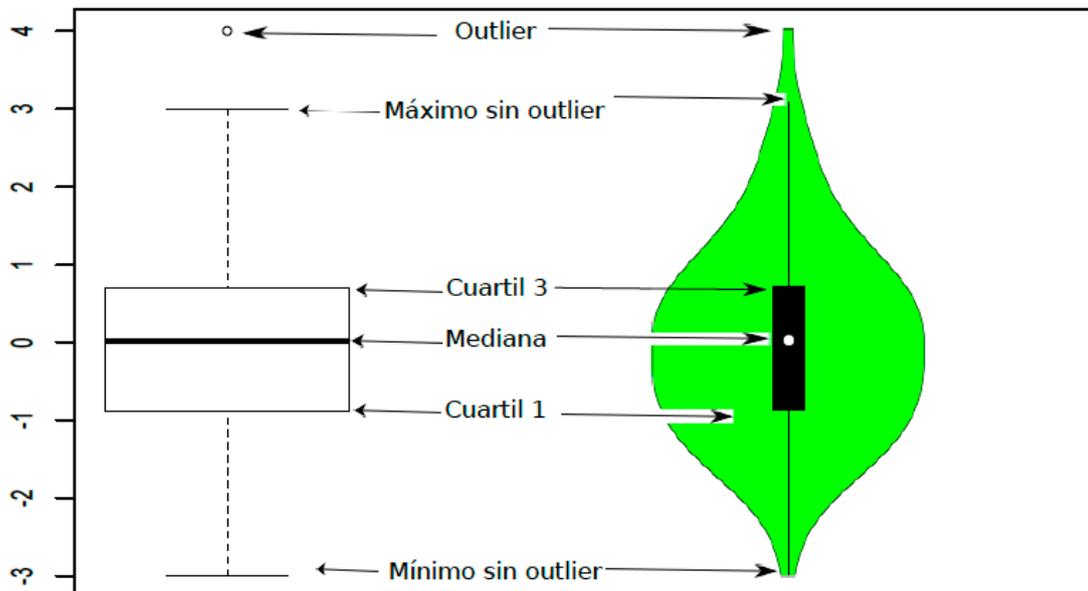


Figura 19. Comparativa entre un gráfico de cajas y otro de violín

Se puede observar en el esquema la comparativa entre la Interpretación de un clásico gráfico de cajas (izquierda) y de un gráfico de violín (derecha). El gráfico de violín explica los mismos estadísticos que un diagrama de cajas si bien es capaz de añadir información adicional sobre la distribución de los datos.

Las diferencias entre los parámetros de marcha de ambos grupos se analizaron mediante el estadístico “d” de Cohen para muestras no pareadas (249) y su intervalo de confianza al 95% calculado por bootstrap acelerado y corregido por sesgos. Esta es una técnica de re-muestreo por simulación computacional que permite un cálculo robusto de intervalos de confianza y que no asume una distribución a priori dentro de los datos de estudio (250). Los resultados se mostraron en una gráfica de Forest.

3.6.3.2. Descripción de los patrones cinemáticos de flexo-extensión

Para analizar las configuraciones de flexo-extensión de las distintas articulaciones a lo largo del ciclo, utilizamos una técnica basada en una distancia denominada DTW (“Dynamic Time Warping”) que previamente habíamos utilizado para estudiar parámetros del ciclo en otras patologías como la paraparesia espástica (169). Esta técnica permite analizar la alteración cinemática en su conjunto sin las limitaciones de extraer variables como la probable pérdida de información o la introducción de sesgos.

De manera breve, el alineamiento temporal dinámico o DTW es una técnica de análisis de series temporales que permite calcular una distancia que estima cuán parecidas son dos series temporales uni o multivariantes. La diferencia que tiene entre el simple cálculo de la distancia punto a punto de una serie temporal es que asume que puede existir una variabilidad intrínseca en la duración de las distintas fases que puede tener una señal o que los mismos eventos pueden ocurrir ligeramente desplazados de otros. Esto es algo que ocurre en la marcha y por eso utilizar esta técnica que es capaz de manejarse en señales con ciertos desfases es interesante. En la **figura 20** se explica el funcionamiento del alineamiento temporal dinámico.

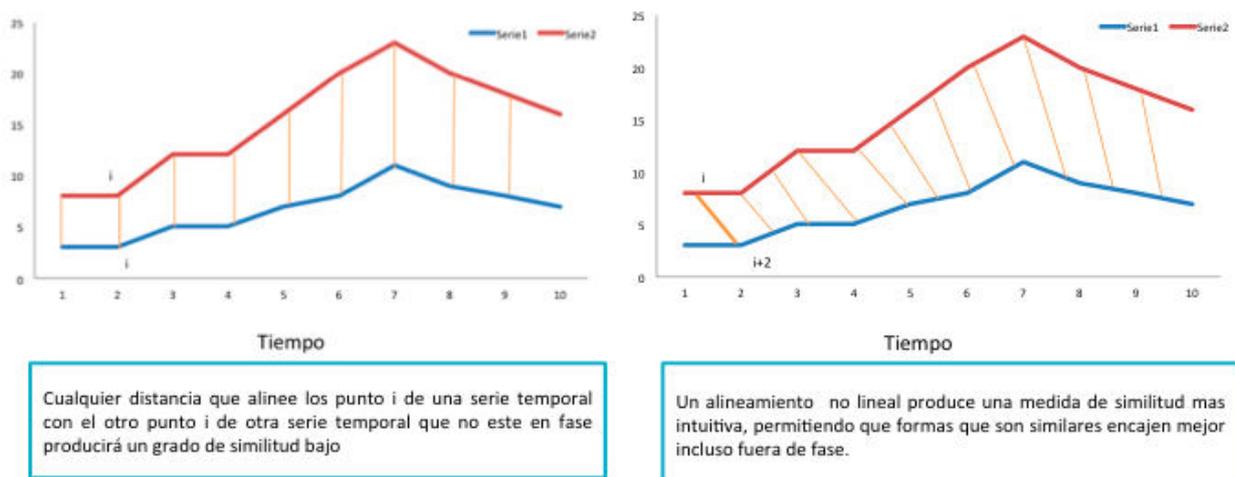


Figura 20. En la siguiente imagen puede apreciarse el funcionamiento del alineamiento temporal dinámico (DTW).

En el eje de abscisa se sitúa siempre el tiempo, mientras que en el eje de ordenadas se describe el valor que toma la variable de estudio en un tiempo determinado. Mediante un alineamiento no lineal, produce una medida de distancia que evita el desfase entre señales.

En nuestro caso, analizamos el patrón de flexo-extensión a lo largo del ciclo de marcha de forma global (serie multivariante) y para cada articulación de forma independiente (pelvis, cadera, rodilla, tobillo y antepié) mediante una distancia DTW euclídea.

Para describir los resultados y la presencia de patrones, se utilizó un análisis de conglomerados jerárquicos aglomerativo. Brevemente, esta técnica representa de forma ordenada el grado de similitud entre individuos mediante una distancia (en este caso, la distancia DTW) y un criterio de agrupamiento (en este caso la media). Los resultados de este análisis se muestran gráficamente en dendrogramas (107). En la **figura 21**, se muestran los resultados obtenidos. Los dendrogramas permiten representar gráficamente las diferencias entre sujetos y nos permiten definir la existencia de patrones. En el caso de existir patrones, representaremos gráficamente los resultados de los mismos para un mejor entendimiento.

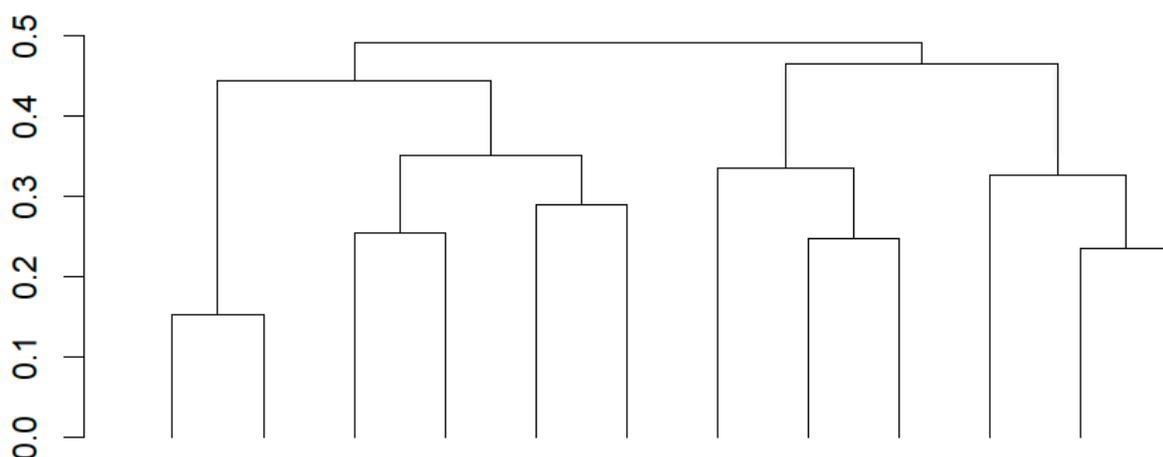


Figura 21. Ejemplo de dendrograma. Este tipo de gráfica simula la estructura de un árbol en la cual hay un tronco que se va dividiendo en ramas.

En el eje vertical se representa la distancia entre las variables. Cada línea vertical que llega a la base es una variable a estudiar, cuanto más alto se sitúa la línea horizontal que une dos líneas verticales menor asociación existe entre esas variables y viceversa.

Como método de representación adicional de las distancias, utilizamos el escalamiento multidimensional (MDS, de sus siglas en inglés “Multi Dimensional Scaling”). Esta técnica permite transformar la información de distancias pareadas de varios individuos en un mapa cartesiano (habitualmente bidimensional). Para su elaboración utilizamos la función “cmdscale” en R.

Por otro lado, calcularemos el índice de Hopkins como métrica que nos permita conocer la tendencia al agrupamiento de los patrones de flexo-extensión.

Así mismo para la representación gráfica de los resultados emplearemos los “heatmap” o “mapa de calor”. El “heatmap” es una técnica de representación gráfica bidimensional que permite representar todos los valores individuales de las distintas variables de cada sujeto de un grupo. Los valores se indican por un espectro de color y generalmente, se ordenan variables y sujeto mediante conglomerados jerárquicos. En este caso, se presentan “heatmaps” que representan los valores de Z-score en función de un grupo control de unos parámetros seleccionados en un grupo problema. Las variables se ordenan en función de un agrupamiento jerárquico que utiliza como criterio de agrupamiento la media y como medida de distancia: $1 - \text{valor absoluto del coeficiente de correlación de Spearman}$. Los casos se ordenan también en función de un agrupamiento jerárquico, pero utilizando como medida de distancia la distancia euclídea. Los valores se representaron en una escala de color desde el rojo (para los valores de Z-score más negativos) hasta el verde (para los valores de Z-score más positivos). En color negro se representan valores de Z-score próximos al 0, es decir, la media de la normalidad.

El análisis estadístico como en casos anteriores se realizó con R. Empleamos la frecuencia absoluta y la frecuencia relativa para la descripción de variables categóricas y la mediana, el mínimo y el máximo para las variables cuantitativas. La relación entre variables categóricas se evaluó mediante Chi cuadrado y entre variables categóricas y cuantitativas mediante t de Student y análisis de la varianza. En los análisis multivariantes, se utilizó regresión logística en aquellos casos en que la variable dependiente era dicotómica (dolor) y modelos lineales mixtos en aquellos casos en los que la variable dependiente estaba repetida dentro del mismo individuo (ángulos de dorsiflexión del tobillo). Nuestros heatmap se obtuvieron mediante la función “heatmap.group” del sistema de programación desarrollado por el equipo de investigación (168).

La base de datos se beneficiaba de la metodología seguida en los objetivos 1 y 2 de cada paciente. Disponíamos por tanto en la base anonimizada de variables demográficas, presencia de antecedentes familiares conocidos de marcha de puntillas en familiares de primer y segundo grado y los parámetros de la TWT de todos los pacientes analizados. De manera similar teníamos recogidas en la base de datos otras variables para definir la gravedad del trastorno como la presencia de acortamiento aquileo, acortamiento de los flexores de rodilla y/o acortamiento de los flexores de cadera medidos bien mediante goniometría y/o evaluados mediante los test habitualmente empleados en patología neuro-ortopédica como es el caso del Test de Lunge (28), el ángulo poplíteo (251), el ángulo lumbo-horizontal (159), el test de Thomas con pelvis controlada (206) y el ángulo de dorsiflexión pasiva con la rodilla flexionada y con la rodilla extendida (87) o test de Silfverskiöld. Gracias a la implementación de la metodología del objetivo 1 disponíamos de datos de presencia de diagnóstico previo o sospechado de trastorno por déficit de atención (207) con y sin hiperactividad. A dicho diagnóstico se llegaba a través de los criterios DSM-III basándose en la anamnesis, la valoración del rendimiento escolar, el test EDAH (52) y el test de Conners para padres (208) contrastando con un segundo test CSAT-RI (252) en caso de discordancia y clasificando por tanto el diagnóstico de TDAH como confirmado, sospechoso o ausente. También disponíamos de datos de la presencia de dolor en miembros inferiores tras caminar o al caminar

referidos por el paciente o sus padres en la anamnesis del primer día de consulta, medidos en aquellos casos que lo presentaron en cuanto a localización e intensidad y siempre gracias a la metodología referida en el objetivo I.

3.6.4. Análisis de datos en el objetivo 4

Se describe detalladamente a partir del punto 4.4.2 y siguientes.



4. DESARROLLO POR OBJETIVOS



4. DESARROLLO POR OBJETIVOS

4.1. Objetivo I: Descripción de las manifestaciones clínicas en un grupo de MIP

4.1.1. Justificación del objetivo

Habida cuenta de que la MPI es un diagnóstico de exclusión, es prioritario comenzar nuestra investigación por acotar de la forma más rigurosa posible la muestra de pacientes a investigar, seleccionando aquellos con marcha de puntas, más allá de una edad determinada que operativamente suele situarse entre los 2 ó 3 años, considerándose fisiológica en pacientes más jóvenes (190) (65), en los cuales las manifestaciones clínicas sean las propias de la MPI. Entre dichas características hay varias con entidad propia, como es el caso del acortamiento aquileo, primero descrito en la bibliografía (15) el dolor subyacente de las posibles alteraciones del neurodesarrollo asociadas, todas descritas en la bibliografía, pero no siempre cuantificadas adecuadamente. Por ese motivo, en nuestro estudio comenzaremos tratando de acotar la descripción clínica del grupo a estudiar, empleando la herramienta de diagnóstico TWT (161) ya actualizada y validada para pacientes españoles (163).

Como consecuencia del patrón biomecánico anómalo que la marcha de puntillas produce, se ha descrito dolor durante la marcha mantenida sobre el antepié (89), con tropiezos o caídas frecuentes (204) esguinces de tobillo, pérdida de eficiencia en la marcha y disminución de la cantidad del ejercicio que es capaz de realizar el paciente afectado (204) así como disminución de la capacidad de flexión dorsal del tobillo, potencial responsable de desarrollar acortamiento del tríceps sural y/o de su tendón de Aquiles (205). La frecuencia del dolor y su relación con el acortamiento aquileo, así como la limitación de la flexión dorsal de tobillo han sido descritas (113) pero no siempre cuantificadas con precisión. Estudiar esta relación de forma

profunda es importante a la hora de personalizar las mejores estrategias terapéuticas para cada paciente (113), determinando aquellas medidas que permitan evaluar las diferentes terapias según protocolos consensuados y basados en la evidencia disponible (68) (206). Dado que los pacientes con MPI pueden presentar trastornos del neurodesarrollo (5), incluimos la sospecha por clínica y/o antecedentes en nuestro estudio, junto a la asesoría del psicólogo clínico del hospital para casos seleccionados para poder tipificar bien cualquier paciente sospechoso de padecer alteración del neurodesarrollo. La bibliografía avala la asociación de la marcha de puntillas en pacientes con trastorno de espectro autista (207) (208) o alteraciones del lenguaje (209) apareciendo también en pacientes con trastorno con déficit de atención (209) (45). Esta última circunstancia fue estudiada sistemáticamente en este grupo de pacientes (161) (43) asociadas al despistaje de la herramienta TWT, diseñada y validada exprofeso para MPI (161).

En definitiva, podríamos resumir nuestro primer objetivo como la descripción de las características clínicas de la muestra, prestando especial atención a la prevalencia de dolor en la MPI, el acortamiento aquileo y/o la limitación de la flexión dorsal de tobillo, la sintomatología compatible con el TDAH y cualquier otra característica demográfica o clínica importante que aparezca en nuestra muestra de pacientes diagnosticados de MPI mediante la herramienta TWT diseñada para cribar la MPI (161).

Una ventaja de esta propuesta del estudio mediante la “TWT ampliada” reside en la capacidad para medir características consideradas relevantes en pacientes con MPI mediante metodología robusta y perspectiva estrictamente clínica **no intervencionista**, permitiendo discriminar incluso MPI con patología y/o patrón “oculto” voluntariamente por el niño (67) que podría pasar inadvertida para el clínico.

Otro de los posibles beneficios de la propuesta reside en validar la utilidad clínica del cribaje de patología subyacente a la marcha de puntas para clínicos con recursos y tiempo limitado en consulta. La información relevante proporcionada por los padres se sistematiza limitando la subjetividad de la exploración y/o la percepción de normalidad en aquellos casos familiares que también provocan limitaciones (67), incluyendo datos demográficos y antropométricos para tipificar mejor la muestra.

Al principio empleamos la variable “patrón de desgaste del calzado” especialmente en la punta de la suela del zapato. Se llegó a pensar en ayuda fotográfica en caso de duda, dada la problemática detectada en la medida, pero finalmente se descartó al complicar mucho el proceso, pues si se incluyó en un principio era por sospechar que orientaría por su sencillez y practicidad a la hora de describir patrones mantenidos de MPI contrastables (12). En definitiva, la variable fue finalmente desechada, al no mostrarse tan útil como se pensaba en consulta (tabla 8C). Nuestra intención era buscar persistencia de apoyo en antepié especialmente en MPI poco sintomáticos antes o después de una intervención. Este método simple, pero no normalizado sólo permitía por tanto detectar patrones de marcha de puntas habitual “camuflada” o

potencialmente subclínica. Tras nuestro análisis interno debemos recomendar su empleo de forma dicotómica como mejora o no mejora. Los datos más interesantes, lógicamente fueron los incluidos en el estudio procedentes de las exploraciones ortopédica y goniométrica a fin de poder detectar acortamientos (74) del tríceps sural con repercusiones en la cadena flexora lumbosacra y flexores de rodilla, incluyendo la medición del ángulo Lumbo-horizontal (95) y la medición del tríceps sural mediante el test de Silfverskiöld, suficientemente útiles a pesar de sus limitaciones (86) como para realizar diagnóstico precoz (33) de contracturas y acortamientos musculotendinosos (87) sugerentes de indicar intervención precoz o más resolutive (210), dato importante pues el estudio se desarrollaba en un entorno eminentemente clínico. La valoración neurológica de estos pacientes se sistematizó incluyendo el tono muscular, los reflejos osteomusculares, la fuerza y la sensibilidad, que deberían ser normales en los pacientes con MPI (30). En algunos casos dudosos se incluyó el cribaje analítico mediante valores de CPK o VSG que ayudaran a precisar mejor el diagnóstico diferencial con miopatías u otros procesos inflamatorios, como parámetros de alta sensibilidad y baja especificidad (211) buscando excluir otros orígenes cuyo estudio podría requerir más pruebas.

4.1.2. Pacientes y métodos

Se realizó un estudio observacional sobre 100 casos derivados a la consulta de Rehabilitación Infantil del HUIS para valoración de marcha de puntillas. Se observaron los pacientes mayores de 24 meses remitidos a la consulta de rehabilitación entre 2010 y 2018 que dieron consentimiento para participar en el estudio. Solo fueron incorporados al estudio tras cumplir los criterios de inclusión y exclusión descritos previamente, descartándose todos aquellos casos en los que la herramienta TWT (161) orientara hacia otro diagnóstico y/o que tras evaluación clínica y de pruebas complementarias disponibles persistiera sospecha de patología alternativa (23).

Gracias a la aplicación de la herramienta TWT, previamente validada en población equiparable a la empleada en el estudio (163) y los criterios clínicos referidos, pudimos seleccionar 77 casos entre 3-14 años (media 7.1+/-3.1 años) que cumplieran condiciones de MPI, lo que requirió la evaluación clínica de un médico especialista en rehabilitación infantil con experiencia. Como se adelantaba, por cuestiones de ética en la asistencia clínica, los pacientes menores de 3 años en el momento de la primera consulta que presentaban o referían dolor o cualquier otra sintomatología, fueron incluidos en el programa de tratamiento y en cualquier caso seguidos para valorar su posible inclusión posterior en estudio desde los 36m. De este modo se incorporaron todos los que presentaban una marcha de puntillas persistente más allá de los 3 años para el análisis, incluyéndose en los datos de la evaluación inicial los completados con encuestas posteriores en caso de duda.

Una vez aprobado por el Comité de Investigación del Hospital Infanta Sofía (anexo II), y consensuadas las normas de buena práctica clínica de investigación (180) (192), se fue completando el procesado de datos de forma anonimizada, siendo recogidos y protegidos

todos en una base de datos custodiada y codificada según normativa nacional y transnacional (212) (213) (214). En cada paciente se recogieron variables demográficas, la presencia de antecedentes familiares conocidos de marcha de puntillas en familiares de primer y segundo grado y los parámetros de la herramienta TWT como contenidos mínimos. Como variables para definir la gravedad del trastorno se recogió la presencia de acortamiento aquileo según el valor obtenido en los test de Lunge y/o Silfverskiöld obteniendo la medición de dorsiflexión pasiva con la rodilla flexionada y con la rodilla extendida (200) (86), así como el acortamiento de los flexores de rodilla mediante el ángulo poplíteo y/o lumbo-horizontal (167), y los flexores de cadera mediante el test de Thomas con pelvis controlada respectivamente (215). También evaluamos la presencia de diagnóstico previo o la sospecha de trastorno por déficit de atención asociado al trastorno de la marcha (216) con y sin hiperactividad basándonos en la anamnesis, la valoración del rendimiento escolar, el test de “Evaluación del trastorno por Déficit de Atención con Hiperactividad” (EDAH) (48) (49) y el test de Conners para padres (217) contrastando con el test de Tarea de Atención Sostenida en la Infancia (CSAT) (218) en caso de discordancia, clasificando con esta metodología el diagnóstico de TDAH como confirmado, sospechoso o ausente.

En la población que refirió dolor después de caminar o durante la marcha (referido por el paciente o sus padres) en la anamnesis del primer día de consulta (n=30), se añadió una encuesta telefónica adaptada para valorar como se había modificado el dolor musculoesquelético atribuido a la marcha de puntillas (94) (88).

La encuesta incluyó un estudio descriptivo de intensidad mediante la escala verbal analógica (EVA) equivalente a la escala NRS-11 de dolor. También se incluyó la localización categorizada del dolor (pie, tobillo, pantorrilla, rodilla, muslo o “no sabe precisar”), el absentismo escolar asociado y el tratamiento empleado en los menores con dolor por MPI. La encuesta se realizó a los 24 meses de la primera consulta, preguntando a los menores sólo por el dolor musculo-esquelético atribuido a la MPI. Respondieron 26 familias del total de 30 candidatos reclutados.

La edad fue crucial a la hora de valorar el dolor suponiendo un reto con dificultades en los más pequeños (91) (218), motivo por el cual se consideró importante recoger datos sobre la inasistencia del menor al colegio que se hubiera producido el dolor local asociado a la MPI con el objetivo de poder valorar la repercusión del dolor en la dimensión social del niño, en forma de absentismo escolar (96). La valoración de la intensidad del dolor se realizó por parte de los padres en función de las quejas cotidianas del niño en aquellos capaces de expresar verbalmente el dolor y según la expresión facial, postura, llanto o movimientos corporales (218) para el periodo en el que el niño no era capaz de expresarse verbalmente de forma adecuada. En aquellos con madurez suficiente, se combinó la información directa procedente del niño con la supervisión paterna (219) (220). Respecto al uso de tratamientos, se confirmó que los descritos por las familias se correspondían con los prescritos en la historia clínica.

Se realizó el análisis estadístico con la ayuda de la programación con R. Utilizamos la frecuencia absoluta y la frecuencia relativa para la descripción de variables categóricas y la mediana, el mínimo y el máximo para las variables cuantitativas. La relación entre variables categóricas se evaluó mediante Chi cuadrado y entre variables categóricas y cuantitativas mediante t de Student y análisis de la varianza. La relación entre variables categóricas y variables ordinales se estudió mediante el test de Wilcoxon. En los análisis multivariantes, se utilizó regresión logística en aquellos casos en que la variable dependiente era dicotómica (dolor) y modelos lineales mixtos en aquellos casos en los que la variable dependiente estaba repetida dentro del mismo individuo (ángulos de dorsiflexión del tobillo). Como método descriptivo multivariante para las variables dicotómicas de localización y tratamiento recogidas en la encuesta de dolor, se elaboraron “heatmaps” con dendrogramas calculados mediante agrupamiento jerárquico agregativo utilizando como medida de distancia, la distancia binaria y como criterio de enlace, el agrupamiento de máximo.

4.1.3. Descripción de las muestras de estudio

Una vez estudiados los 77 pacientes que cumplían todos los criterios de inclusión (58 varones -75,3%- y 19 mujeres -24,7%; sin diferencias significativas en la distribución de sexos). La muestra se describe más adelante pero adelantaremos que la mediana de edad fue 7,27 años (cuartil 1: 4.2 y cuartil 3 10.2 años:), globalmente y separados en tres grupos de edad que corresponden con las aproximaciones enteras de los terciles de edad de la muestra (tercil 1 = 6,12, tercil 2 = 9,31 años). De esos 77 pacientes, 9 (11,7%) fueron prematuros menores de 37 semanas y 3 (3,9%) necesitaron ingreso en una unidad de cuidados intensivos neonatales, 2 pacientes presentaron un retraso psicomotor leve y 1 de ellos inició la marcha independiente más allá de los 20 meses. Ninguno presentó alteraciones en el momento de evaluación ni durante su seguimiento para considerar la presencia de patología subyacente, 34 (44,2%) pacientes presentaban antecedentes familiares de primer o segundo grado de MPI con tendencia a surgir con más frecuencia en niños más jóvenes ($p=0.088$). No hubo diferencias significativas en antecedentes familiares según el sexo del menor.

4.1.4. Parámetros de estudio y análisis de datos

Se realizó medición específica de todos los parámetros incluidos en la herramienta TWT previamente definidos en la metodología. Prestamos especial atención a parámetros evolutivos sugerentes de gravedad como la medición del dolor mediante encuestas de localización, la severidad EVA-NRS II validada en población infantil (219), el absentismo causado por dolor, la dorsiflexión pasiva, la aparición de TDAH y todo el resto de los factores relacionados con los resultados descritos en la **tabla 8**.

4.1.5. Resultados

De la muestra inicial de 100 menores, uno se diagnosticó como PCI en consulta mediante historia y exploración. La herramienta TWT cribó 77 niños de la muestra (rango 2,5-14 y media 7.1+/-3.1 años) con criterios de MPI, y así, una vez descartado el resto, se constituyó la muestra de MPI con el 76.92% de varones. Se describió considerando resultados relevantes aquellos con intervalo de confianza > 90%. (58 varones -75,3%- y 19 mujeres -24,7%; sin diferencias significativas en la distribución de sexos). Se encontró una edad mediana de 7,27 años (cuartil 1: 4.2 y cuartil 3 10.2 años). Se separaron en tres grupos de edad que corresponden con las aproximaciones enteras de los terciles de edad de la muestra (tercil 1 = 6,12, tercil 2 = 9,31 años). De esos 77 pacientes, 9 (11,7%) fueron prematuros menores de 37 semanas y 3 (3,9%) necesitaron ingreso en una unidad de cuidados intensivos neonatales. 2 pacientes presentaron un retraso psicomotor leve y 1 de ellos inició la marcha independiente más allá de los 20 meses. Ninguno de ellos presentaba alteraciones en el momento de evaluación, ni durante su seguimiento para descartar la existencia de una enfermedad subyacente. 34 (44,2%) pacientes presentaban antecedentes familiares de primer o segundo grado de MPI con una tendencia a aparecer con más frecuencia en los niños más jóvenes ($p=0.088$). No existieron diferencias significativas en los antecedentes familiares entre los menores por sexo. Sí que fue relevante la presencia de dolor relacionado con acortamiento aquileo, acortamiento de músculos isquiotibiales, presencia de TDAH, uso del tacatá, peso al nacer (PRN), y antecedentes familiares de MPI. Hubo semiología de dolor en un 38.46%, causa más frecuente de consulta.

En la **tabla 10**, mostrada en la página siguiente, podemos apreciar las características de nuestra muestra por anamnesis y exploración clínica según edad del paciente.

De nuestra muestra de pacientes con MPI, siete (9,1%) cumplían criterios de diagnóstico de trastorno por déficit de atención con o sin hiperactividad, mientras que otros 16 pacientes (20,8%) presentaban sospecha de este trastorno comórbido sin presentar todos los criterios DSM-5 pero mostrando rasgos y/o sospecha clínica del especialista remitente, del evaluador y/o historia familiar compatible. El nivel de la muestra no permitió encontrar relación clara entre el diagnóstico de TDAH y el de MPI como tampoco correlación con la edad de evaluación ($p=0.683$). Se observó una cierta asociación entre la relación de aparición de la MPI y el diagnóstico definitivo de TDAH, concretamente en los varones, los casos con certeza diagnóstica de TDAH (7/58 niños -12,1%- vs 0/19 niñas) y aquellos con sospecha (13/58 -22,4%- vs 3/19 niñas -15,8%), fueron más frecuentes que en mujeres. Pese al hallazgo orientativo, la diferencia encontrada a favor de los varones no tuvo significación estadística ($p=0.191$).

Tabla 10. Características de anamnesis y exploración según la edad

	Menores de 6 años (n=24)	6 - 9 años (n=22)	Mayores de 9 años (n=31)	Total (n=77)
Mujeres. Frecuencia (%)	5 (20.8%)	4 (18.2%)	10 (32.3%)	19 (24.7%)
Peso al nacer menor de 2500 g. Frecuencia (%)	4 (16.7%)	4 (18.2%)	3 (9.7%)	11 (14.3%)
Edad gestacional menor de 37 semanas Frecuencia (%)	3 (12.5%)	3 (13.6%)	3 (9.7%)	9 (11.7%)
Ingreso en UCI neonatal. Frecuencia (%)	1 (4.2%)	2 (9.1%)	0 (0%)	3 (3.9%)
Adquisición de marcha posterior a los 20 meses sin otros hallazgos. Frecuencia (%)	0 (0%)	1 (4.5%)	0 (0%)	1 (1.3%)
Retraso del neurodesarrollo sin alteración significativa en el momento de la evaluación, Frecuencia (%)	1 (4.2%)	1 (4.5%)	0 (0%)	2 (2.6%)
Antecedentes familiares en 1° o 2° grado conocidos, Frecuencia (%)	14 (58.3%)	11 (50.0%)	9 (29.0%)	34 (44.2%)
Sospecha de TDAH. Frecuencia (%)	5 (20.8%)	6 (27.3%)	5 (16.1%)	16 (20.8%)
Certeza diagnóstica de TDAH. Frecuencia (%)	1 (4.2%)	3 (13.6%)	3 (9.7%)	7 (9.1%)
Acortamiento aquileo. Frecuencia (%)	10 (41.7%)	7 (31.8%)	12 (38.7%)	29 (37.7%)
Acortamiento de flexores de rodilla. Frecuencia (%)	1 (4.2%)	2 (9.1%)	4 (12.9%)	7 (9.1%)
Acortamiento de flexores de cadera. (frecuencia y %)	1 (4.2%)	0 (0%)	1 (3.2%)	2 (2.6%)
Dolor en miembros inferiores (frecuencia y %)	4 (16.7%)	8 (36.4%)	18 (58.1%)	30 (39.0%)
Dorsiflexión derecha con rodilla en extensión. (mediana [min, max])	15.0 [-10.0, 40.0]	10.0 [0, 25.0]	10.0 [0, 30.0]	10.0 [-10.0, 40.0]
Dorsiflexión izquierda con rodilla en extensión. (mediana [min, max])	15.0 [-10.0, 40.0]	10.0 [0, 25.0]	10.0 [0, 30.0]	10.0 [-10.0, 40.0]
Dorsiflexión derecha con rodilla en flexión. (mediana [min, max])	20.0 [0, 40.0]	15.0 [5.00, 28.0]	15.0 [-10.0, 20.0]	15.0 [-10.0, 40.0]
Dorsiflexión izquierda con rodilla en flexión. (mediana [min, max])	20.0 [0, 40.0]	15.0 [5.00, 25.0]	15.0 [-10.0, 25.0]	15.0 [-10.0, 40.0]

4.1.5.1. Principales hallazgos a nivel ortopédico

Dentro del estudio ortopédico sistematizado incluyendo los test de Silfverskiöld y lumbo-horizontal, 29 (37,7%), 7 (9,1%) y 2 (2,6%) pacientes presentaron acortamiento aquileo, de flexores de rodilla y de flexores de las caderas. Ya que 34 de los 77 pacientes (44,2%) presentaron algún acortamiento muscular, se comparó el hallazgo con sus características demográficas sin encontrar que dichas alteraciones mostraran relación alguna con la edad ni con el sexo.

Al evaluar la relación entre el acortamiento aquileo y de isquiotibiales, se pudo observar que la medición de retracciones para estos últimos sólo asociaba acortamiento aquileo en 3 de los 7 pacientes (42,8%) y que, en presencia de acortamiento aquileo, el acortamiento de isquiotibiales se observó en 3 de los 29 casos (10,3%). Otros parámetros como desviaciones de columna, fuerza en el test de Daniels o huella plantar no arrojaron valores que permitieran conclusión alguna.

4.1.5.1.1. Acortamiento de los flexores plantares de tobillo

En la muestra estudiada, 29 de los 77 pacientes presentaron *acortamiento* de los músculos flexores de tobillo (tríceps sural / tendón aquileo: 37,7%) siendo la media de flexión dorsal pasiva con rodilla extendida de 10,71 [8,50] en tobillo derecho y del tobillo izquierdo de 10,86 ± 8,45 seis de los 23 pacientes con acortamiento aquileo (24%) fueron unilaterales (sólo un miembro indistintamente) los restantes 19 (76%) presentaron acortamiento aquileo bilateral. La media ± SD de flexión dorsal pasiva con rodilla flexionada fue para tobillo derecho de 15,38 ± 8,19 y para el izquierdo de 15,74 ± 7,78. En 5 de los 22 pacientes en los cuales se conocía este dato (22,73%) el acortamiento aquileo fue a expensas del gastrocnemio, es decir, que presentaron limitación en la dorsiflexión con rodilla extendida que, sin embargo, se corregía con flexión de la rodilla a 90°. Los restantes 17 (77,27%) presentaron limitación de la dorsiflexión tanto con la rodilla extendida como flexionada, es decir que el acortamiento aquileo era responsabilidad de la afectación del tríceps sural por completo incluyendo gemelos y sóleo.

ACORTAMIENTO DE LOS FLEXORES DE TOBILLO EN CASOS DE DOLOR EN LA MPI

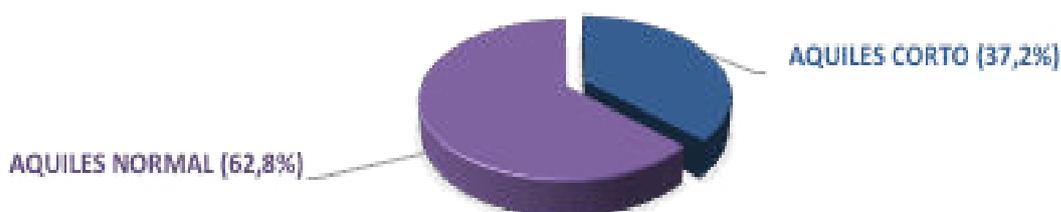


Figura 22. Porcentaje de acortamiento de los flexores plantares en los menores con MPI que presentaban dolor en la primera consulta.

4.1.5.1.2. Acortamiento de los flexores de rodilla

De igual forma, en la muestra estudiada, 7 de 77 pacientes presentaron acortamiento de los isquiotibiales (9.1%), con una media [RIC] de ángulo poplíteo de $15,00 \pm 14,16$ en el miembro inferior derecho y una media \pm SD de $13,16 \pm 14,16$ en el miembro inferior izquierdo. En pacientes que presentaron acortamiento aquileo, la media del ángulo lumbo-horizontal fue de $35,80 \pm 8,14$ (tabla 3). Nuestro estudio observó acortamiento de flexores de rodilla en 10,8% dato inferior al de la bibliografía (15) (23).

4.1.5.2. Factores que influyen en la dorsiflexión pasiva del tobillo

Se emplearon diferentes modelos para estudiar los factores que se relacionan con la dorsiflexión del tobillo tanto con la rodilla extendida como con la rodilla flexionada. Partimos del modelo más sencillo que incluía únicamente la edad como co-variable y a partir de allí, estudiamos la influencia de otras variables. Según el modelo que incluía únicamente la edad, tanto el ángulo de dorsiflexión máxima con rodilla en extensión (disminución de 0,67 grados por año de edad, IC95% 0,04-1,3 grados/año, $p=0,035$) como con rodilla en flexión (disminución de 0,96 grados/año, IC95% 0,38-1,5 grados/año, $p < 0,001$). En la figura 23, se muestra esta interesante relación. Controlando por edad, no hallamos diferencias significativas relacionadas con el sexo, la presencia de antecedentes familiares o TDAH confirmado o sospechado co-mórbido.

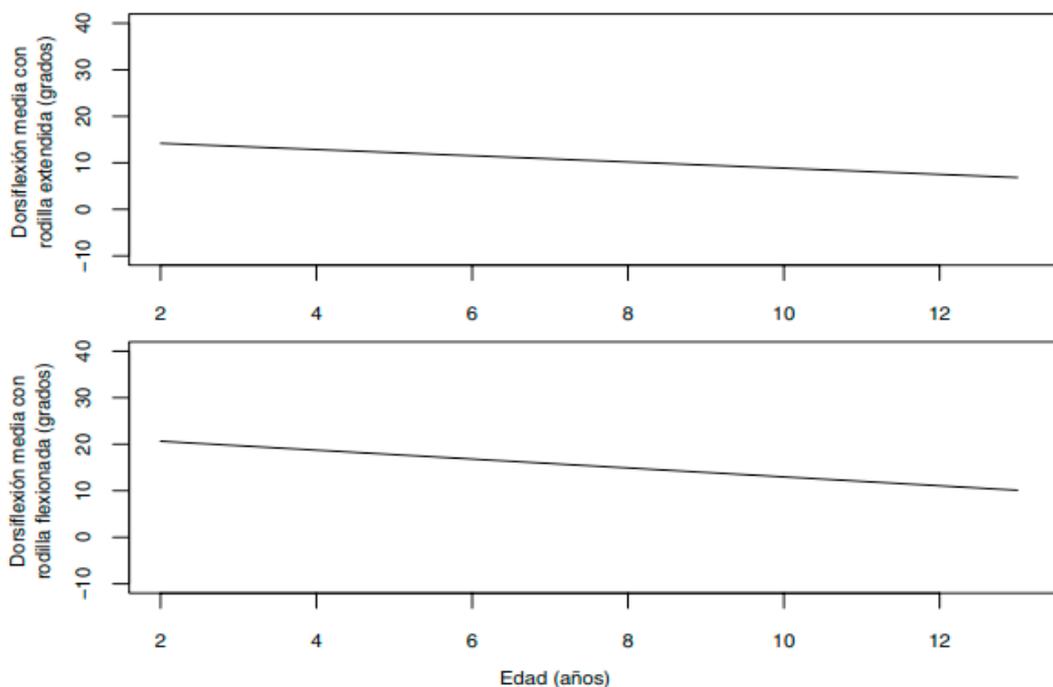


Figura 23. Dorsiflexión media con rodilla extendida y flexionada según la edad,

La figura representa cómo varía la dorsiflexión media con rodilla extendida (por acortamiento del tríceps sural) y flexionada (por acortamiento del sóleo) observado en la primera consulta según la edad del menor, en la muestra de MPI.

4.1.5.3. Dolor encontrado en los pacientes con MPI

Como adelantamos, el **dolor** era motivo frecuente de consulta en MPI. Tras cribado inicial en la muestra de MPI, el 38,96% de los 77 niños consultaron por dolor ($n=30$). Para conocer su relevancia clínica en la MPI, estudiamos la intensidad, localización y tratamiento aplicados en el grupo con dolor mediante una encuesta específica. Al igual que la TWT, la encuesta telefónica se comportó como una herramienta válida y útil para recoger información, ayudando a tomar decisiones terapéuticas (163) (94). Los valores de dorsiflexión con la rodilla en extensión o en flexión no mostraron diferencias entre pacientes con y sin dolor ($p = 0.087$ y $p = 0.954$ respectivamente).

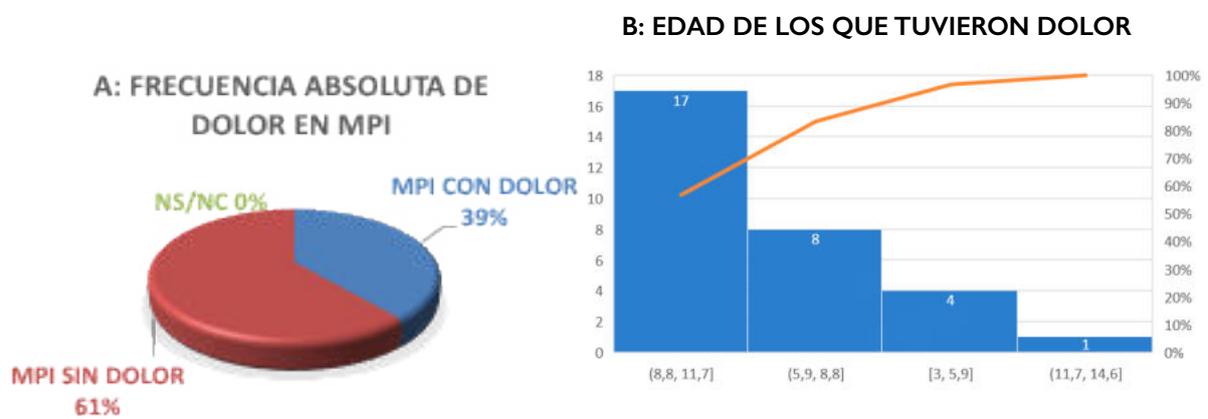


Figura 24. Frecuencia absoluta (A) y edad de aparición (B) del dolor en la MPI.

La frecuencia de aparición del dolor y la edad a la que se describía con más frecuencia pueden verse en la **figura 24** mientras que la **tabla II**, muestra las características de las cohortes de pacientes con MPI en los que se refirió la presencia de dolor en algún momento evolutivo respecto las que nunca lo refirieron. El dolor referido en los pacientes o en sus familias aumentó significativamente con la edad de evaluación (OR = 1.27 intervalo de confianza 95% -IC95%- 1,07-1,50, $p = 0,007$). Controlando por la edad, no se consiguieron demostrar diferencias por sexo ($p=0,109$), presencia de acortamiento aquileo ($p=0,231$), diagnóstico seguro o sospecha de TDAH ($p=0,286$) o presencia de antecedentes familiares ($p=0,156$).

Tabla 11. Características de los pacientes con y sin dolor de nuestra muestra.

	MPI sin dolor (n=30)	MPI con dolor (n=47)	Total, MPI.
Sexo. [Frecuencia (%)]			p = 0,446
Mujeres	14 (29,8%)	5 (16,7%)	19 (24,7%)
Varones	33 (70,2%)	25 (83,3%)	58 (75,3%)
Edad.			p= 0,002
Mediana [Mín - Máx]	6,24 [2,04, 13,2]	9,28 [3,02, 12,3]	7,28 [2,04, 13,2]
Antecedentes familiares. [Frecuencia (%)]	25 (53,2%)	9 (30,0%)	p = 0,099 34 (44,2%)
Acortamiento aquileo. [Frecuencia (%)]	15 (31,9%)	14 (46,7%)	p = 0,288 29 (37,7%)
TDAH. [Frecuencia (%)]			p =0,601
Diagnóstico confirmado	5 (10,6%)	2 (6,7%)	7 (9,1%)
Diagnóstico de sospecha	11 (23,4%)	5 (16,7%)	16 (20,8%)

En la **tabla 12**, se señalan las características del dolor en la evaluación a largo plazo de los pacientes, refiriéndose a un máximo de 2,5 años desde la primera consulta.

Tabla 12. Resumen de las características de pacientes con MPI del estudio.

Variable	Valor	
Género (n, %)		
Femenino	18	(23.4 %)
Masculino	59	(76.6 %)
Edad (media ± SD)	7.1	± 3.1
Acortamiento aquileo (n, %)		
Sí	29	(37.7 %)
No	48	(62.3 %)
Acortamiento de isquiotibiales (n, %)		
Sí	7	(9.1 %)
No	70	(90.9 %)
Presencia de TDAH (n, %)		
Sí	7	(9.1 %)
No	54	(70.1 %)
Sospecha	16	(20.8 %)
Presencia de dolor (n, %)		
Sí	30	(39.0 %)
No	47	(61.0 %)
Uso del tacatá (n, %) *		
Sí	9	(36.0 %)
No	16	(64.0 %)

* Dato conocido únicamente en 25 de los 77 pacientes por sesgo “memoria”

Tabla 13. Características del dolor evaluado a largo plazo

	Frecuencia (%) n=26	Relación con EVA. Valor p	Relación con absentismo Frecuencia (%) en grupo con absentismo. Valor p
No tiene recuerdo de dolor.	6 (23,1%)	---	---
Absentismo escolar.	11 (42,3%)	0,004	---
Localización.			
-Pie.	7 (26,9%)	0,378	4 (36,4%) p=0,630
-Tobillo.	9 (34,6%)	0,084	5 (45,5%) p=0,563
-Pantorrilla.	11 (42,3%)	0,091	5 (45,5%) p=1
-Rodilla.	4 (15,4%)	0,159	3 (27,3%) p=0,374
-Muslo.	1 (3,8%)	0,456	1 (9,1%) p=0,874
Tratamientos recibidos.			
-Ibuprofeno.	18 (69,2%)	0,001	10 (90,9%) p=0,105
-Paracetamol.	5 (19,2%)	0,059	2 (18,2%) p=1
-Metamizol.	1 (3,8%)	0,104	1 (9,1%) p=0,874
-Fisioterapia.	22 (84,6%)	0,828	9 (81,8%) p=1
-Órtesis.	7 (26,9%)	0,094	7 (63,6%) p=1
-Toxina botulínica.	10 (38,5%)	0,180	7 (63,6%) p=0,064
-Cirugía.	3 (11,5%)	0,073	3 (27,3%) p=0,12

Dado el tiempo transcurrido hasta evaluación, las familias de 6 pacientes (23,1%) no recordaban que dolor que hubiera estado relacionado con la MPI de sus hijos. Entre los que sí recordaban el dolor, la escala EVA mostró una gran variabilidad siendo destacable un número de pacientes con niveles de dolor moderado y moderado-alto (34) a sabiendas que según la bibliografía puede existir un sesgo de atenuación por efecto memoria que tiende a minimizar el impacto referido. La intensidad referida del dolor puede apreciarse en la **Figura 25**.

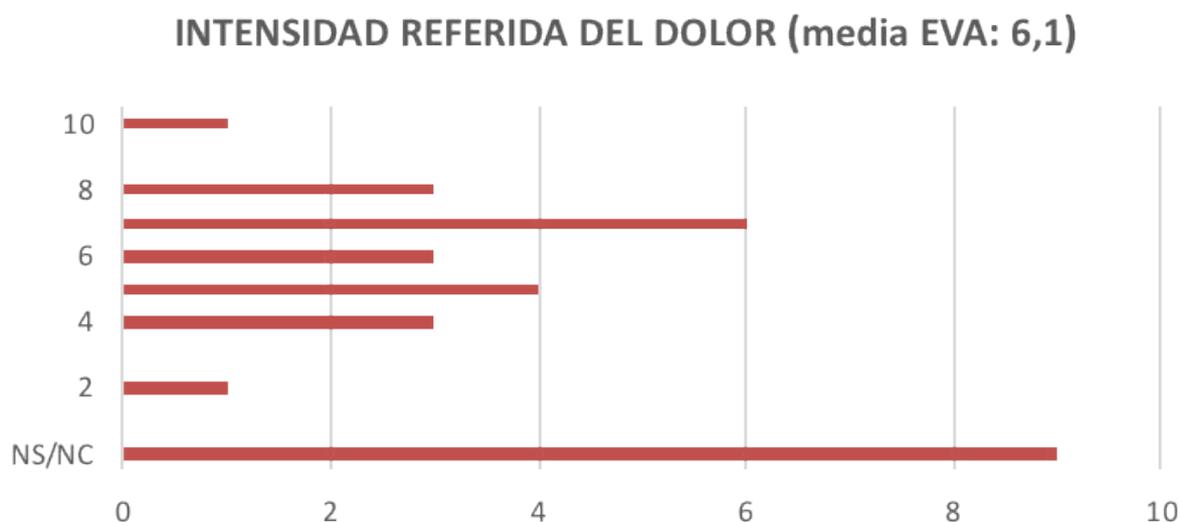


Figura 25. Intensidad referida del dolor por los menores con MPI, referida en las encuestas telefónicas y/o en las consultas (EVA media).

Respecto a la repercusión funcional, 11 niños con dolor asociado a MPI (42,3%) referían absentismo escolar relacionado, mostrando valores de EVA significativamente superiores (mediana: 7, cuartil I: 6 y cuartil 3: 8) respecto a no absentistas (mediana 4; cuartil I: 0 y cuartil 3: 5; $p = 0,004$) como vemos en la **Figura 26A**.

La localización más frecuente de dolor fue en la pantorrilla (11/26; 42,3%), en el tobillo (9/26; 34,6%) y en el pie (7/26; 26,9%) siendo frecuentes tanto combinaciones de localizaciones como la presencia de dolor aislado en una región concreta tal y como se muestra en la **figura 26B**.

Los patrones de distribución del dolor por localización no se relacionaron con la intensidad del dolor ya sea medida mediante EVA referida como en impacto por absentismo escolar (34) (35), tal y como se muestra en la **figura 26C**.

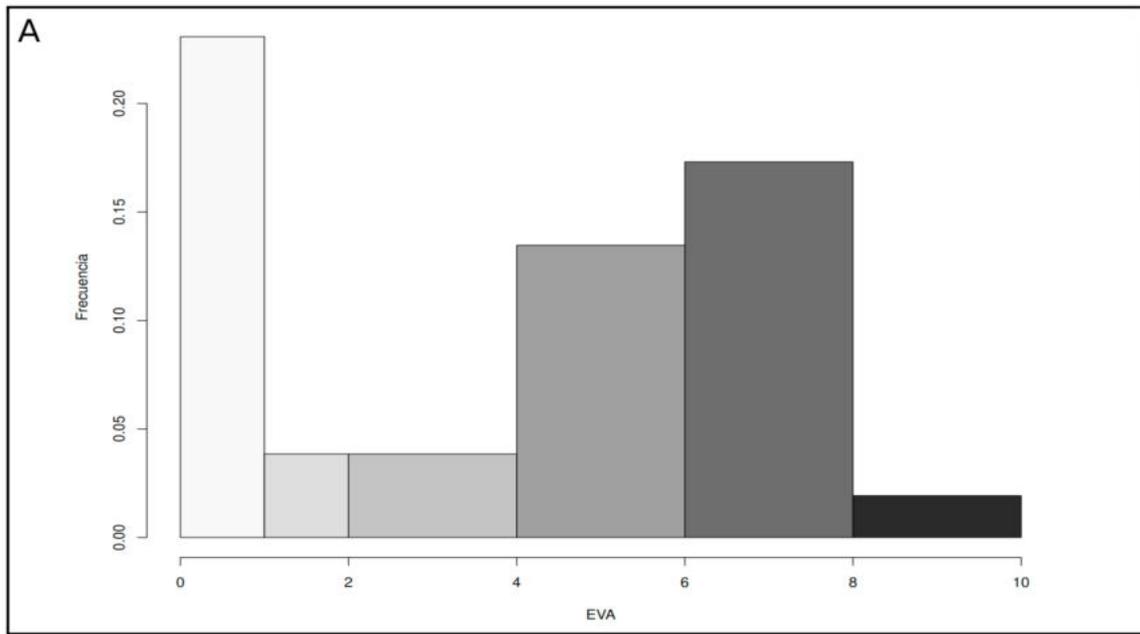


Figura 26A. Histograma de dolor (EVA) referido por los participantes en la encuesta.

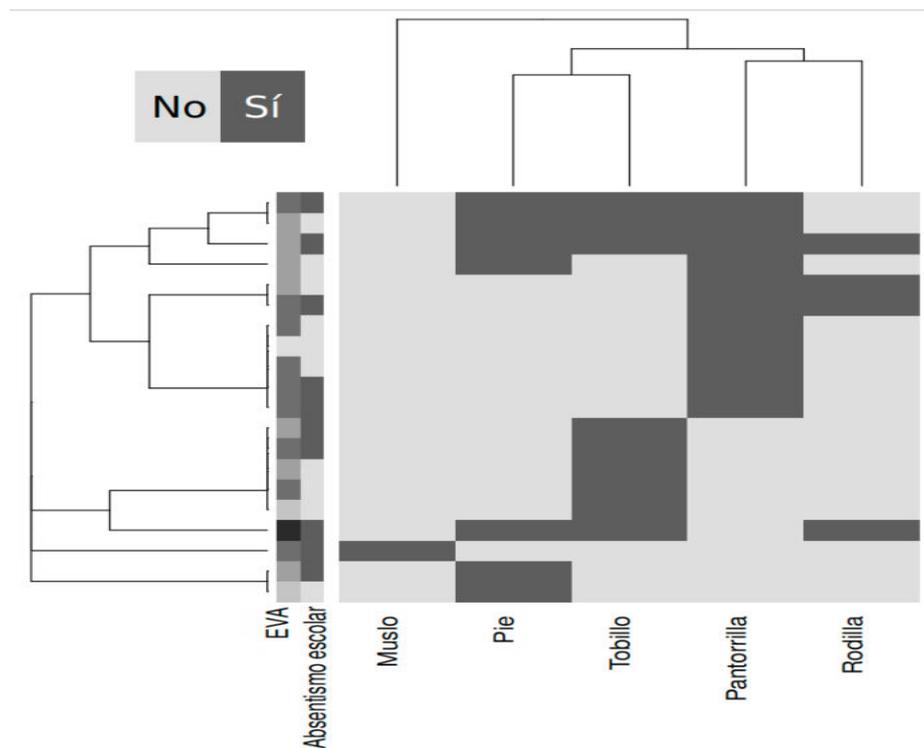


Figura 26B. Heatmap de la distribución de dolor en los pacientes que referían presencia de este en la encuesta telefónica.

En columnas se representan distintas zonas del cuerpo, en las filas los pacientes, ambos ordenados en por agrupamiento jerárquico. Cada casilla representa el valor por paciente para cada localización. La EVA y el absentismo escolar para cada paciente se muestran a la izquierda.

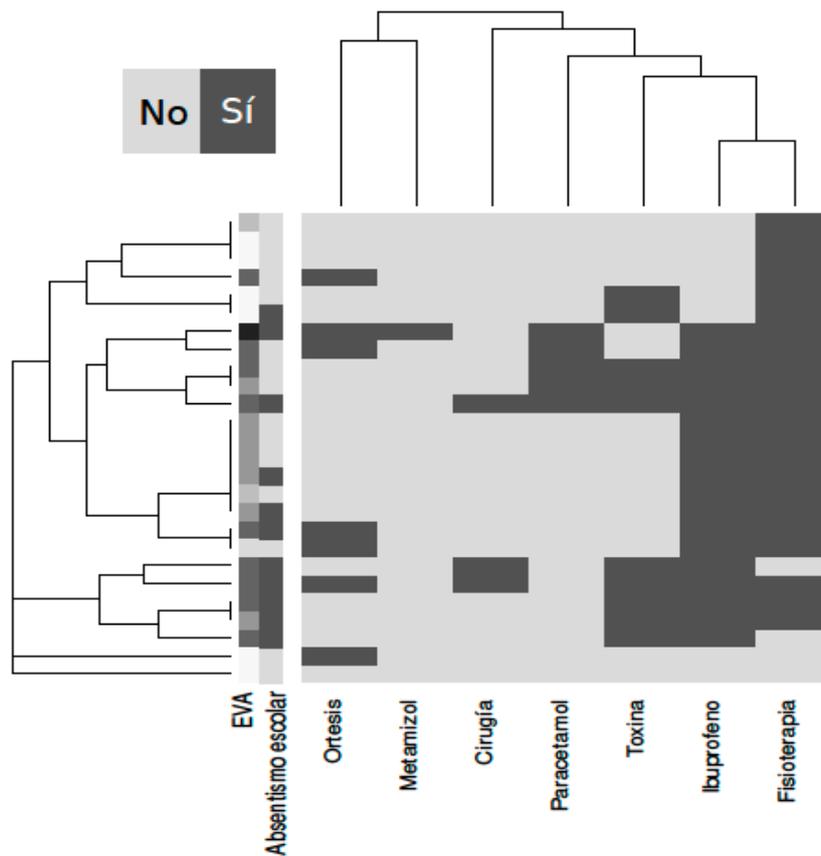


Figura 26C. Heatmap para los patrones de tratamiento de los pacientes. Muslo - Pie – Tobillo – Pantorrilla – Rodilla.

Como se muestra en las **figuras 26A, 26B y 26C**, el “Heatmap” o “mapa de calor” es un tipo de representación gráfica que relaciona variables entre sí, mostrándolas en color, como si de un sistema de infrarrojos se tratara. Podemos ver las zonas más “calientes” como más relacionadas entre sí y las zonas “frías” las que menos, mostrando intuitivamente las frecuencias equiparando conceptos de “calor y color”, así puntos igual de frecuentes se acercan más entre ellos mostrándose en colores cálidos (SI) y los que se alejan se ven en colores fríos (NO).

En cuanto el uso de diferentes terapias, destaca el uso de la fisioterapia, de los analgésicos orales y de la toxina botulínica. No existe un claro patrón en las terapias recibidas. Los pacientes con mayor intensidad de dolor según la escala EVA tomaron más ibuprofeno (EVA mediana de 6,5 en el caso de ingesta vs. EVA mediana de 0 en el caso de no ingesta) y tendieron a utilizar más paracetamol.

4.1.6. Discusión

En este trabajo, hemos estudiado la relación de la edad con la aparición de dolor y con la pérdida de rango de dorsiflexión en los pacientes con marcha idiopática de puntillas que son evaluados en una consulta de rehabilitación Infantil de un hospital público de segundo escalón. También hemos analizado la evolución de los pacientes que presentaban dolor, destacando el empleo de múltiples terapias, la ingesta de fármacos analgésicos-antiinflamatorios orales y la interferencia del dolor de la MPI en la vida diaria de los pacientes afectos, justificando la profundización en este tipo de líneas de estudio desde la perspectiva social, asistencial y científica (91). También constituye un hallazgo importante la presencia de alta prevalencia de TDAH en nuestra población.

Nuestro estudio del dolor podría parecer “singular” en cuanto su valoración específica dentro de las características clínicas de la MPI, pero revisando la bibliografía, se alinea con las últimas recomendaciones de los grupos de investigación (91) arrojando luz sobre aspectos menos estudiados como su frecuencia y ubicación anatómica, el absentismo causado y las técnicas analgésicas empleadas para su control. En línea con ciertas hipótesis etiopatogénicas, la distorsión del procesado sensorial que conlleva el dolor crónico podría sugerir la presencia de mecanismos compartidos dentro de la etiología multifactorial de los trastornos del neurodesarrollo. También medimos la relación entre TDAH y MPI, descrita en el sentido contrario en la bibliografía (48) (221) describiendo la “presencia de TDAH en la MPI”, a sabiendas del valor descrito de “MPI en el TDAH” (45). Aunque la presencia de TDAH no se relacionó con la aparición de dolor ni con menores rangos de dorsiflexión de forma independiente a la edad, su presencia conjunta rondó el tercio de pacientes. Los resultados de nuestro estudio revelan que la MPI no sólo asocia dolor en algo más de un tercio de casos sino que este es severo y puede interferir en la vida diaria de los menores. Ha sido revelador descubrir la frecuencia del dolor en el acortamiento aquileo pues aunque adelantada por otros autores (222) no se había precisado de forma tan detallada en MPI en pacientes de nuestro entorno (223). Verificamos en fin que el dolor en MPI coexiste con factores como la presencia de acortamientos musculares y la alta frecuencia de TDAH comórbido, sugiriendo que la marcha de puntas puede ser un indicador precoz de TDAH como ya se ha sugerido en otras patologías cognitivas de la infancia (221). Es por ello que proponemos desterrar para siempre la idea de abordar la MPI como una “patología menor”, viendo tanto su repercusión funcional como la asociación con determinadas comorbilidades, al margen de que pueda (o no) desaparecer espontáneamente (224).

La edad fue un factor determinante para que el paciente refiriera dolor musculoesquelético al tiempo que otros posibles factores no resultaron tan significativos. Existen varios motivos por los cuales la edad podría tener esta influencia. Por un lado, los pacientes con mayor edad pueden expresar y procesar con más facilidad el dolor. Por otro, los pacientes mayores también tienen menor ángulo de dorsiflexión y han estado expuestos durante mayor tiempo

al patrón cinemático des-adaptativo de la marcha de puntillas. Como explicación alternativa, también podría ser que los niños detectados con mayor edad supusieran un grupo etiológico y fisiopatológico diferente a los niños detectados de manera más precoz. Nuestros hallazgos y las dudas surgidas sobre la fisiopatología del dolor en la MPI soportan la importancia de evaluar siempre la sintomatología dolorosa de modo longitudinal en cualquier estudio prospectivo que permita conocer la historia natural del dolor en los pacientes con MPI. El tratamiento del dolor en la MPI con fármacos sugiere estudios específicos que validen la eficacia de cada uno de ellos.

En cuanto a los acortamientos musculares, es interesante observar la ausencia de asociación entre los acortamientos musculares aquileos y de isquiotibiales. Este resultado se posiciona contra nuestras expectativas iniciales que esperaban la presencia de acortamientos aquileos con más frecuencia en presencia de acortamiento de los flexores de rodilla.

Podría considerarse una fortaleza del método de estudio, la inclusión de pacientes mediante la escala TWT y en aquellos con datos positivos, la evaluación por parte de varios especialistas (neuropediatra y rehabilitador infantil) a la hora de objetivar la ausencia de repercusión de estos síntomas en el momento de la redacción de la historia clínica. De hecho, de los 100 pacientes derivados inicialmente por la alteración de la marcha, se excluyeron un 23% por el hallazgo de causas alternativas que pudieron tipificarse. Consideramos que la evaluación sistemática de los pacientes mediante escalas validadas y el examen por profesionales expertos es importante en la MPI para la definición de muestras válidas y la mejora en la precisión diagnóstica.

Como limitaciones, destacar los posibles sesgos de selección de los pacientes por cuestiones de organización sanitaria, ya que el acceso a la consulta de rehabilitación infantil se realizó generalmente a través de la visita previa en atención especializada para lo cual son los pediatras del equipo de atención primaria los que remiten a especialistas hospitalarios que a su vez valoran si remiten o no a dicha consulta. De hecho, consideramos que la población con MPI en la zona de influencia del centro donde se realizó el estudio, se podría estimar en más de 1000 menores en el período estudiado mientras que la evaluación en rehabilitación ha sido de apenas un centenar de pacientes. El hecho de haber concentrado el estudio en la consulta de rehabilitación puede limitar la validez externa de nuestros datos, sobre todo si los aplicamos a población no seleccionada en atención primaria. Otro factor es la naturaleza transversal de nuestro estudio que limita nuestra capacidad para estudiar factores como la aparición del dolor asociado con la velocidad de crecimiento y la potencial pérdida evolutiva fisiológica del rango de dorsiflexión.

4.1.7. Conclusiones del objetivo 1

La metodología empleada la consideramos robusta y aplicable en la clínica. La herramienta TWT se mostró eficiente y capaz de orientar diagnóstico en 22% de casos reforzada con exploración sistematizada, y colaborando a definir mejor la clínica de la MPI por tanto.

Para el desarrollo de la tesis, este primer objetivo nos ha permitido determinar que la muestra de pacientes con MPI o **cohorte I** a partir de ahora, es como poco representativa de MPI, simétrica en factores como edad o presencia de antecedentes familiares (89) (23) y por tanto potencial diana de intervenciones específicas como el protocolo terapéutico q validar y estudio con AIM, a trabajar en siguientes objetivos.

Hemos encontrado dolor con repercusión funcional en la MPI con frecuencia, confirmado la asociación del TDAH en pacientes con MPI y definido algunas de las características clínicas en MPI incluyendo el porcentaje de acortamiento aquíleo.

4.2 Objetivo 2: Generación de un algoritmo de manejo clínico, protocolo de fisioterapia estandarizado y la evaluación clínica de resultados de su aplicación. Validación del mismo en nuestro entorno

4.2.1. Justificación del objetivo

Tras la descripción sistemática de la muestra de MPI empleada, debemos enfrentarnos a su manejo clínico bajo criterios de medicina basada en la evidencia. Para ello elaboraremos un algoritmo terapéutico adecuado a su empleo en nuestro medio: el servicio de rehabilitación del Hospital Infanta Sofía, hospital público de segundo nivel de la sanidad madrileña de entre 300 y 400 camas, ubicado en San Sebastián de los reyes y encargado de la atención de casi 80.000 menores de 18 años.

Para cumplir este objetivo, el algoritmo se diseña para ser ejecutado y validado cumpliendo los criterios de reproducibilidad y ética en la práctica clínica, de manera que respete las peculiaridades de asistencia como una patología más en la consulta de rehabilitación infantil, aplicándose a todos los pacientes entren o no en el estudio y teniendo como criterio siempre la excelencia en el tratamiento de todos los pacientes afectados de MPI, independientemente que entren o no en el estudio.

Puesto que la bibliografía es profusa en recomendar que el principal abordaje terapéutico de la MPI sea la fisioterapia basada en estiramientos, fortalecimiento muscular, reeducación de la marcha o entrenamiento del control motor y el equilibrio, se elaboró un programa específico consensuado entre terapeutas con dichos objetivos, tras revisión bibliográfica correspondiente. Junto a ese

abordaje no se excluyó la posibilidad de intervenciones personalizadas añadidas como órtesis, plantillas, toxina botulínica o cirugía según lo pudiera requerir cada caso. Todas las recomendaciones se hicieron de manera individualizada según los síntomas clínicos (113) (68) siendo el protocolo de fisioterapia el mismo en todos los pacientes. Pese a alguna controversia sobre opciones de tratamiento como la inyección de TxBA (128) (225) (226), la combinación de fisioterapia como técnica aislada o sinérgica a la TxBA fue empleada en pacientes con dolor y/o limitación de movilidad tanto por los resultados de series previas como por permitir el doble bloqueo para la placa motora del músculo hiperactivo además de coadyuvante en el bloqueo sensitivo parcial focal. Se valoró la posibilidad de uso de ejercicios domiciliarios de forma sistemática, mientras que el uso de calzado ortopédico específico y/o diferentes tipos de órtesis, fue individualizado según el caso, resultando su uso anecdótico o inexistente en nuestro estudio al no precisarse en prácticamente ningún caso. Siempre se emplearon técnicas de la cartera de servicios del centro sin coste alguno para el paciente o su familia, respetando los criterios de ética en la asistencia clínica más extendidos (97) (133) (214) (192). Se siguieron las recomendaciones para utilizar sistemas de evaluación y medidas de resultado consistentes y reproducibles en entornos clínicos y/o de laboratorio, manteniéndose períodos de seguimiento nunca inferiores a 6 meses, alcanzando varios años en aquellos casos con dolor o clínica severa, tratando de determinar el impacto a largo plazo de cualquier intervención realizada (113).

La ausencia de un abordaje sistemático del paciente dificulta significativamente la gestión clínica y la investigación eficaces, siendo un objetivo paralelo la extensión de este tipo de estrategias a la práctica clínica habitual (150). La aplicación de un protocolo estandarizado y asequible para el manejo de niños con MPI diseñados para ganar movilidad en dorsiflexión (227) tratando de mejorar el patrón clínico de MPI (140) no siempre está estandarizado en los servicios de rehabilitación de nuestra red sanitaria y su implementación en servicios con asistencia masificada con numerosos profesionales exigió continua supervisión para respetar protocolos.

4.2.2. Pacientes y métodos

4.2.2.1. Descripción del flujo de pacientes entre niveles asistenciales (figura 27)

Los pacientes que caminaban de puntillas fueron derivados a rehabilitación del HUIS desde atención primaria por el pediatra encargado de la salud del menor en la comunidad o desde el hospital por un cirujano ortopédico, neurólogo infantil o cualquier pediatra especializado que detectara **problema clínico relevante**.

La evaluación inicial de la TWT la hizo un rehabilitador pediátrico con experiencia que aplicaba sistemáticamente la herramienta junto a una evaluación neuro-ortopédica sistematizada como parte del protocolo de exploración, integrado en el algoritmo diagnóstico y terapéutico para MPI (Figura 27) diseñado para ampliar la capacidad discriminativa de patología oculta, pues el diagnóstico de MPI es diferencial y según los hallazgos podía incluir más pruebas para excluir otros trastornos según el caso.

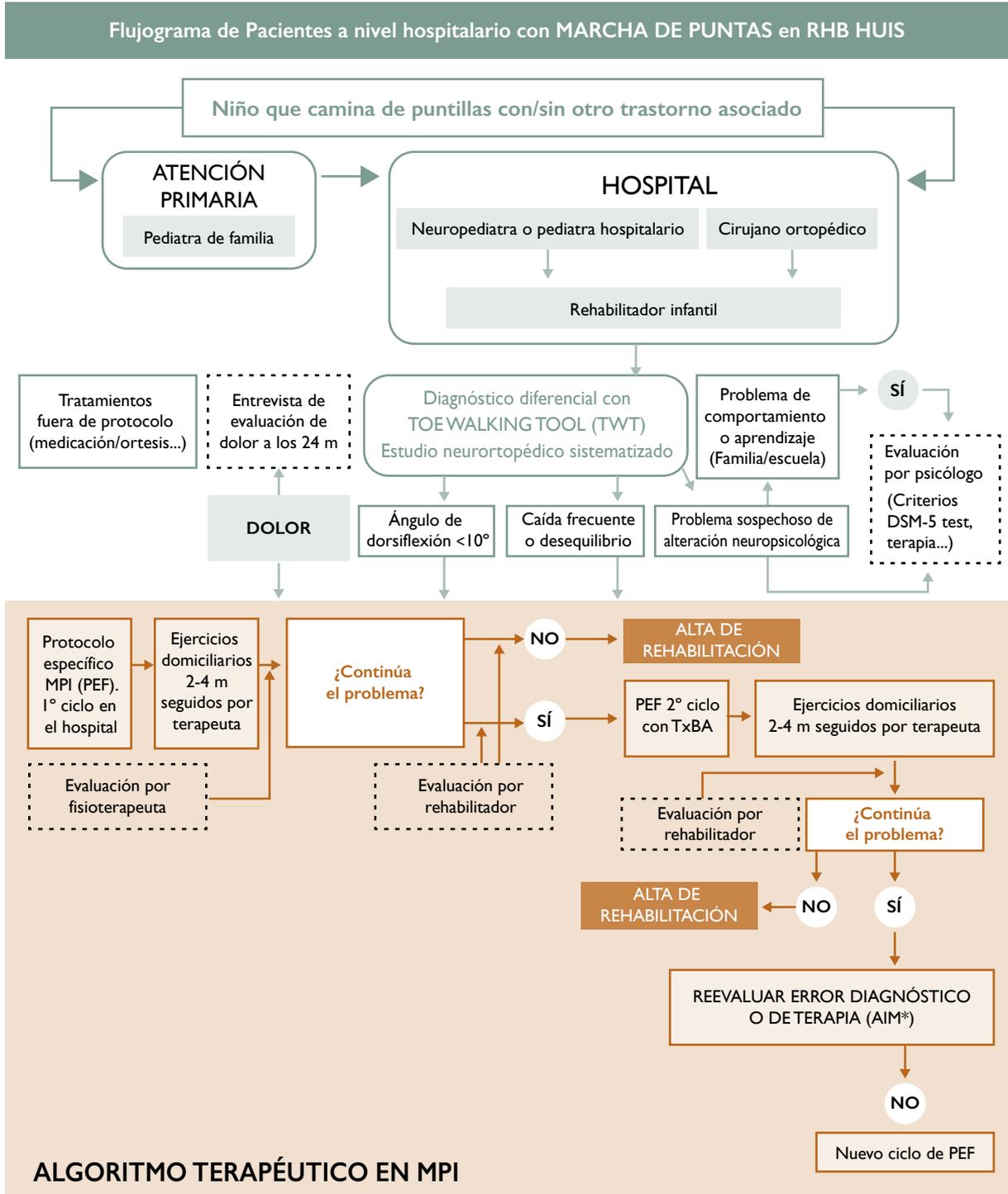


Figura 27. Algoritmo diagnóstico y terapéutico de los pacientes con marcha de puntas (vía clínica) que describe el flujo de pacientes.

4.2.2.2. Diseño y validación del protocolo terapéutico empleado en MPI

Las recomendaciones de la última revisión Cochrane sobre intervenciones en la MPI (113) indicaban la necesidad de realizar investigación de alta calidad para toda intervención comúnmente utilizadas en MPI. En nuestro caso nos planteamos con el tratamiento aumentar la limitación de la dorsiflexión del tobillo de forma mantenida y mejorar los diferentes parámetros clínicos de la MPI. Ante la falta de datos concluyentes (225), incluso de los diferentes ensayos clínicos aleatorizados con y sin introducción de TxBA, nos planteamos la combinación de terapias siempre con iguales o mejores resultados de la combinación de técnicas sinérgicas, respecto al uso de técnicas aisladas que pudieran aplicarse a las MPI de nuestra muestra. Una de las conclusiones más interesantes de la revisión, era la indicación de incluir medidas de evaluación y resultado consistentes y reproducibles en entornos clínicos y/o de laboratorio, con tiempos de seguimiento de al menos 6 meses (y recomendable 12) para comprender bien el impacto a largo plazo de cualquier intervención, aspecto que asumimos por completo pese al incremento de cargas de trabajo.

De esta manera se estableció un “programa piloto” de niños en los que probamos previamente el tratamiento midiendo ciertas variables clínicas a fin de validar el protocolo. Como siempre, se siguieron los mismos *criterios* de ética para la investigación clínica que se habían aplicado en todos los objetivos operativos (180). De esta forma se recogieron los datos de forma anónima y codificada, con consentimiento escrito aprobado por el comité de investigación del HUIS y realizado sobre la población asignada al HUIS de San Sebastián de los Reyes, respetando la LOPD (212). El área de influencia del Hospital Infanta Sofía abarca la atención a la salud de casi 55.000 menores de 14 años de nuestra zona geográfica (1) concretamente 54.929 según los datos de cobertura sanitaria del SERMAS en 2020 (2). La amplia prevalencia de MPI y su variabilidad clínica obligaron a elaborar protocolos sencillos, eficientes y consensuados para manejo en el servicio de Rehabilitación por todos los profesionales involucrados, pues los recursos eran proporcionalmente bastante limitados (1 médico especialista y 2 fisioterapeutas disponibles para su tratamiento, todos a tiempo parcial). La necesidad de implantación de un protocolo estandarizado de tratamiento fisioterápico para la MPI con evidencia (105) nos obligó a diseñar uno propio pues nuestros recursos debían adaptarse a un entorno de recursos finitos y organizativo característico del sistema público, siempre buscando la mejoría global del menor de forma eficaz, eficiente y equitativa. De este modo buscábamos no sólo ganar arco de movilidad del tobillo (227) sino también mejorar en lo posible el patrón de marcha y cuanta clínica observásemos de la MPI en su conjunto, que pudiera afectar al menor, siempre en la medida de nuestras posibilidades y medios. Dos miembros del equipo de rehabilitación infantil del Hospital infanta Sofía diseñaron y validaron un protocolo de reentrenamiento del control motor, sencillo a la par que riguroso para aplicar en los pacientes con esta patología según la evidencia disponible (113). De análoga forma se diseñó el tratamiento fisioterápico de los niños tratados por MPI incluyendo un programa adaptado de ejercicios dentro del protocolo, útil en todos los menores afectados independientemente de que hubieran recibido infiltración con TxBA (3) (4) (228) o no. El servicio donde se realizó el tratamiento presentaba características

organizativas específicas (118) propias de un sistema sanitario público hospitalario que permitía adaptar protocolos empleados en MPI en otros entornos similares (75) con relativa sencillez si las terapias estaban en su cartera de servicios, pero con riesgo de pérdidas en fechas de seguimiento difícil por la presencia de listas de espera u otros problemas derivados de la presión asistencial.

Reiterar que como el primer abordaje fue siempre el protocolo fisioterapéutico estandarizado de manera conservadora durante al menos dos semanas, siempre incluimos la docencia de ejercicios para continuar en casa, recomendando su continuidad durante los siguientes 2 a 4 meses mediante refuerzo telefónico, pese a que no había manera de comprobar la adherencia al tratamiento de forma absoluta.

Debido a que no se planteaba el estudio como ensayo clínico, se utilizó la toxina botulínica tipo A (onabotulinumtoxin o incobotulinumtoxin indistintamente) aplicada sobre el tríceps sural a baja dosis en rango terapéutico (2-3 U/kg) con el objetivo de disminuir el dolor, mejorar la fuerza de dorsiflexión y/o el rango de dorsiflexión de tobillo. Para lograr los objetivos empleamos el mismo protocolo de fisioterapia en sinergia con la TxBA tratando siempre de mejorar el equilibrio y la coordinación junto a la fuerza de dorsiflexores (38). Solo se consideró la TxBA en caso de no mejoría con tratamiento conservador tras la segunda consulta de seguimiento, atendiendo especialmente a casos con clínica de dolor (229) (230) y/o acortamiento (231).

La eficacia del tratamiento se evaluó mediante la mejora de parámetros clínicos. Ello incluyó el rango de dorsiflexión con el pie en supinación (medido con un goniómetro estándar) (232), el dolor medido mediante la escala analógica visual adaptada a la edad (219) y el equilibrio y las respuestas propioceptivas asociadas, que se evaluaron utilizando un test de equilibrio modificado simple y reproducible denominado OLBT (“one-leg-bearing-test”), modificado para incrementar su capacidad discriminatoria empleando un suelo esponjoso como la gomaespuma de una camilla (233) (37). El OLBT se ha empleado por su sencillez con frecuencia en población adulta (234) (235). Su parcial estandarización como valor absoluto en menores (236) ha permitido informar de respuestas equiparables de adultos jóvenes con niños de 12 años o más (237), lo que obligó a considerar solo su mejoría o empeoramiento como valor de referencia relativo. La prueba OLBT adaptada a los niños para la detección de riesgos de algunos tipos de lesión en miembros inferiores (236) consiste en pararse sobre un pie (normalmente descalzo) con la rodilla contralateral flexionada sin tocar el suelo. Se mide el tiempo hasta que se tocan ambas piernas, el pie toca el suelo y/o se pierde el equilibrio, siempre sin emplear los brazos para compensar. Se realizan tres intentos con los ojos abiertos en camilla y se registra el mejor tiempo de ejecución. Se sujetan los brazos al cuerpo para evitar la compensación y aumentar la capacidad discriminatoria de la prueba. Se empleó igual metodología para asegurar una comparación fiable y coherencia interna. Los ítems se calificaron como “mejoría” (>10%), “deterioro” (<10% de diferencia en comparación con el pre y postratamiento) o “sin cambios”.

4.2.2.3. Protocolo de fisioterapia aplicado en la MPI

Tras valorar por primera vez al menor y determinada la necesidad de tratamiento en función de la clínica (dolor, caídas referidas o mala respuesta al test de equilibrio, dorsiflexión menor de 10 grados...), se acordó un primer abordaje de tratamiento fisioterápico sin la infiltración de toxina durante al menos dos semanas incluyendo todas las semanas la evaluación del arco de movilidad de tobillo para evitar lesiones (5), la ganancia de fuerza de dorsiflexores de tobillo, el entrenamiento del equilibrio y la coordinación (204). La efectividad del tratamiento se evaluó en consulta y gimnasio mediante observación de la ganancia del arco de movilidad de flexión dorsal del tobillo en supinación y astrágalo neutro (207) medido en grados mediante goniómetro estándar, método aplicado tanto por el terapeuta como por el médico especialista en rehabilitación de igual forma, tras consenso entre ambos, incluyendo de igual forma la variación del dolor medido en escala visual analógica adaptada (208). Para decidir si se continuaba o no con el tratamiento mediante protocolo fisioterápico con/sin infiltración de toxina botulínica en ambos gemelos, se esperaba un tiempo variable para que el menor realizase las rutinas en domicilio, con refuerzo telefónico por parte del terapeuta, si bien siempre se esperó al menos 2 meses y únicamente se aplicaba si no se conseguía mejorar el arco por encima de 10° de dorsiflexión y/o el dolor se mantenía por encima de una EVA o una NRS de 6 (209) o su equivalente validado según la edad (47) (43). En la siguiente visita en consulta del médico rehabilitador, generalmente a los 3 meses de la primera consulta, se decidía cambiar de fisioterapia a fisioterapia con TxBA si no había evolución clínica, es decir, si la evolución del dolor medido en escala EVA no se atenuaba, si el equilibrio medido en mejora del test OLBT respecto al inicial no mejoraba o si el arco de dorsiflexión de tobillo medido en grados indicaba no evolución o incluso involución. La opinión paterna siempre fue tenida en cuenta como una variable evolutiva más. La reevaluación del terapeuta durante la fase presencial en gimnasio era semanal para consensuar continuidad (o no) de la terapia buscando la mejora del dolor, movilidad y/o del patrón de marcha, siempre sin tomar ninguna decisión de cambio de tratamiento durante al menos las 8 semanas desde que el niño había comenzado el tratamiento. De ese modo, únicamente se infiltraba toxina en caso de no mejoría reiterada con tratamiento conservador y nunca como tratamiento aislado por cuestiones éticas y prácticas (18) (180).

A pesar de plantearse en un principio, a la vista de los hallazgos de la revisión bibliográfica, no se empleó electroestimulación en menores por varios motivos. El primero metodológico para evitar la variabilidad empleada en terapia, ya que por cuestiones organizativas, los terapeutas involucrados no la manejaban de forma consensuada, no coincidían las salas de tratamiento y también se evitaban controversias por sospecha de baja durabilidad de la electroestimulación en patología crónica infantil (238) (238). Por ello, a pesar de que la bibliografía en adultos orientaba sobre beneficios (23) (163) no se ha implementado aún, aunque no se descarta su empleo en futuras investigaciones. Ello requiere solventar antes ciertos déficits organizativos, pero podríamos sugerir en el futuro ampliar el protocolo mediante corrientes bifásicas simétricas o asimétricas excitomotoras con un componente galvánico bajo como complemento, lo que como adelantábamos, precisaría estudio aparte.

Con el fin de reforzar el patrón de activación central de los flexores dorsales de tobillo (113) se emplearon técnicas de potenciación diseñando la carga a emplear para potenciación muscular adaptadas con seguridad a cada niño. La resistencia máxima estática se midió con una suspensión axial y un sistema de peso-polea, igual que se hace con otras medidas de parámetros musculares en niños respecto adultos (105).

Los menores realizaban dos series de ejercicios, la primera serie de 20 repeticiones con la mitad de la resistencia máxima y la segunda con 10 repeticiones aumentando a tres cuartas partes de la resistencia máxima incluyendo docencia para continuación domiciliaria a fin de alcanzar cierto nivel de fuerza. Se pretendía readaptar al paciente al ejercicio (CIE 9MC 93.13), ya que se ha demostrado buen rendimiento con elementos sencillos de potenciación de musculatura en miembros inferiores en entornos similares (227). El primer protocolo siguiendo estas normas se implementó en el HUIS en el año 2010 (revisándose en 2018) como puede verse en la **figura 28A**.

Protocolo de fisioterapia para tratamiento de la MPI empleado en el Hospital Infanta Sofía

- 1) 5 min de calentamiento.
- 2) Entrenar el choque del talón con rodilla extendida (paso del soldado) como repetición de las fases de marcha lenta del talón.
- 3) Estiramiento pasivo progresivo 20 segundos - 60 segundos, 2 veces cada pierna en extensión de rodilla (**enseñarlo a la familia**)
- 4) Ejercicios de dorsiflexión activa, incluye marcha del talón y mantener un balón en el dorso del pie con flexión activa del tobillo y rodilla extendida (**idem**)
- 5) Entrenamiento de equilibrio sobre base inestable (pies en dorsiflexión del tobillo).
- 6) Ejercicios de coordinación y equilibrio: exageración del paso del talón para superar obstáculos (ejecución lenta), alternar paso del talón y superación de obstáculos (**idem**).
- 7) Ejercicios de entrenamiento propioceptivo, de equilibrio con desequilibrio posterior y entrenamiento con equilibrio de dos y una pierna de pie (**idem**)
- 8) Para diseñar la potenciación personalizada de músculos se calcula la resistencia estática máxima (RM) empleando la técnica de Rocher:

Se usa una suspensión axial y una polea de peso para medir la fuerza tibial previa. En registro semanal (cada 5-7 días), La RM se va aumentando si se observa mejoría.

Se realizan 2 series de ejercicios: (1ª serie, 20 x 1/2 RM y 2ª serie, 10 x 3/4 RM)

- Las primeras 20 repeticiones con la mitad de la RM calculada
- Las segundas 10 repeticiones utilizando tres cuartas partes de esa RM.

Figura 28A. Primer protocolo de fisioterapia para MPI empleado en el HUIS.

Para trabajar los ejercicios de mejora de la coordinación se emplearon técnicas de entrenamiento propioceptivo clásico característicos de las lesiones de tobillo y pie (233) (239) seguros y fiables. Para el estudio del equilibrio y las respuestas propioceptivas de los menores a los cambios de postura se utilizó por sencillo y reproducible, el test de equilibrio sobre una pierna “One-Leg-Bearing-Test” (OLBT) o “One-Leg-Test-Stand” (OLTS) muy similares, adaptado el primero sobre terreno mullido como goma espuma de la camilla para aumentar la capacidad discriminativa. El test está validado para medir el evolutivo de las lesiones de miembro inferior de menores en la clínica diaria, siendo eficaz, sencillo y reproducible, a fin de poder comparar los valores previo y posterior al ejercicio, permitiendo la toma de decisiones con criterio objetivo (204). El test OLBT, empleado profusamente en población adulta (234) y normalizado en adultos sanos (235) (240) presenta respuestas iguales al adulto a partir de los 12-13 años (241) (236) y al no estar estandarizado en menores de igual medida que en adultos y haberse modificado para mejorar su capacidad discriminativa, tan solo medimos si mejoraba, se mantenía o empeoraba cuando variaba (o no) su resultado el 10% en segundos de 3 intentos sin emplear los brazos y con los ojos abiertos. El test adaptado a población infantil para la detección de riesgo precoz de lesiones en miembros inferiores (236) está descrito “parado en un pie”, sin zapatos, con la rodilla contralateral doblada y sin que toque el suelo. Desde esa posición se mide el tiempo hasta que se toquen ambas piernas, el suelo con el pie levantado o el niño pierda el equilibrio. Se mide siempre el mejor de tres intentos, con ojos abiertos, pero con la variante respecto la descrita inicialmente en terreno plano realizado sobre terreno irregular como la gomaespuma de la camilla a fin de aumentar su dificultad y por tanto la capacidad discriminativa, manteniendo los brazos pegados al cuerpo para aumentar la sensibilidad dando más peso a las estrategias de compensación del tren inferior. La metodología se normalizó en consulta para permitir comparar resultados con el mismo procedimiento.

Fue necesario optimizar los tratamientos por los limitados recursos en los que se desarrolló el estudio, un hospital público no pediátrico, sin financiación y dentro del trabajo habitual de un sistema con listas de espera por elevada presión asistencial que obligaba a diseñar un protocolo eficiente, centrado en la docencia para realización de ejercicios en casa tras dos semanas de tratamiento, generalmente de 8 a 12 semanas de ejercicio domiciliario posterior a consulta o a la finalización de terapia presencial.

Se marcaron como objetivos del tratamiento fisioterápico durante las dos semanas de dicho tratamiento presencial la mejora en el rango de movimiento en dorsiflexión activa con la rodilla flexionada y extendida, considerando exitosa la mejora de al menos 10 grados (73) de dorsiflexión del tobillo con la extensión de la rodilla y tratando de disminuir la frecuencia notificada de pasos en los que no tocaba el talón mediante rutinas con refuerzo visual y/o auditivo (149).

No se incluyó la masoterapia de forma sistemática pese a la popularización de su uso por ausencia de persistencia en sus efectos sobre el rendimiento de la musculatura en miembros inferiores (242).

En definitiva, el protocolo fue diseñado principalmente para trabajar el aumento de fuerza de los dorsiflexores, la mejora del equilibrio, el rango de los dorsiflexores y la reducción del dolor, combinando

entrenamiento de fuerza en el hospital con ejercicios en el hogar. Este tipo de procedimientos combinados ya había mostrado buenos resultados en entornos y grupos terapéuticos similares (243) (244).

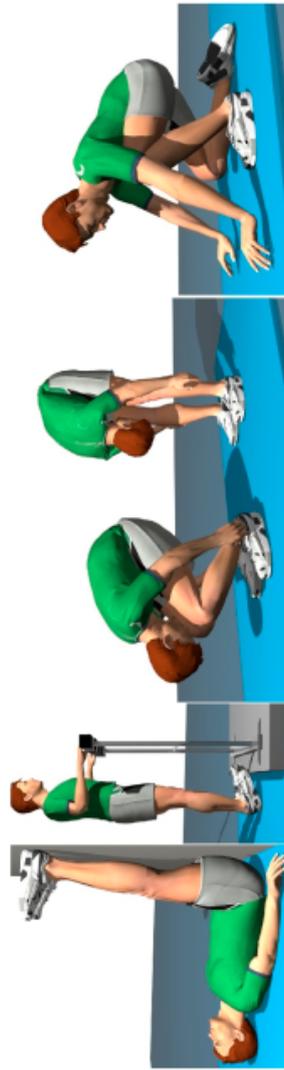
La enseñanza de ejercicios en el hospital para realizar en casa como parte del protocolo de entrenamiento de equilibrio y coordinación con técnicas propioceptivas junto al refuerzo verbal, se empleaba de forma habitual para lesiones de tobillo y pie en nuestro entorno (245) (240) por lo que se extendió su uso a la MPI. De igual forma, el entrenamiento de la marcha con equilibrio y control motor se reforzó con la retroalimentación mediante rutinas visuales y/o auditivas. Usando ese método, el paciente disminuía los pasos donde el talón no tocaba el suelo, en la idea de conseguir mejorar los resultados del test OLBT y disminuir así la percepción del dolor.

El tratamiento del menor fue preciso que se individualizara respecto a su perfil previo. Para mejorar el entrenamiento de la fuerza de los dorsiflexores se emplearon técnicas clásicas como la técnica de Rocher que permite diseñar las cargas de potenciación muscular adaptadas a cada niño. Para ello determinamos previamente la fuerza basal de los músculos dorsiflexores tratando de diseñar una carga individualizada para la potenciación muscular, adaptada a los dorsiflexores de cada niño (27) (140). Para emplear el peso más adecuado para cada niño calculamos la resistencia estática máxima con un sistema de suspensión axial y de peso-polea (227) (246).

Para la potenciación reglada durante las sesiones presenciales los pacientes realizaron dos series de ejercicios. La primera serie de 20 repeticiones a la mitad de la resistencia máxima calculada para el menor y la segunda con 10 repeticiones tres cuartas partes de esa resistencia máxima. En los menores infiltrados y/o con dolor siempre se ejecutó al menos un programa de 10 sesiones de fisioterapia protocolizada entre 1 y 3 semanas post-infiltración. Todos los pacientes que fueron sometidos a tratamiento tuvieron al menos una sesión (aparecieron pérdidas por diferentes motivos) con un máximo de siete protocolos de 5 – 10 sesiones en un tiempo máximo de 24 meses.

Los ejercicios domiciliarios (**figura 28B**) incluyeron control motor del talón con refuerzo, estiramiento de los flexores plantares y fortalecimiento de los dorsiflexores del tobillo. El propósito de estos ejercicios era lograr un cierto nivel de fuerza en casa con la supervisión de los padres, manteniendo y/o mejorando el arco de movilidad. La adherencia se evaluaba en consulta preguntando directamente sobre su realización “regular”, respuesta afirmativa en más del 85% de casos

Para evaluar el protocolo se compararon las características de los pacientes y exploración física en cada visita, sus antecedentes, incluyendo presencia de dolor o retracciones, la actitud terapéutica del menor (colaborador o no) y la impresión evolutiva del paciente (mejor, peor o igual). En cada visita, se midió el ángulo máximo de dorsiflexión con la rodilla extendida o flexionada utilizando un goniómetro manual estandarizado. Los registros de resultados (registro cada 5-7 días) fueron compartidos entre médico y terapeuta semanalmente con revisión en consulta a los 2-3 meses para ver resultado final del primer bloque de tratamiento. Los comentarios se custodiaban en una base informática del software “Selene®” sometida a control según LOPD.



**ESTIRAMIENTOS DE CADENA POSTERIOR
EN LA PARED, CON TRIPLE EXTENSIÓN Y EN FLEXIÓN DORSAL**



**EJERCICIOS EXCÉNTRICOS
CON UN PATINETE O UN PAÑO, CAMINANDO DE ESPALDAS, BAJANDO ESCALONES A UNO/DOS PIES,
CON FLEXO-EXTENSIÓN DE CADERA EN POLEA**

Figura 28B. Detalle de la iconografía del “set de ejercicios” empleado en la docencia de rutinas domiciliarias para familias de menores con MPI (adaptado de web).

PROTOCOLO DE FISIOTERAPIA PARA TRATAMIENTO DE LA MARCHA DE PUNTILLAS IDIOPÁTICA (MPI) EMPLEADO EN EL HOSPITAL INFANTA SOFÍA (HUIS)

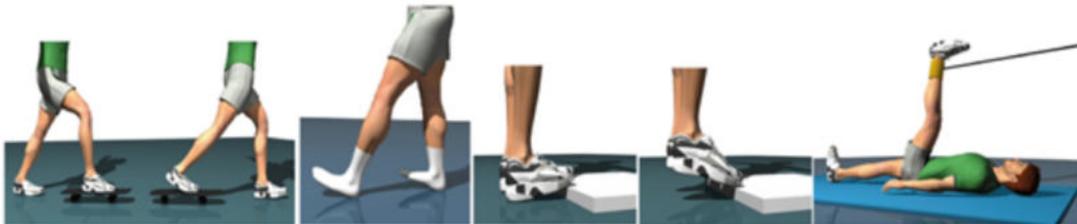
(Versión 2.0) (Presentación a D.M. HUIS 1/06/22)

Rutina a realizar por el menor con MPI sea o no infiltrado con TxBA previamente

- 1) 5 minutos de calentamiento.
 - 2) Entrenar el choque del talón con rodilla extendida (paso del soldado) como repetición de las fases de marcha lenta del talón.
 - 3) Estiramiento pasivo progresivo 20 segundos - 60 segundos, 2 veces cada pierna en extensión de rodilla (**enseñarlo a la familia**)
 - 4) Ejercicios de dorsiflexión activa: marcha del talón y mantener un balón en el dorso del pie con flexión activa del tobillo y rodilla extendida (**idem**)
 - 5) Entrenamiento de equilibrio sobre base inestable (pies en dorsiflexión del tobillo).
 - 6) Ejercicios de coordinación y equilibrio: exageración del paso del talón para superar obstáculos (ejecución lenta), alternar paso del talón y superación de obstáculos (**idem**).
 - 7) Ejercicios de entrenamiento propioceptivo, de equilibrio con desequilibrio posterior y entrenamiento con equilibrio de dos y una pierna de pie (**idem**)
 - 8) Para diseñar la potenciación personalizada de músculos se calcula la resistencia estática máxima (RM) con la técnica de Rocher.
- En registro semanal (cada 5-7 días), La RM se va aumentando si se observa mejoría.
Se realizan 2 series de ejercicios: (1ª serie, 20 x 1/2 RM y 2ª serie, 10 x 3/4 RM)



**ESTIRAMIENTOS DE CADENA POSTERIOR
EN LA PARED, EN ESCALÓN, CON TRIPLE EXTENSIÓN Y EN FLEXIÓN DORSAL**



**EJERCICIOS EXCÉNTRICOS
CON UN PATINETE O UN PAÑO, CAMINANDO DE ESPALDAS, BAJANDO ESCALONES A UNO/DOS PIES,
CON FLEXO-EXTENSIÓN DE CADERA EN POLEA**



Hospital Universitario Infanta Sofía

Protocolo de Rehabilitación 01/22

SaludMadrid Comunidad de Madrid

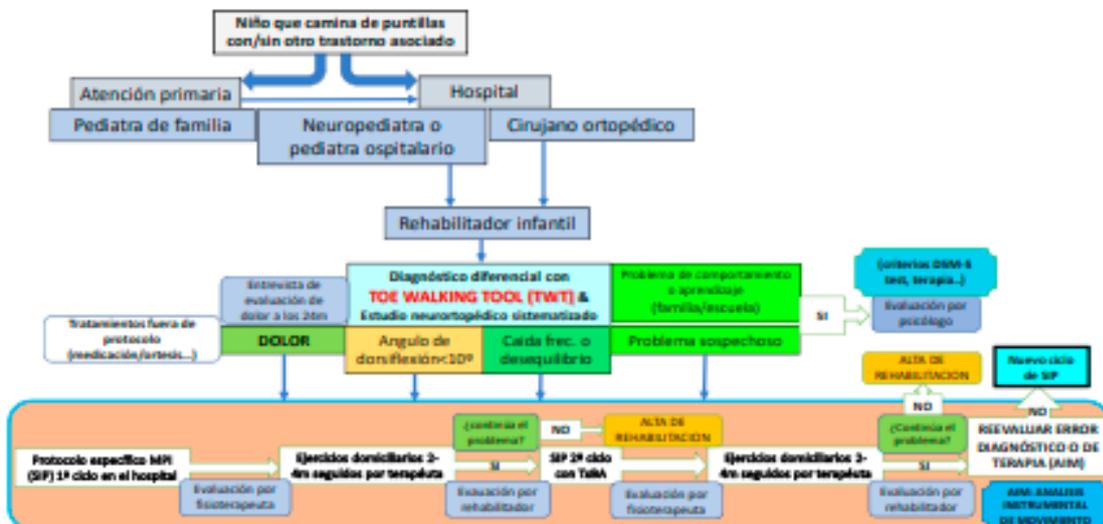
tienen un predominio de fibras musculares tipo I en los gemelos, que son tónicas o de contracción lenta y resistentes a la fatiga.

- 1.- Utilización de una suspensión axial y un sistema de peso-polea.
- 2.- Cálculo resistencia máxima (RM) con dinamómetro o cargas.
- 3.- Resistencia mínima 30% (RM) o un 10% del peso corporal, por debajo no se gana fuerza.
- 4.- Dos series de ejercicios:
 - 4.1.- 1ª serie, 20 repeticiones mitad de la resistencia máxima.
 - 4.2.- 2ª serie, 10 repeticiones tres cuartas partes de la resistencia máxima.
- 5.- Reevaluación cada semana de la RM

7.- Electro-estimulación: No se puede afirmar que haya una unificación científica con respecto a la idoneidad de los parámetros para estimular determinados tipos de fibras musculares y discriminar el resto. Sin embargo podemos elegir una corriente bifásica simétrica con un componente galvánico despreciable. Se conoce científicamente que las fibras rápidas que en nuestro estudio queremos estimular necesitan tiempos de impulso de alrededor de 300 microsegundos y frecuencias superiores a 50 Hz. La electroestimulación estática la contracción suele oscilar de 3 a 5 seg dependiendo de la intensidad. El tiempo de reposo duplicará como norma general al de la contracción. El umbral se establece aumentando la intensidad de los estímulos eléctricos progresivamente hasta alcanzar la máxima tolerada por cada sujeto.

ANEXO I: DIAGRAMA DE FLUJO DE LOS PACIENTES CON MPI EN HUIS

Flujograma de Pacientes a nivel hospitalario con MARCHA DE PUNTAS en RHB HUIS:



Bibliografía

- 1) Cincinnati Children's Hospital Medical Center; all rights reserved "Idiopathic Toe Walking in children and young adults ages 2 through 21 years" Publication Date: 15-Feb-2011. Evidence-Based Care Guideline for Management of Idiopathic Toe Walking Guideline 040. Copyright © 2011
- 2) Darrach J, Fan JSW, Chen LC, Nunweiler J, Watkins B Review of the effects of progressive resisted muscle strengthening in children with cerebral palsy: a clinical consensus exercise
- 3) Liao HF, Liu YC, Liu WY, Lin YT Effectiveness of loaded sit-to-stand resistance exercise for children with mild spastic diplegia: a randomized clinical trial .
- 4) CA Johnson, JH Burrige, PW Strike, Madera DE, Swain ID A single-blinded, randomized pilot study of botulinum toxin type a combined with non-pharmacological treatment for spastic foot. Rehabil J Med 2008; 40: 870-872 Fundación de Información de Rehabilitación. ISSN 1650-1977



Hospital Universitario
Infanta Sofía

Comunidad de Madrid

Protocolo de Rehabilitación 01/22

PROCOLO FISIOTERÁPICO tras INFILTRACIÓN de T.SURAL con TxBA. (versión 1.0)

(Presentación a D.M HUIS 21/11/11)

Protocolo de Rehabilitación 07/11

El protocolo que a continuación se cita se adaptará a cada paciente, la sesión de fisioterapia será lo más agradable posible y estimular a nuestro niño para que sea consciente de un ejercicio mientras juega y se divierte. Mínimo sesiones 10 máximo 30.

1. - Calentamiento: el niño viene andando al gimnasio por lo que se presupone un calentamiento inicial, no obstante pediremos que ande durante 5 minutos (no correr si pudiera estimular su marcha patológica) para calentar los miembros inferiores.

2. - Estiramiento pasivo: Realizaremos un estiramiento pasivo de tobillo de ambas piernas con flexión de rodilla y también con extensión de rodillas para estirar toda la musculatura posterior del miembro inferior en retracción. El estiramiento debe ser progresivo y nunca provocar dolor, para evitar contracción refleja de los músculos que deseamos relajar o inhibir con la toxina botulínica y el tratamiento fisioterápico. También se enseñará estos estiramientos al niño y sus padres para que puedan ser reproducidos después de las sesiones de rehabilitación.

3.- Ejercicio de taloneo con los talones (pingüino): Una vez calentada y estirada la zona a trabajar se puede empezar a andar con los talones, es decir se pedirá al niño, según sus posibilidades que apoye sólo los talones o en su caso el pie/planta del pie sin que toquen los dedos con el suelo. Progresivamente se incluirán otros parámetros que harán el ejercicio mas complicado como son pies paralelos, disminución de la base de sustentación y el aumento de la cadencia de paso

4.- Ejercicios de equilibrio: Los niños con ITW presentan un desequilibrio anterior debido a su típica marcha de puntillas, por ello realizaremos ejercicios de propiocepción o equilibrio en base estática y móvil dependiendo de la progresión del tratamiento y las capacidades del paciente. En este ejercicio también le provocaremos desequilibrios mediante cosquillas o también realizando pases con un balón.

5.- Ejercicios de coordinación: Para evitar compensación y sinergias patológicas por lo que necesitamos reorganizar y estimular sinergias enfocadas para una marcha normal, el decir en el apoyo inicial, lo normal debe de ser apoyo de talón con leve flexión de rodilla, que evolucionara hacia un apoyo de toda la planta y dedos. Esto se puede conseguir mediante lo siguiente:

- Ejercicios de alternar pies (baile), aquí el fisioterapeuta se coloca enfrentado al paciente, le coge las manos y los dos realizan a modo de espejo simultáneamente un apoyo de talón de una pierna y el apoyo completo del pie con leve flexión de rodilla de la contraria. Es decir el terapeuta enseñara a su paciente a realizar lo anterior a modo de baile estimulando a nuestro niño mediante el ritmo de la música, con palabras (derecho-izquierdo, talón-planta) y también con movimientos sobre las manos.

Una vez conseguido se podrá realizar el siguiente ejercicio que consiste en superar obstáculos primero a velocidad rápida y progresivamente más lenta y más difícil.

- Golpear un balón en extensión de rodillas y con flexión dorsal tobillo. El fisioterapeuta sujetará un balón a aproximadamente 30 cm del suelo y nuestro niño intentara golpear el balón, como se ha descrito anteriormente, con una fuerza que pueda impulsar la pelota no mas arriba de 50 cm. Estos ejercicios buscan provocar que el paciente pueda integrar el sincronismo normal de la marcha.

6.- Potenciación tibial anterior: Un músculo gemelo normal esta formado en su mayor parte por fibras musculares Tipo II. Histológicamente, los niños con ITW se ha demostrado que

Figura 28. Protocolo HUIS de fisioterapia en MPI completo (versión definitiva).

4.2.3. Metodología estadística

Se utilizó una hoja de cálculo Excel estandarizada (Versión 2010, Microsoft Corporation, Richmond, WA) para extraer y procesar la recogida de datos de los pacientes. Para el análisis de datos se utilizó Stata (versión 16).

Realizamos la prueba de Wilcoxon y la prueba de Chi cuadrado para determinar las diferencias estadísticamente significativas en las diferencias de ángulo, el equilibrio, la marcha y/o la fuerza del tríceps sural entre las visitas anteriores y sucesivas a los que recibieron inyecciones de TxBA y a los que no. Casi todos los niños que acudieron a la segunda y tercera visita posterior al tratamiento recibieron inyecciones de TxBA, por lo que no pudimos hallar diferencia estadística entre la TxBA y/o la fisioterapia.

4.2.4. Resultados obtenidos

Del total de pacientes, un grupo de 27 cribados con la herramienta TWT y que cumplían criterios de inclusión entraron en programa terapéutico. Su edad media era 7,44 (desviación estándar –DE- 2,82) años. Sus características están en la **tabla 13**.

La **figura 29** muestra el resultado del seguimiento durante 24 meses de los pacientes sometidos a protocolo, reflejando el alta médica, abandono o alta por cirugía. Los 11 pacientes que cursaron alta médica durante el período de seguimiento lo hicieron tras revisión en consulta encontrándose asintomáticos, no sólo tras descartar patología subyacente, sino tras referir ausencia completa de clínica en un período mínimo de 6 meses (generalmente más), y por cuestiones organizativas. La pérdida de 5 pacientes tuvo origen variado y no siempre pudo aclararse. El único paciente intervenido, aunque se incluyó en un principio por exploración “no concluyente” acabó excluyéndose del estudio por sospecha de contractura asociada de base, habiéndose remitido a consulta de RHB con doce años.

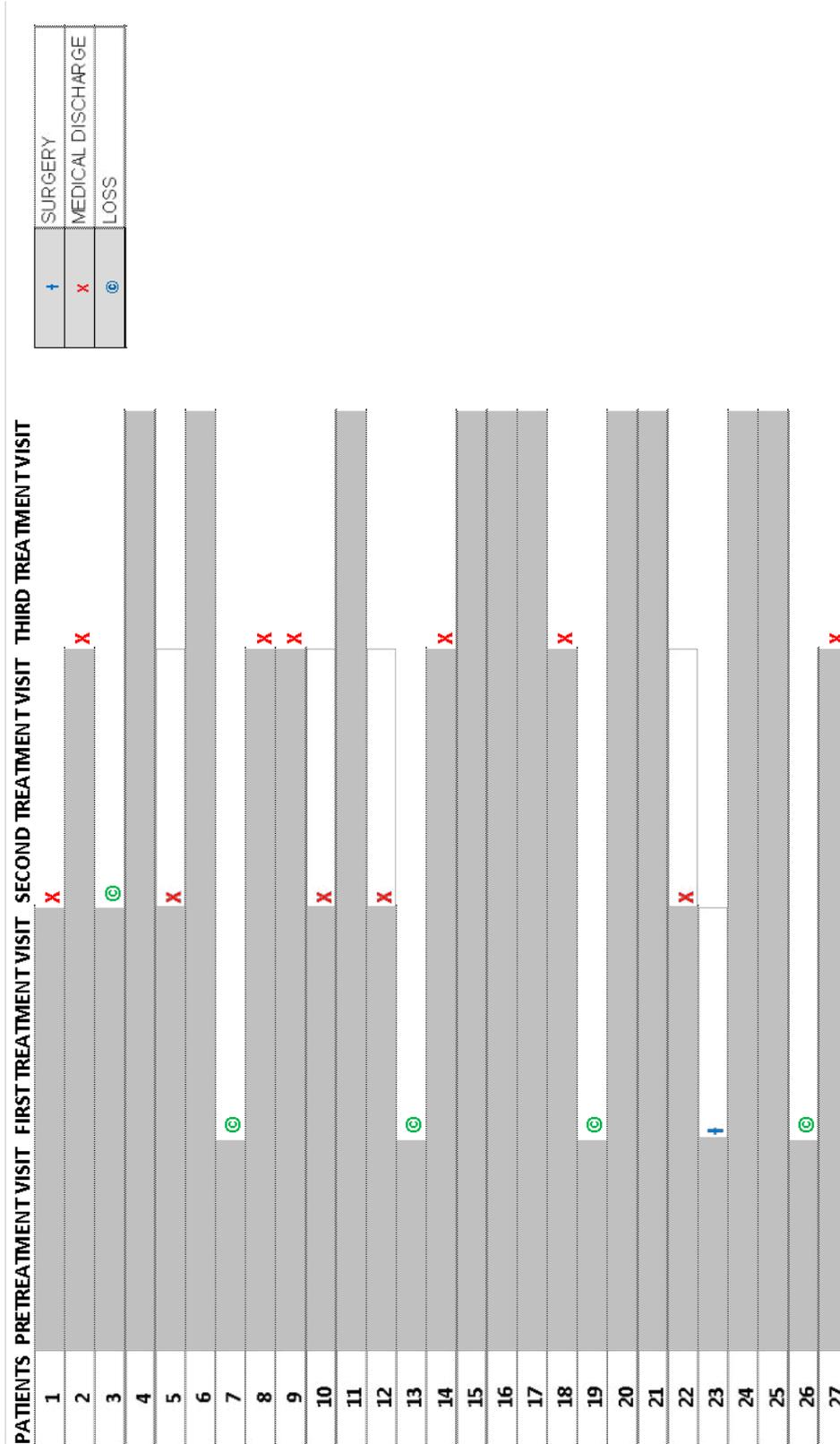


Figura 29. Tasa y motivo de abandono de los pacientes (n=27) durante los primeros 24 meses del estudio (de febrero de 2018 a marzo de 2020).

Las visitas de los pacientes se muestran en gris. Las bajas de los pacientes se marcan con una X si el motivo fue alta médica, con + si el motivo fue cirugía y ⊖ si el motivo fue pérdida.

Tabla 14. Características de los pacientes incluidos en protocolo terapéutico.

Características de los pacientes	n	%
Sexo		
Femenino	7	25,93
Masculino	20	74,07
Dolor		
Sin dolor	17	62,96
Con dolor	10	37,04
Infiltrados		
No	7	25,93
Si	20	74,07
Acortamiento del tendón de Aquiles		
No	17	62,96
Si	10	37,04
Acortamiento de flexores de rodilla		
No	25	92,59
Si	2	7,41
Necesidad de cuidados intensivos pediátricos al nacer		
No	26	96,30
Si	1	3,70
Marcha desarrollada antes de 20 meses		
No	1	3,70
Si	25	92,59
Pérdidas/no recuerda	1	3,70
Antecedentes familiares de MPI		
No	14	51,85
Si	12	44,44
Pérdidas/no recuerda	1	3,70
Presencia de clónus aquileo		
No	23	85,19
Si	4	14,81

Características de los pacientes	n	%
Reflejo patelar normal		
No	13	48,15
Si	14	51,85
Reflejo cutáneo plantar normal		
Si	27	100
Acortamiento de flexores de rodilla		
No	25	92,59
Si	2	7,41
Capacidad para talonear si se le pide		
No	7	25,93
Si	13	48,15
Pérdidas/no colabora		
	7	25,93
Gowers Test		
No	27	100
Retraso del desarrollo		
No	25	92,59
Si	2	7,41
Trastorno de espectro autista		
No	27	100
Trastorno por déficit de atención-hiperactividad (TDAH)		
No	20	74,07
Si	3	11,11
Sospechoso	4	14,81
Antecedentes de uso de caminador tipo tacatá		
No	10	37,04
Si	5	18,52
Pérdidas/no recuerda	12	44,44

Tabla 15. Características de las cohortes en las que se realizó solo fisioterapia y aquellas en las que se añadió inyecciones de TxBA (n=27).

Cohorte con toxina botulínica	No (n=7)	%	Si (n=20)	%
Edad				
Media de edad (años)	6,72	-	8,66	-
Mínima edad (años)	2,25	-	4	-
Máxima edad (años)	11,17	-	11,42	-
Presencia de dolor				
Sin dolor	3	42,86	14	70,00
Con dolor	4	57,14	6	30,00
Acortamiento aquileo				
No	6		11	
Si	1		9	
Acortamiento de flexores de rodilla				
No	6		19	
Si	1		1	
Necesidad de cuidados intensivos pediátricos al nacer				
No	6		20	100
Si	1		-	-
Marcha antes de 20 meses				
No	1		-	-
Si	5		20	100
Pérdidas/no recuerda	1		-	-
Antecedentes familiares de MPI				
No	4		10	
Si	2		10	
Pérdidas/No recuerda	1		-	
Clonus Aquileo				
No	7	100	16	
Si	-	-	4	
Reflejo patelar normal				

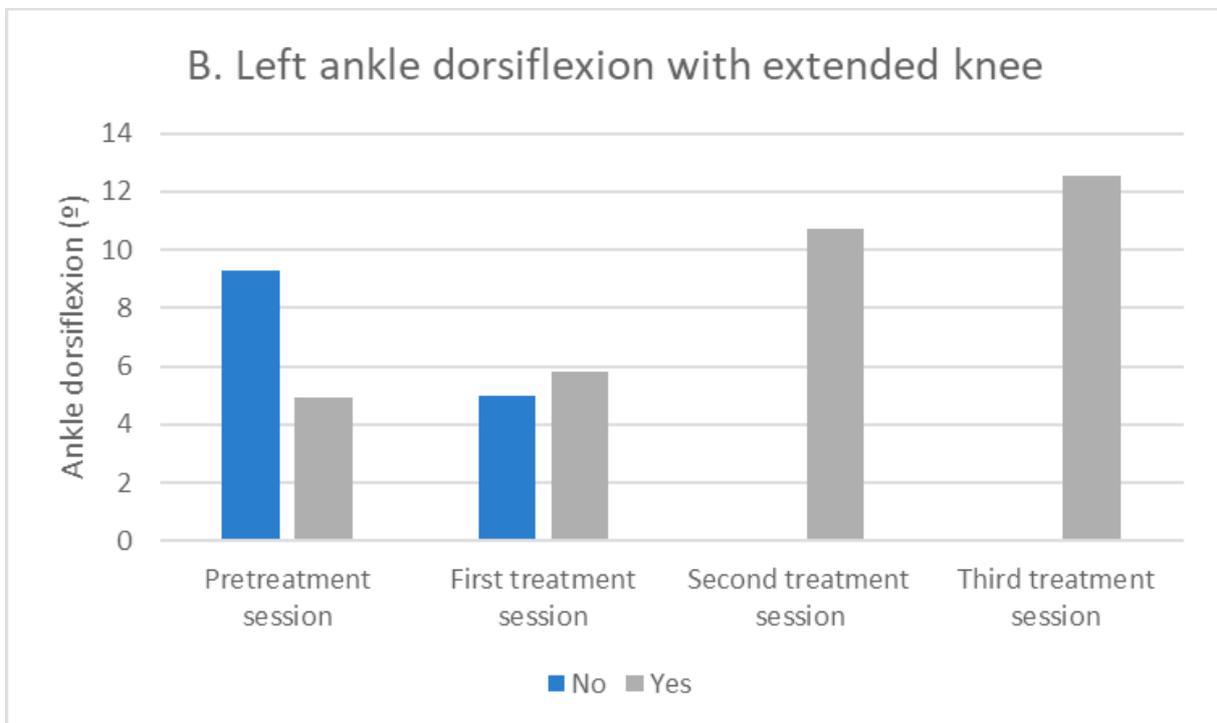
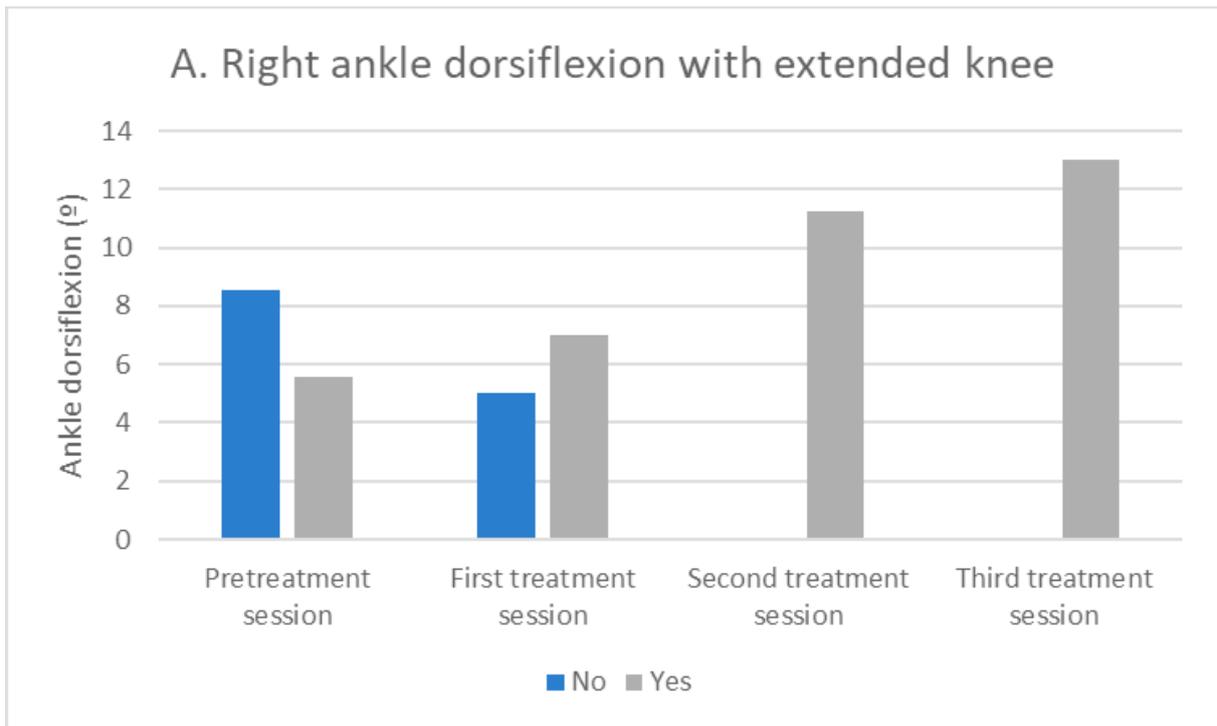
Cohorte con toxina botulínica	No (n=7)	%	Si (n=20)	%
No	4		9	
Si	3		11	
Reflejo plantar cutáneo normal				
si	7	100	20	100
Acortamiento de flexores de cadera				
No	7	100	18	
Si	-	-	2	
Capacidad de talonear si se le pide				
No	1			6
Si	2			11
Pérdidas	4			3
Gowers Test				
No	7	100	20	100
Retraso del desarrollo				
No	6		19	
Si	1		1	
Presencia de trastorno de espectro autista				
No	7	100	20	100
Trastorno por déficit de atención e hiperactividad (TDAH)				
No	7	100	13	
Si	-	-	3	
Sospecha	-	-	4	
Antecedentes de uso de andador tipo tacatá				
No	5	100	8	
Si	-	-	5	
Perdidas/No recuerda	2	-	7	

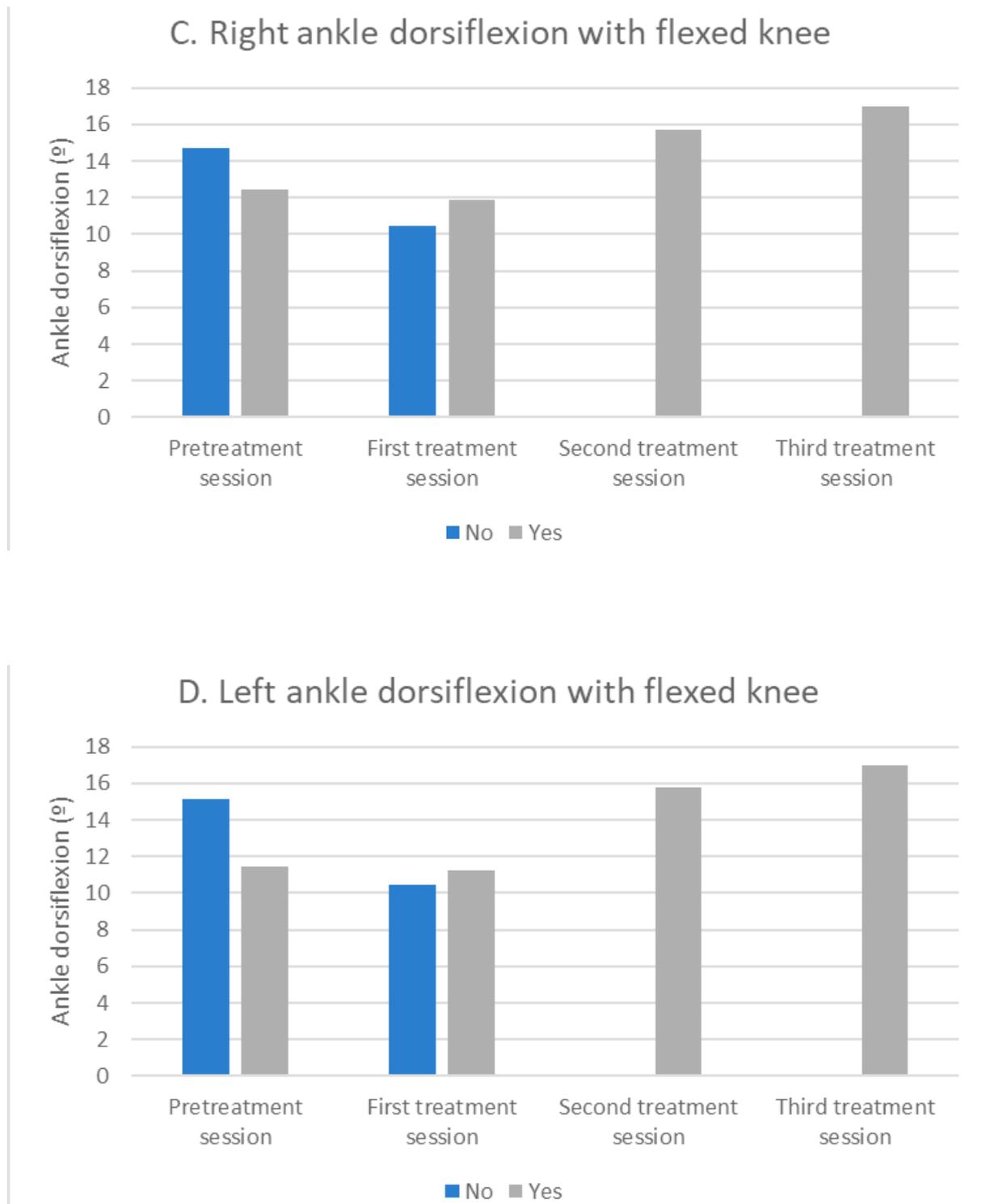
Del grupo terapéutico, se administró TxBA con fisioterapia posterior al 74,07% (n=20) de todos los pacientes incluidos, mientras el 25,93% (n=7) recibió solo fisioterapia. Las características de los pacientes incluidos en protocolo se ven en la **tabla 15**. En cada visita medimos los ángulos utilizando un goniómetro manual estandarizado y hallamos diferencias estadísticamente significativas en el ángulo de los infiltrados con TxBA y los tratados con PT para DF de tobillo derecho e izquierdo con rodilla extendida (**tabla 16**).

Tabla 16. Diferencias en las medidas de los ángulos tomadas durante el pre-tratamiento y la primera visita posterior al tratamiento (n=27). Mostramos medidas medias y desviaciones estándar (DE), valores mínimos y máximos.

Diferencias en las medidas en la 1ª consulta de los ángulos pre y pos-tratamiento (n=27)	TxBA	No	Si	p
Dorsiflexión de tobillo derecho con rodilla extendida	Media (DE)	-3.58 (4.76)	1.45 (5.58)	0.0356
	Min	-10	-5	
	Max	0	20	
Dorsiflexión de tobillo izquierdo con rodilla extendida	Media (DE)	-4.29 (6.07)	0.85 (3.27)	0.0213
	Min	-15	-5	
	Max	0	10	
Dorsiflexión de tobillo derecho con rodilla flexionada	Media (DE)	-4.29 (11.18)	-0.6 (3.52)	0.6188
	Min	-20	-10	
	Max	7	5	
Dorsiflexión de tobillo izquierdo con rodilla flexionada	Media (DE)	-4.71 (10.75)	-0.25 (4.05)	0.3728
	Min	-20	-10	
	Max	7	10	

Las medidas del test de Silfverskiöld permitieron determinar el evolutivo de acortamiento del tríceps sura pre y post-tratamiento (**Figuras 30A, B, C, D**).





Figuras 30A, B, C y D. Podemos ver las medidas de ángulo promedio en pacientes sometidos a infiltración de TxBA (gris) o no (azul).

Se midió la dorsiflexión del tobillo con las rodillas extendidas (A, B) y flexionadas (C, D). Hubo cambios estadísticamente significativos en el equilibrio, la fuerza del T.sural y la marcha en los pacientes que recibieron la inyección de TxBA y los no infiltrados durante la visita inmediata posterior.

Tabla 17. Cambios en equilibrio, fuerza del tríceps sural y la marcha observada en diferentes visitas posteriores al tratamiento.

Visita post-tratamiento	Infiltración	No	%	Si	%	p
1ª visita						
Equilibrio (n=22)	Sin cambios	0	0	10	52.63	0.176
	Mejoría	3	100	8	42.11	
	Empeoramiento	0	0	1	5.26	
Fuerza del tríceps sural (n=22)	Sin cambios	1	33.33	16	84.21	0.063
	Mejoría	2	66.67	2	10.53	
	Empeoramiento	0	0	1	5.26	
Marcha (n=22)	Sin cambios	0	0	10	52.63	0.048
	Mejoría	3	100	5	26.32	
	Empeoramiento	0	0	4	21.05	
2ª visita						
Equilibrio (n=16)	Sin cambios	-	-	7	43.75	-
	Mejoría	-	-	9	56.25	
Fuerza del tríceps sural (n=16)	Sin cambios	-	-	8	50	-
	Mejoría	-	-	7	43.75	
	Empeoramiento	-	-	1	6.25	
Marcha (n=7)	Sin cambios	-	-	5	33.33	-
	Mejoría	-	-	10	66.67	
3ª visita						
Equilibrio (n=11)	Sin cambios	-	-	2	18.18	-
	Mejoría	-	-	9	81.82	
Fuerza del tríceps sural (n=11)	Sin cambios	-	-	1	9.09	-
	Mejoría	-	-	10	90.91	
Marcha (n=7)	Sin cambios	-	-	1	14.29	-
	Mejoría	-	-	6	85.71	

En la segunda columna se muestran los porcentajes para cada variable. La segunda y tercera visita solo incluyó pacientes que recibieron TxBA por lo que no se pudo obtener un valor p para esa cohorte.

4.2.5. Resumen y discusión de los hallazgos del estudio

El estudio sigue fielmente las recomendaciones actualizadas de la guía Cochrane para el manejo de la MPI (113). Esta revisión recomienda la realización de estudios como el presentado en la intención de efectuar investigación de alta calidad para cualquier intervención utilizada comúnmente en la MPI. Dentro de dichas recomendaciones también se define como uno de los objetivos principales de la rehabilitación la mejora mantenida en la marcha de puntillas evitando limitaciones de la flexión dorsal del tobillo, ubicando el estudio y su metodología arquetipo “de buena praxis”. El protocolo de fisioterapia empleado mostró resultados prometedores en ese sentido, pues pudimos observar una mejora general en los parámetros clínicos de DF de tobillo, el equilibrio, la marcha y la observación visual. Pensamos por tanto que nuestro protocolo podría ser una buena opción a terapias más resolutivas como la cirugía (247).

En resumen, el protocolo terapéutico empleado fue diseñado e incluido en el estudio para ser validado desde el algoritmo diagnóstico con el objetivo de promover una vía clínica eficaz de manejo y coordinación entre profesionales que trabajan con la MPI.

La metodología empleada permitió seleccionar cohortes de MPI de alta especificidad de manera redundante gracias a la metodología de cribaje y la actuación consensuada entre diferentes miembros del equipo de rehabilitación. Siempre ha primado el bienestar y la excelencia terapéutica en el manejo de la MPI en nuestro estudio, por lo que a la validación como protocolo de tratamiento eficaz para MPI se incorporó un estudio de viabilidad de ejecución en nuestro medio, cumpliéndose ambos.

Es importante reseñar que desde 2008, en el HUIS se han tratado menores con marcha de puntillas de diversa etiología por diversos profesionales, variados hábitos diagnósticos y diferente metodología en consulta. El programa piloto para MPI con recogida de las variables flexión dorsal máxima con rodilla en extensión y en flexión a 90° (test de Silfverskiöld), completando el OLTS como medida del control propioceptivo (29) y midiendo la fuerza máxima producida por el tibial anterior, se implementó en gimnasio de rehabilitación desde 2018, sin detrimento de otros tratamientos complementarios que desde 2010 se habían empleado, como yesos seriados, órtesis, plantillas o cirugía. Los menores incluidos en el estudio, todos con diagnóstico de MPI fueron sometidos a fisioterapia con o sin TxBA, evitando plantillas, órtesis nocturnas o yesos, por no necesarios, evitando sesgos de intervención paralela.

Una parte importante de la mejoría del paciente con MPI es el resultado del protocolo con terapia específica de TxBA, independientemente de la heterogeneidad de grupos y de nuestras opciones de manejo terapéutico, limitado en recursos humanos y temporales. La evaluación encontró cambios estadísticamente significativos en mejora del equilibrio, fuerza de tibial anterior y rango articular entre los pacientes que recibieron la inyección de TxBA respecto los

que no. A la vista del resultado, en 2021 se estandarizó en RHB del hospital HUIS el protocolo completo por los buenos resultados del programa piloto. En Junio de 2022 se incluyó por la comisión de calidad como norma de buena praxis del servicio.

- 1) Fisioterapia. (90-100% pacientes)
 - Reeducción motora.
 - Control motor voluntario (conciencia motora)
 - Reeducción de la marcha-
 - Reeducción del equilibrio
 - Propiocepción de MMII
 - Estiramientos (stretching)
 - Tríceps sural (gemelo-sóleo)
 - Flexores de rodilla (isquiotibiales)
 - Potenciación de flexores dorsales de tobillo
 - Método de Rocher (cálculo de la RM y adaptación a la fuerza previa)
 - 2 series modificando cargas
- 2) Órtesis nocturnas. (<10 pacientes serie corta y aislada)
- 3) Yesos seriados. (<5 pacientes, sólo 2 seriados)
- 4) TxBA tipo A. (20% pacientes >80 pacientes)
- 5) Cirugía de alargamiento del Aquiles. (2 pacientes ambos remitidos con >12 años)

Figura 31. Principales tratamientos empleados en el servicio de rehabilitación del HUIS en niños con marcha de puntillas de diverso origen desde 2008 hasta inicio de implantación del protocolo empleado en este estudio.

En la revisión de casos de 2010 a 2020 sobre todas las marchas de puntillas atendidas en rehabilitación, al evaluar las opciones terapéuticas no protocolizadas empleadas en los menores con MPI se observó que se siguieron tratamientos variados (Figura 31), no evaluados ni tratados de forma sistemática como en nuestro estudio, lógicamente.

Por otro lado, la ausencia de un grupo de control complicaba determinar si la evolución de la retracción era consecuencia del crecimiento del niño o de la evolución natural de la propia MPI.

Cuando mejoraba el rango tampoco se sabía cuánto lo hacía debido a cada tratamiento, pues al no diseñar el estudio como ensayo clínico, fueron sinérgicos.

Puede ser recomendable la recogida de otros datos añadidos como el crecimiento, la edad, el análisis de laboratorio, el IMC e incluso series de rayos X que definieran la edad ósea a fin de determinar interferencias de la clínica con factores fisiológicos como cambios metabólicos pre-adolescentes y/o de brazo de palanca por crecimiento. Otro aspecto importante a tener en cuenta es que la eficacia del protocolo HUIS se evaluó en un período de tiempo relativamente corto en la vida de cada paciente por lo que es interesante valorar la posibilidad de periodos más largos de observación incluyendo el estudio de ciertas variables antropométricas evolutivas en un futuro.

Las medidas de ángulo con la rodilla extendida en dorsiflexión mostraron diferencias estadísticamente significativas en los pacientes que recibieron TxBA en comparación con los que fueron tratados solo con fisioterapia, pero existieron factores susceptibles de confusión. Uno es el tratamiento acumulativo que podría aumentar su efecto. El otro podría ser no tener suficientes datos para estudiar las diferencias para determinar la flexibilidad natural del tendón dependiendo de la edad. Del mismo modo, dado el diseño del protocolo, el seguimiento de los pacientes con TxBA y fisioterapia era más frecuente que en los pacientes que recibieron PT solo. Debido a que los pacientes sin síntomas clínicos fueron frecuentemente dados de alta después de la primera visita, el seguimiento fue mayor en el grupo que presentó más síntomas lo que a veces complicaba las comparaciones entre cohortes (248).

A pesar del pequeño tamaño de nuestra cohorte, encontramos una diferencia significativa en la mejora entre la longitud del flexor plantar (principalmente tríceps sural) con fisioterapia (PT), siendo los resultados aún mejores si se usaba TxBA sinérgicamente. La bibliografía considera una diferencia de 10° (con/sin yeso) en menos de 24 meses, como resultado óptimo en comparación con series donde se ha encontrado que no hay diferencia en la dorsiflexión antes y después del tratamiento (249). Series similares solo demostraron que el tratamiento conservador era bastante poco efectivo, observando casos que incluso con cirugía fracasaron intentando mantener el rango de dorsiflexión hasta el 63% de casos a 6 meses (81), hallazgo llamativo cuando otros datos de la bibliografía indican que tras un seguimiento prolongado de más de 36 meses aparecía mejoría espontánea de la marcha característica de la MPI, lo que refuerza la necesidad de cribar mejor las muestras. Nuestro protocolo nos permite seleccionar casos sintomáticos cribados con el TWT pudiendo alcanzar mejores resultados que los observados espontáneamente, concretamente entre el 30 y el 60% de mejoras en el equilibrio, dorsiflexión o dolor (223). El dolor era en nuestro estudio el síntoma más recalcitrante. Estudiamos el dolor 24 meses antes de la primera visita y encontramos un 38% de pacientes que presentaban dolor persistente a pesar del tratamiento. El 62% de los niños tratados que presentaban dolor al inicio permanecieron asintomáticos 24 meses después del protocolo de tratamiento empleado. Menos del 10% de los niños fueron dados de alta después de solo uno o dos ciclos con el protocolo de fisioterapia y/o TxBA sin informar aparición

de dolor. Un tercio de nuestros pacientes sufrían dolor antes de venir a consulta y plantear tratamiento. La ausencia de significación estadística respecto a la evolución de la población impide sacar conclusiones sobre si el tratamiento ha sido el verdadero responsable de la atenuación del dolor. Se necesita más investigación, especialmente en el manejo del dolor de forma protocolizada para extraer conclusiones (223), aunque la analogía con estudios empleando PT y/o TxBA, así lo sugiera (229).

Es interesante ver que la mejora en la fuerza de los dorsiflexores de tobillo obtenida y la longitud del tríceps sural (y/o su tendón Aquileo) con el protocolo de PT con o sin combinación de TxBA, permite validar el protocolo empleado como efecto de tratamiento, ya sea acumulativo o aislado, pero siempre como muestra de su eficacia. A diferencia de otros estudios que no encontraron diferencias usando enfoques combinados (18), este estudio sí observó diferencias significativas entre niños con MPI que presentaban dolor y/o acortamiento del tendón de Aquiles (223). Dado el tiempo de seguimiento del estudio no se ha podido descartar por completo que existan efectos secundarios desconocidos de esta terapia incluyendo recaídas, o que la amenaza de la repetición de la infiltración cause un “sesgo por aversión a la comunicación de información” modificando la adherencia al tratamiento en el hogar en los niños por “miedo a un nuevo pinchazo”. Es conocida la capacidad de la TxBA para producir un efecto analgésico a largo plazo (133) lo que la convierte en un interesante instrumento como tratamiento conservador para conseguir analgesia a la vez que actúa facilitando la PT incluyendo entrenamiento del equilibrio, coordinación motora y fuerza de la musculatura dorsiflexora afectada en los pacientes con MPI pues se incluye esa tonificación en el protocolo de la fisioterapia (250). Aunque existe evidencia sobre mejores resultados usando TxBA en la marcha de puntas combinado con yeso en períodos cortos de tiempo (124) hemos podido observar diferencias sin yeso, lo que ya de por sí proporciona una visión favorable del enfoque de la TxBA y fisioterapia protocolizada de nuestro estudio.

En definitiva, el entrenamiento acumulativo podría haber influido en las diferencias entre el equilibrio, la fuerza de los dorsiflexores y el dolor en los niños característico de los pacientes sometidos a más seguimiento, aunque desafortunadamente no podemos separar el efecto del tratamiento de fisioterapia aislada del uso de la TxBA en exclusiva porque nuestro diseño observacional no se presentaba como un ensayo clínico sino como una validación de protocolo terapéutico en un contexto clínico específico. Nuestro objetivo de validación del protocolo, si se ha podido completar, incluyendo la intención original de optimizar los recursos para el tratamiento conservador eficaz de la MPI en nuestro medio. A la luz de los datos obtenidos podemos recomendar el tratamiento sinérgico como tratamiento efectivo para esta patología sin hallar complicaciones derivadas durante el estudio.

En cuanto a la posibilidad de encontrar una reducción de la actividad de los músculos extensores o flexores como resultado de la TxBA los resultados en la exploración no fueron concluyentes pues el test de Daniels no detectaba diferencias “sutiles”, o sea, el test elegido no había sido diseñado para valorar pequeñas variaciones de fuerza por efecto terapéutico del protocolo, por

lo que consideraremos no haber medido la fuerza máxima sistemáticamente con herramientas de medida de sensibilidad suficiente como limitación del estudio a mejorar en futuros planteamientos de investigación al respecto.

Por el contrario, si objetivamos mejor relación agonista-antagonista y por tanto coordinación motora de los músculos de las piernas en niños con MPI tras infiltración y reentrenamiento, lo que parece ser parte importante de la mejoría de los pacientes, coherente con la bibliografía que afirma en estudios EMG mejor coordinación entre los músculos del tobillo después de las inyecciones musculares con TxBA y su reentrenamiento motor (107).

En definitiva, nuestro protocolo mostró buenos resultados para los pacientes con MPI en los que se aplicó. Se mostró como una alternativa sostenible y asequible a terapias más invasivas y costosas sin observar complicaciones derivadas (247). Este protocolo conservador tuvo otros efectos beneficiosos en pacientes con MPI como integración motora o control motor, mejorando el equilibrio y pese a sus limitaciones presenta la fortaleza de abarcar una muestra relativamente amplia y bien cribada en todas sus características comparándola con la literatura clásica (28) en la MPI.

El estudio definitivo comenzó a procesar los datos a principios de 2018, finalizando abruptamente en marzo de 2020 debido a la pandemia de SARS-CoV-2 en Europa. La adherencia al protocolo fue un problema especialmente en 2020, modificando el período inicial de reclutamiento y seguimiento. Desde febrero de 2020, se debió restringir todas las visitas presenciales permitiéndose, según instrucciones de la consejería de sanidad, el seguimiento telefónico y ejercicios en el hogar exclusivamente. La adherencia fue superior al 75 % antes de los eventos pandémicos, disminuyendo en 2020 por los motivos referidos. El estudio tuvo que ser detenido después de 24 meses de seguimiento. A pesar de las limitaciones de tiempo, nuestros resultados permitieron establecer ciertas conclusiones. Estudios de reclutamiento y seguimiento más prolongado y sin injerencias externas de la magnitud de la pandemia quizá podrían haber mejorado la evidencia y la significación estadística del resultado.

Es preciso adelantar que nuestro estudio presenta ciertas deficiencias de difícil resolución. En primer lugar, el tamaño de la muestra es relativamente pequeño, debido al menos en parte a la dificultad de reclutar niños para estudios de observación, quizá por escasa percepción de la enfermedad transmitida por el entorno (lo que incluye tanto personal sanitario como sus familias). Otros estudios que abordan MPI presentaron tamaños muestrales parecidos, con pérdidas y abandonos poco estudiados pero casuística similar. Las dificultades de seguimiento para grupos de estudio en MPI en el tiempo y el espacio, reflejan que es un problema común en la clínica y limita la significación estadística de manera similar. Los métodos de medición no siempre fueron los más adecuados como ya se ha nombrado y las herramientas organizativas no siempre fueron todo lo facilitadoras que hubiéramos deseado.

Esta limitación se suma al “sesgo selección” producido por el diseño de captación de pacientes derivados a rehabilitación, ya que los facultativos derivadores seleccionaban muchos niños por sintomatología y no por la marcha de puntillas exclusivamente.

El número de pacientes con MPI con síntomas clínicos podría ser teóricamente elevado y enfrentar los recursos limitados que todo sistema sanitario público puede presentar tanto para accesibilidad al diagnóstico como para tratamiento. Concretamente desde los centros de salud pública sospechamos que no siempre se derivaron los pacientes con criterios homogéneos, lo que orienta al establecimiento de nuevas perspectivas para optimizar las estrategias de reclutamiento en el futuro.

Otra limitación resulta del hecho de que estandarizar los tratamientos sería suficiente como objetivo principal, pero carecemos de un grupo de control adecuado. Uno de nuestros próximos pasos podría ser diseñar grupos de control, si es éticamente factible, para proporcionar terapias más flexibles e individualizadas. Debido a la heterogeneidad entre los participantes de nuestro estudio tanto en las características clínicas como en el tratamiento individualizado, pese al protocolo, no pudimos realizar análisis estadísticos adicionales personalizados. En consecuencia, no podemos excluir que alguno de los resultados observados sea el resultado de factores no controlados.

Es interesante reseñar que el protocolo terapéutico introducido no se benefició de la sinergia potencial con otros tratamientos que si habían sido probados en consulta de forma “histórica”, caso de las órtesis, los yesos seriados y /o las plantillas. En el primer caso, la observación detallada y la monitorización de los terapeutas junto al ejercicio domiciliario, permitió demorar la ortetización nocturna, evitando sesgos de interferencia y alterar los tiempos de espera para tratamiento por temas de demora en elaboración y/o abono del material. En el caso de los yesos seriados y/o las plantillas, la logística hacía imposible su aplicación en la consulta (no se disponía de material adecuado, no todo lo cubría el sistema sanitario y parte debía ser sufragado por las familias de su cuenta), por lo que se evitó intervenir con terapias que pudieran romper los protocolos de Helsinki respecto a la accesibilidad en grupos sociales desfavorecidos.

Pese a que solamente se emplearon dos tipos de terapia en el protocolo, nuestro estudio ofrece información valiosa sobre la gestión de la MPI en un entorno sanitario habitual. Además, para hacer frente a la pandemia por SARS-CoV-2 en nuestro centro, se reubicó el personal de nuestra unidad incluyendo al investigador principal de modo que el seguimiento de los pacientes forzosamente pasó de ser siempre presencial a ser realizado principalmente por teléfono. Bajo estas perspectivas sin duda podemos afirmar que son recomendables estudios adicionales que abarquen tamaños simples más grandes con metodología similar y con seguimiento presencial para contrastar.

4.2.6. Conclusiones del objetivo 2

La pandemia por SARS-CoV-2, especialmente en España, ha afectado al menos en parte a nuestro estudio. A pesar de ello, la fortaleza del diseño ha permitido extraer conclusiones interesantes, obviando el menor reclutamiento y seguimiento más corto. La sistematización del protocolo es sencilla y asequible a otros grupos, en la idea de que su aplicación a otras áreas permita controlar los casos sintomáticos de una patología frecuente como la MPI, incluso a pesar de las pérdidas de pacientes del 25% observadas después de 2020, cuando los eventos pandémicos interrumpieron nuestra investigación (y toda la asistencia a rehabilitación infantil) de forma brusca.

El protocolo de ejercicio ha producido un efecto positivo en los pacientes diagnosticados de MPI. La fisioterapia siempre se ha incluido de forma beneficiosa, si bien hemos encontrado mejores resultados usada sinérgicamente con la TxBA.

Este protocolo de fisioterapia es válido para mejorar la comorbilidad de la MPI (dolor, retracción o caídas frecuentes), permitiendo su estandarización en nuestra población de forma útil, sencilla y eficaz.

Creemos que no es ético evitar profundizar en el estudio de las comorbilidades asociadas a la MPI. Tampoco minusvalorar la necesidad de tratamiento especialmente en pacientes sintomáticos o no prolongar estudios de seguimiento que, por insuficientes, no permitan conocer qué terapias realmente modifican la enfermedad. Esto es aún más importante considerando la alta prevalencia de esta patología y específicamente la clínica dolorosa, por desgracia desconocida con frecuencia (91).

Durante el tiempo de seguimiento (máximo de 24 meses) no se reportaron efectos adversos por parte de los profesionales, los niños o sus familias, tanto de la terapia como de la aplicación de la TxBA en las dosis prescritas en protocolo.

Para asegurar la sostenibilidad del sistema, buscar protocolos rentables y seguros podría considerarse una opción atractiva. En el futuro, esperamos poder introducir las lecciones aprendidas para optimizar el protocolo de manejo de la MPI a fin de mejorar la seguridad, la adherencia, el seguimiento, la interferencia del crecimiento con el dolor y/o retracción, optimizando la eficacia de manejo de la MPI clínicamente significativa.

4.3. Objetivo 3: Descripción de los patrones de marcha encontrados en niños con marcha de puntillas mediante agrupamiento jerárquico y distancia DTW

4.3.1. Justificación del objetivo

Los pacientes con MPI no se constituyen como un grupo uniforme desde el punto de vista clínico como tampoco lo son desde el punto de vista de sus alteraciones de la marcha medidas con sistemas instrumentales (83) (251).

Conocer la variabilidad de las alteraciones en el patrón de marcha de estos pacientes puede ser importante para el diseño de abordajes terapéuticos efectivos, especialmente para conocer las diferencias pre y postratamiento.

En este objetivo, nos planteamos analizar la variabilidad de los datos cinemáticos de nuestra muestra de MPI realizando una descripción clínica de parámetros extraídos de las curvas cinemáticas de varios ciclos de marcha de cada sujeto con MPI. Eso lo completaremos mediante el análisis completo de las curvas cinemáticas empleando el uso de la distancia DTW, metodología empleada con éxito en problemas similares dentro del grupo de investigación de análisis de movimiento de la cátedra de Neurociencia de la Facultad de medicina de la Universidad Autónoma de Madrid (146).

Tras la firma del consentimiento informado (ver anexo III), a las familias se les ofrecía participar en el estudio de AIM de su hijo de forma voluntaria. El total de menores con MPI analizados en el MOVUAM que aceptaron participar fue de 33, si bien por problemas técnicos 5 fueron descartados. Al final, la cohorte de pacientes sometidos a AIM fue de 28, de los cuales del HUIS procedían 16 niños que no referían dolor y 8 que si lo presentaban. De igual forma en los pacientes estudiados con AIM, 4 de ellos presentaban TDAH (certeza previa o alta sospecha) mientras que el resto no tuvo nada sugerente de trastorno. Por desgracia, la muestra no permitía establecer relaciones estadísticamente significativas por grupos dada la escasa cantidad de niños por grupo.

4.3.2. Resultados obtenidos

En la **tabla 18** y en la **figura 32**, se muestran los resultados descriptivos para los parámetros espaciotemporales seleccionados, así como los intervalos de confianza de la *d* de Cohen para cada comparación univariante. Los pacientes con marcha idiopática de puntillas mostraron una importante dispersión en sus parámetros espacio-temporales. La velocidad de la marcha normalizada por longitud de pierna no mostró diferencias significativas en cuanto a las medias, aunque si había un grupo considerable de pacientes con marcha idiopática de puntillas que mostraban una velocidad disminuida respecto al grupo de referencia. La cadencia de marcha mostró una distribución similar a los del grupo de referencia, aunque con mayor número de valores extremos en el caso de pacientes con MPI. En cuanto al tiempo de apoyo, los pacientes con marcha idiopática de puntillas presentaron una prolongación estadísticamente significativa. Es relevante señalar que muchos pacientes con marcha idiopática de puntillas mostraban valores para los tiempos de apoyo dentro de los límites de normalidad definidos a través del grupo de referencia.

Tabla 18. Estadística descriptiva y comparación de los grupos de niños control y de niños con MPI para la velocidad, cadencia y tiempo de apoyo.

	Parámetros izquierdos			Parámetros derechos		
	Control Media (desviación típica)	MPI Media (desviación típica)	Diferencia <i>d</i> de Cohen (Intervalo de confianza 95%)	Control Media (desviación típica)	MPI Media (desviación típica)	Diferencia <i>d</i> de Cohen (Intervalo de confianza 95%)
Velocidad normalizada (m/s)	1.49 (0.21)	1.38 (0.31)	0.43 (-0.16;1.01)	1.49 (0.2)	1.38 (0.31)	0.39 (-0.15;1.01)
Cadencia	2 (0.2)	2.01 (0.27)	-0.02 (-0.51;0.49)	2.01 (0.18)	2.05 (0.3)	-0.17 (-0.69;0.32)
Tiempo de apoyo (% del ciclo)	61.46 (2.2)	63.94 (1.96)	-1.19 (-1.66;-0.66)	61.3 (2.34)	64.67 (1.63)	-1.67 (-2.07;-1.24)

Se muestra la media y desviación típica por grupo y por lado así como la diferencia en los parámetros en términos de *d* de Cohen para la velocidad normalizada, la cadencia y el porcentaje de tiempo de apoyo de los pacientes estudiados.

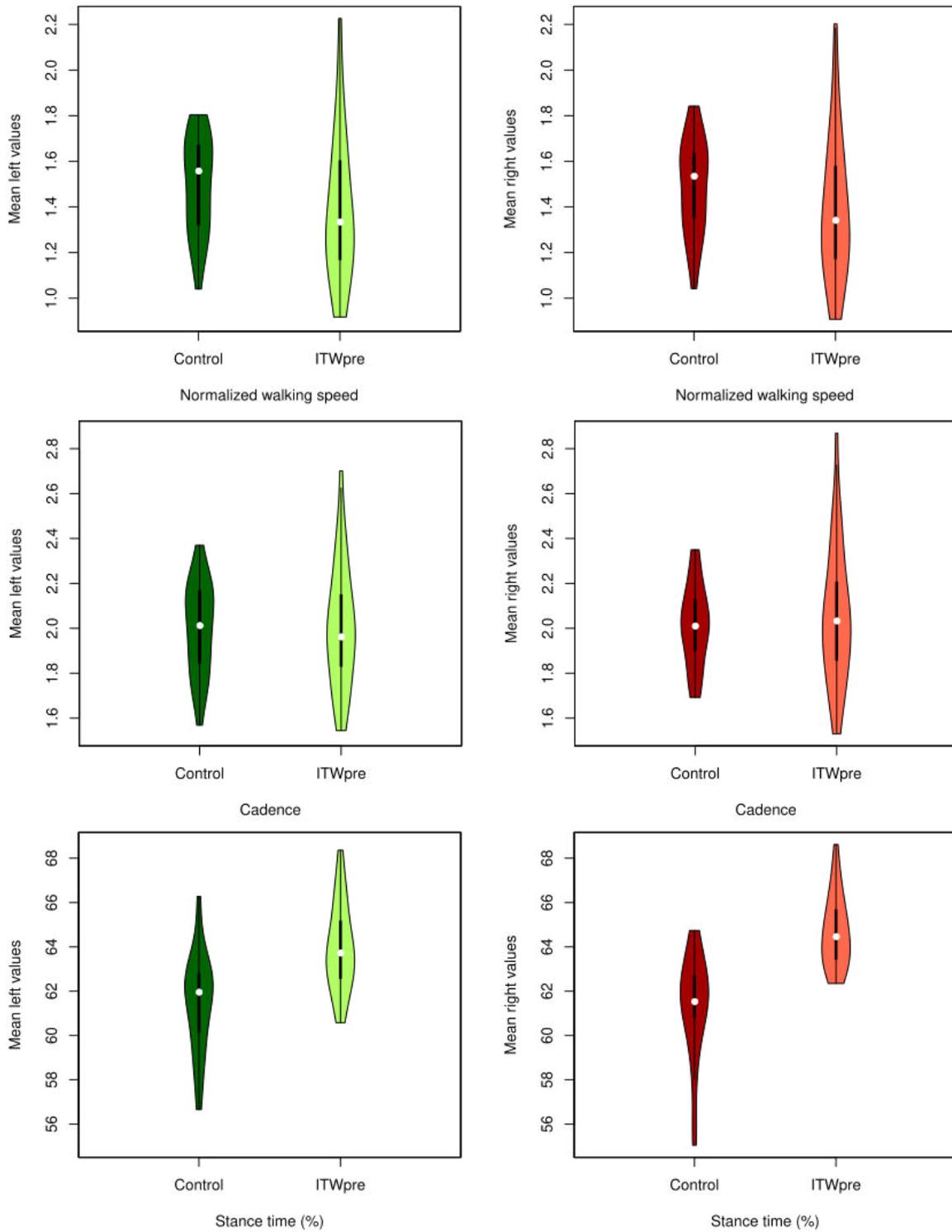


Figura 32. Gráficos de violines para los parámetros espaciotemporales seleccionados.

En verde, se muestran los valores izquierdos y en rojo, los derechos.

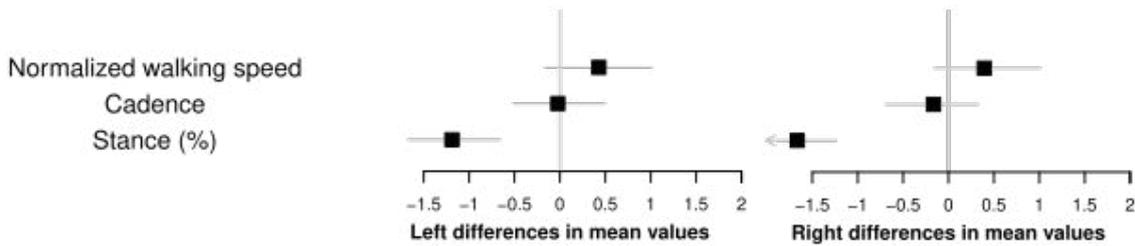


Figura 33. Gráfico de Forest donde se muestran los valores de la d de Cohen para los parámetros espaciotemporales seleccionados para el lado izquierdo y derecho.

Si el cuadradito negro o la barra local tocan el eje vertical, no hay diferencias para ese valor entre los dos grupos. Un valor positivo de d de Cohen indica que el parámetro es mayor en el grupo de normalidad y si es negativo, que el parámetro es mayor en el grupo con MPI.

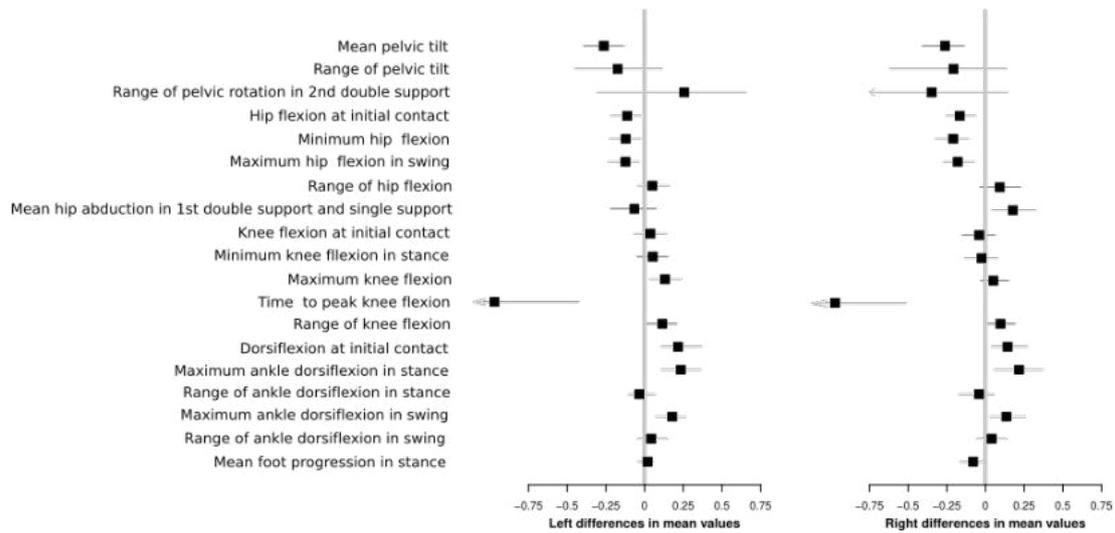


Figura 34. Gráfico de Forest donde se muestran los valores de la d de Cohen para los parámetros cinemáticos seleccionados para el lado izquierdo y derecho.

Si el cuadradito negro o la barra tocan el eje vertical, no hay diferencias para ese valor entre los dos grupos. Un valor positivo de d de Cohen indica que el parámetro es mayor en el grupo de normalidad y negativo cuando el parámetro es mayor en el grupo con MPI.

En la **tabla 19**, se muestran los valores descriptivos y los valores de la d de Cohen y sus intervalos de confianza al 95% para los parámetros cinemáticos seleccionados. Las diferencias entre los grupos se muestran en la **figura 35**.

Tabla 19. Estadística descriptiva y comparación del grupo de niños control y con MPI para el resto de parámetros evaluados.

	Parámetros izquierdos			Parámetros derechos		
	Control Media (desv. típica)	MPI Media (desv. típica)	Diferencia d de Cohen (IC 95%)	Control Media (desv. típica)	MPI Media (desv. típica)	Diferencia d de Cohen (IC 95%)
Inclinación pélvica media (grados)	7.97 (5.16)	15.01 (5)	-0.27 (-0.4; -0.14)	8.02 (5.15)	15.01 (5.19)	-0.26 (-0.41; -0.14)
Rango de inclinación pélvica (grados)	6.12 (1.77)	6.79 (2.06)	-0.18 (-0.46; 0.1)	6.08 (1.66)	6.63 (1.6)	-0.21 (-0.62; 0.13)
Rango de rotación pélvica en 2° doble apoyo (grados)	2.89 (1.29)	2.59 (0.88)	0.25 (-0.32; 0.65)	2.54 (1.23)	3.08 (1.27)	-0.35 (-0.84; 0.14)
Flexión de cadera en el contacto inicial (grados)	33.1 (6.37)	38.05 (6.41)	-0.12 (-0.23; -0.03)	31.68 (6.87)	38.8 (6.16)	-0.17 (-0.26; -0.06)
Flexión mínima de la cadera (grados)	-4.24 (7.07)	2.77 (7.58)	-0.13 (-0.23; -0.03)	-4.55 (6.8)	4.32 (6.18)	-0.21 (-0.32; -0.11)
Flexión máxima de la cadera en fase oscilante (grados)	36.45 (5.71)	41.81 (7.64)	-0.12 (-0.2; -0.04)	35.38 (5.75)	42.52 (7.15)	-0.17 (-0.26; -0.09)
Rango de flexión de la cadera (grados)	41.18 (4.79)	39.61 (6.4)	0.05 (-0.04; 0.16)	40.36 (3.57)	38.56 (5.2)	0.09 (-0.04; 0.23)
Abducción de la cadera en el primer doble apoyo y apoyo único (grados)	2.82 (3.6)	3.67 (3.56)	-0.07 (-0.22; 0.07)	7.45 (3.59)	4.85 (4.09)	0.18 (0.04; 0.32)
Flexión de rodilla en el contacto inicial (grados)	6.99 (5.48)	6.01 (4.6)	0.04 (-0.07; 0.14)	5.65 (5.04)	6.77 (5.4)	-0.04 (-0.15; 0.06)
Flexión mínima de la rodilla en el apoyo (grados)	6.44 (5.49)	4.98 (4.95)	0.05 (-0.05; 0.15)	5.24 (4.95)	5.95 (5.53)	-0.03 (-0.14; 0.08)
Flexión máxima de rodilla (grados)	67.15 (5.71)	63.17 (5.23)	0.13 (0.03; 0.24)	66.9 (5.82)	64.71 (7.25)	0.05 (-0.03; 0.15)
Tiempo hasta flexión máxima de rodilla (% del ciclo de marcha)	72 (1.38)	73.54 (1.27)	-0.87 (-1.37; -0.43)	71.78 (1.39)	73.79 (1.53)	-0.94 (-1.52; -0.52)
Rango de flexión de rodilla (grados)	63.28 (4.79)	59.8 (6.2)	0.11 (0.01; 0.21)	64.28 (6.72)	60.09 (6.42)	0.1 (0.01; 0.19)
Dorsiflexión del tobillo en el contacto inicial (grados)	-0.25 (3.59)	-7.46 (7.42)	0.22 (0.11; 0.37)	-1.45 (3.84)	-6.73 (7.8)	0.14 (0.04; 0.27)

	Parámetros izquierdos			Parámetros derechos		
	Control Media (desv. típica)	MPI Media (desv. típica)	Diferencia d de Cohen (IC 95%)	Control Media (desv. típica)	MPI Media (desv. típica)	Diferencia d de Cohen (IC 95%)
Dorsiflexión máxima del tobillo en el apoyo (grados)	13.5 (3.93)	8.91 (4.89)	0.23 (0.11; 0.36)	13.23 (3.49)	8.41 (5.72)	0.22 (0.06; 0.37)
Rango de dorsiflexión del tobillo en el apoyo (grado)	27.12 (4.8)	28.44 (7.41)	-0.03 (-0.1; 0.07)	26.73 (4.78)	27.59 (4.33)	-0.04 (-0.17; 0.06)
Dorsiflexión máxima del tobillo en la fase oscilante (grados)	3.24 (3.83)	-1.6 (6.36)	0.18 (0.07; 0.27)	2.57 (3.85)	-1.5 (6.8)	0.14 (0.03; 0.26)
Rango de dorsiflexión del tobillo en fase oscilante (grados)	20.28 (5.79)	18.34 (7.67)	0.04 (-0.05; 0.15)	19.43 (5.26)	18.1 (6.24)	0.04 (-0.05; 0.13)
Ángulo medio de progresión del pie en la fase apoyo (grados)	-3.74 (8.62)	-6.19 (13.58)	0.02 (-0.04; 0.06)	-6.66 (5.95)	-2.85 (7.84)	-0.08 (-0.16; 0)

Se muestra la media y desviación típica por grupo y por lado así junto a la diferencia en los parámetros en términos de d de Cohen del resto de parámetros.

Respecto a los **parámetros cinemáticos de la pelvis** observamos en la **figura 35**, que la inclinación pélvica media fue superior en el grupo de pacientes con MPI. No se observaron diferencias en el rango de inclinación o en el rango de rotación pélvica en el segundo apoyo ni en términos de medias ni en la distribución de valores.

Podemos observar los resultados de los **parámetros cinemáticos de la cadera** en la **figura 36**. La media de flexión de la cadera en el momento de contacto inicial está aumentada significativamente en el grupo MPI, aunque todos los sujetos mostraron valores dentro de los límites definidos por el grupo control de referencia. La flexión mínima de la cadera durante el ciclo de marcha se encontraba también significativamente aumentada en el grupo de MPI (ITW). Algunos sujetos mostraban valores mínimamente por encima de los límites definidos por el grupo control de referencia. La flexión máxima de la cadera durante la fase oscilante también estuvo significativamente aumentada en el grupo MPI (ITWpre), con algunos valores mínimamente elevados para el grupo control de referencia. Las medias del rango de flexión de la cadera durante el ciclo de marcha no mostraron diferencias respecto al grupo control. Destaca que algunos pacientes mostraran valores por debajo de los límites de referencia definidos por el grupo control. En cuanto a la abducción de la cadera durante el primer doble apoyo y el apoyo único, no se encontraron diferencias entre las medias de los dos grupos de estudio en el caso del lado izquierdo con un leve aumento significativo en los ciclos correspondientes al miembro inferior derecho.

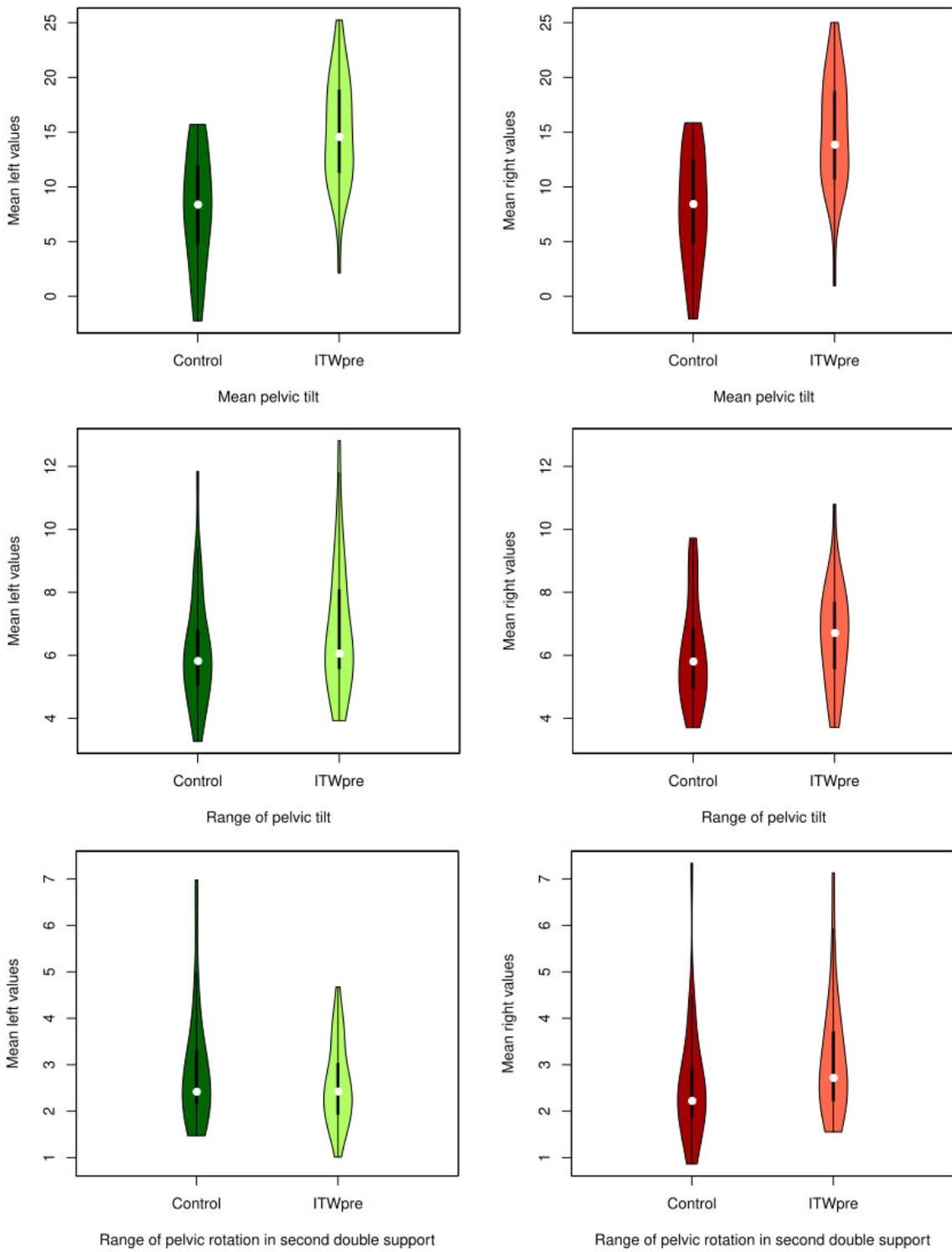


Figura 35. Gráficos de violines para los parámetros cinemáticos de la pelvis seleccionados. En verde, se señalan los valores izquierdos y en rojo, los valores derechos.

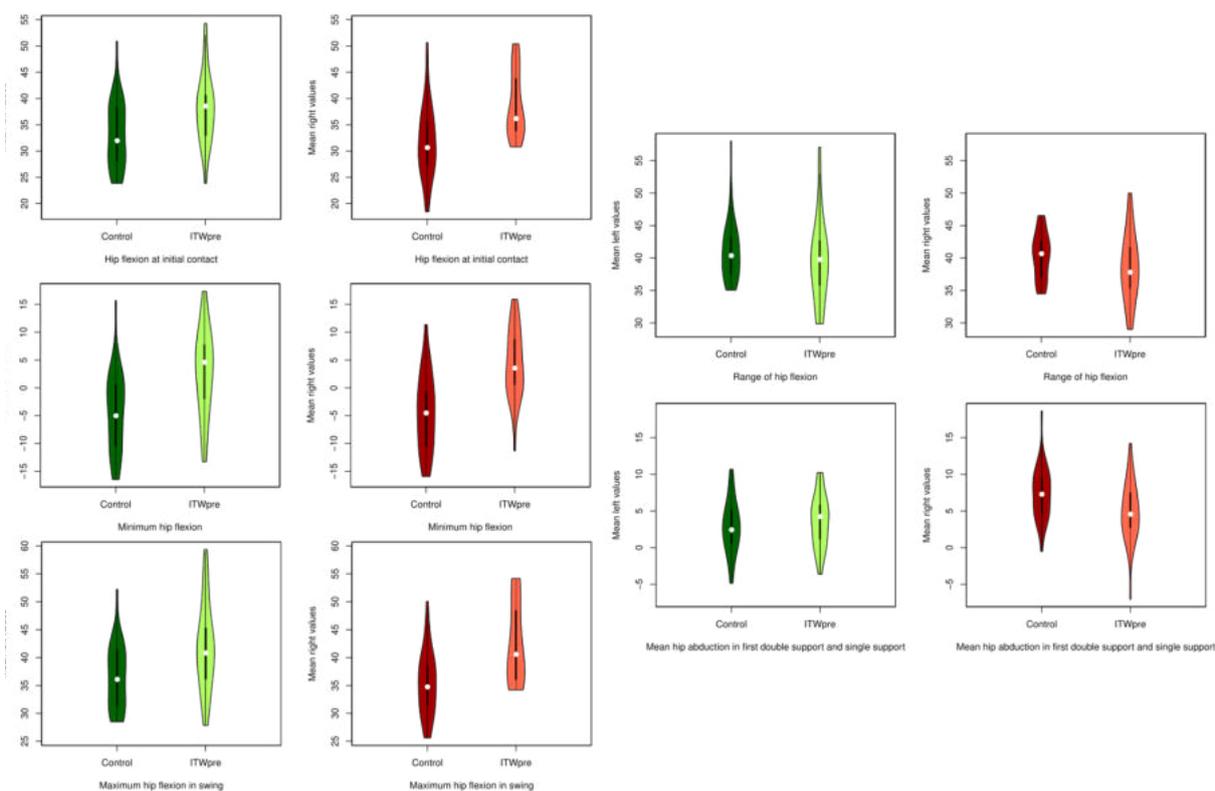


Figura 36. Gráficos de violines para los parámetros cinemáticos de la cadera seleccionados.

En verde, se señalan los valores izquierdos y en rojo, los valores derechos.

La flexión de rodilla en el contacto inicial o la flexión mínima durante el apoyo mostraron valores muy similares en ambos grupos. La flexión máxima de la rodilla fue significativamente menor para el lado izquierdo del grupo MPI, mostrando esta misma tendencia en el lado derecho. Un grupo relevante de ciclos tuvo valores por debajo de los límites definidos por el grupo control de referencia o en los límites bajos de este grupo. El tiempo hasta la flexión máxima de rodilla mostró un retraso considerable en el grupo de sujetos con MPI, en relación con la prolongación de la fase de apoyo. El rango de flexión de rodilla estaba significativamente disminuido en el grupo MPI, con un porcentaje importante de los ciclos por debajo de la media del grupo control de referencia.

Los pacientes del grupo MPI mostraron de media una mayor flexión plantar (menor dorsiflexión) tanto en el momento inicial como durante el apoyo y la fase oscilante. Es interesante comprobar cómo la distribución de los valores de la dorsiflexión en el momento inicial, durante la fase de apoyo y durante la fase oscilante mostraron gran variabilidad en el grupo de estudio. Coexistían así pacientes con valores entre los intervalos definidos por el control de referencia con otros pacientes fuera de dichos límites. En cuanto a los rangos de dorsiflexión durante la fase de apoyo y durante la fase oscilante no se objetivaron ni diferencias en las medias ni variaciones en la distribución de los valores dentro de los grupos. Por último, el valor medio de progresión del pie en el apoyo mostró valores similares entre el grupo control y la MPI.

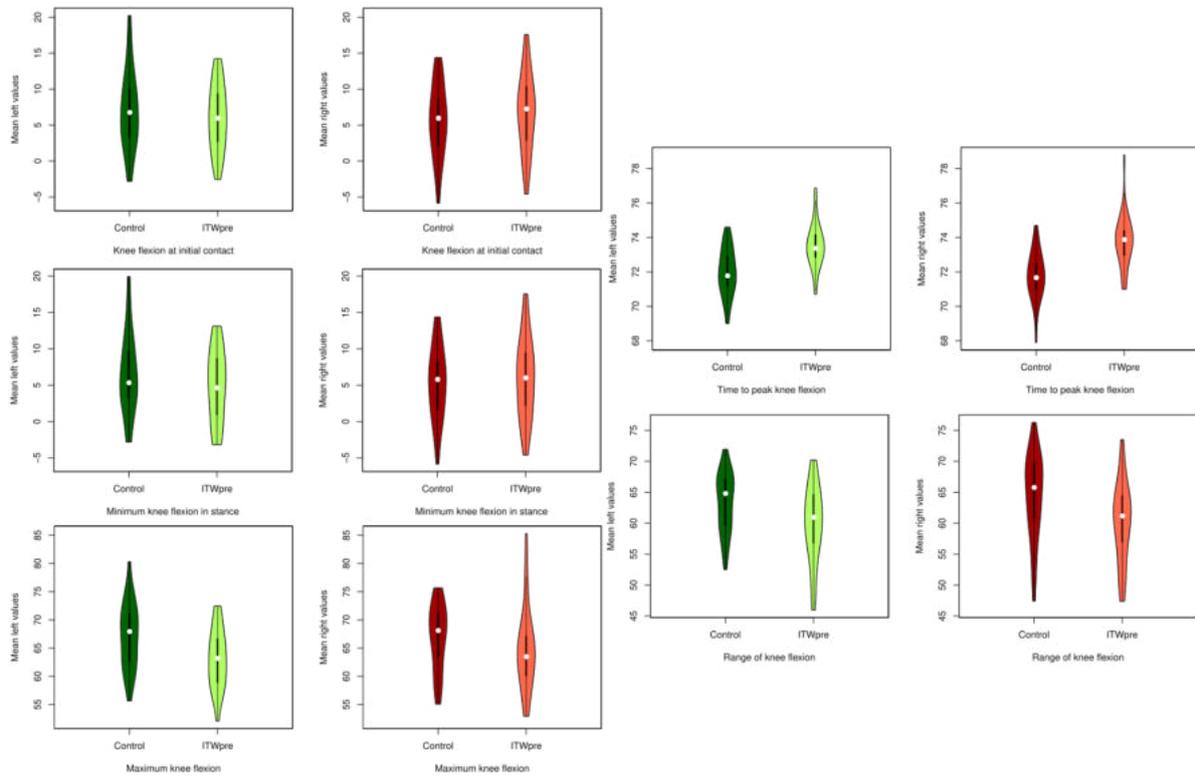


Figura 37. Gráficos de violines para los parámetros cinemáticos de la rodilla seleccionados.

En verde, se señalan los valores izquierdos y en rojo, los valores derechos.

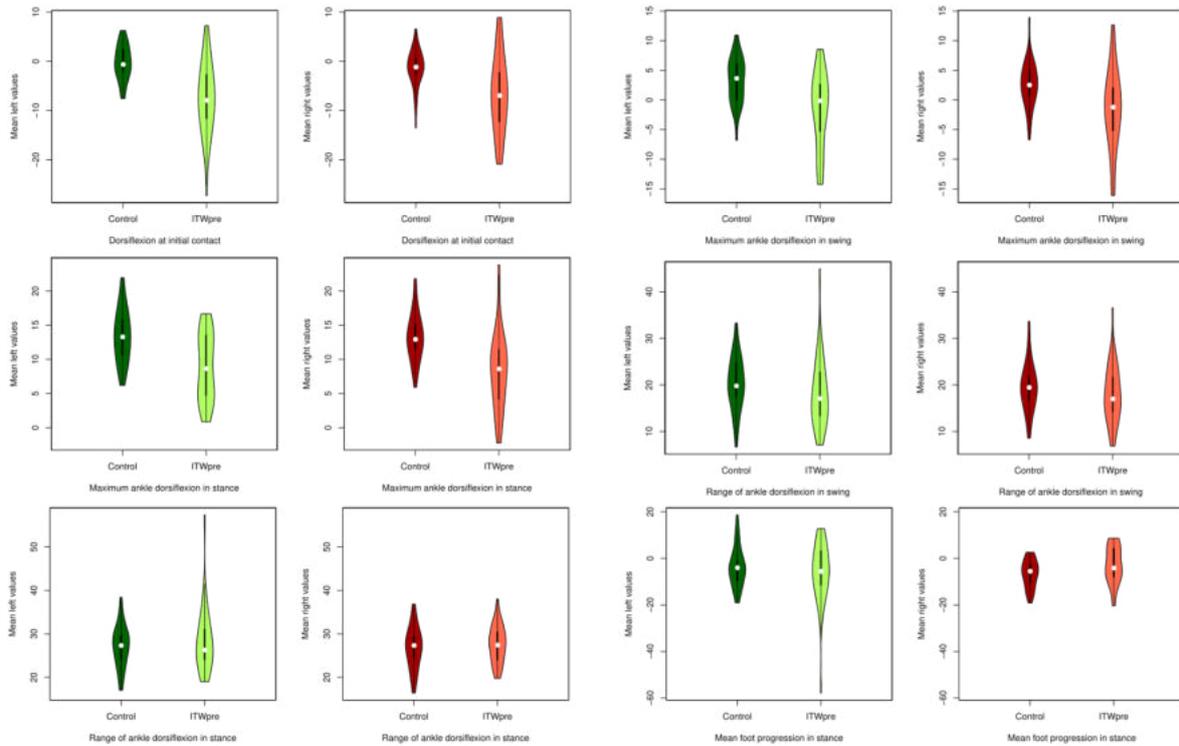


Figura 38. Gráficos de violines para los parámetros cinemáticos del tobillo seleccionados.

En verde, se señalan los valores izquierdos y en rojo, los valores derechos.

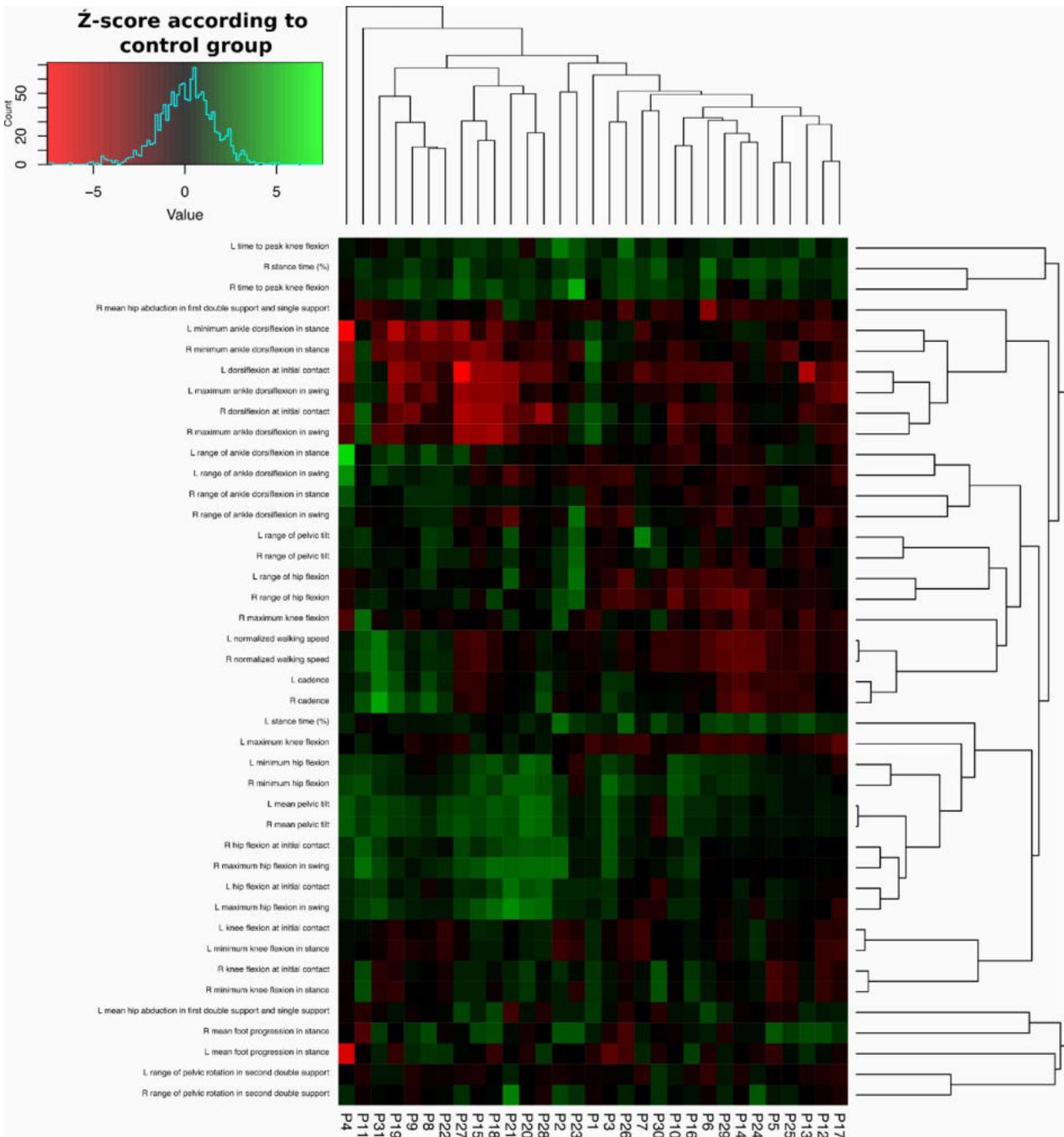


Figura 39. Heatmap donde se representan los Z-score para los parámetros de marcha en los pacientes con MPI.

El valor de un Z-score para un parámetro de marcha se representa en la interacción del parámetro de marcha (fila) con un paciente concreto (columna) mediante una escala de color. La escala de color se representa en la esquina superior izquierda y va desde -5 (rojo) a +5 (verde). Los pacientes (columnas) y los parámetros de marcha (filas) están ordenados mediante análisis de conglomerados jerárquicos cuyo resultado se muestra en los dendrogramas de la parte superior y de la derecha. Los pacientes se ordenan mediante la distancia euclídea y los parámetros de marcha mediante un índice de distancia basado en la correlación entre las mismas (1 – valor absoluto del coeficiente de correlación de Spearman). Se puede apreciar la existencia de grupos entre los parámetros de marcha pero sin claros grupos en los pacientes.

En la **figura 39**, mostramos el heatmap de los parámetros seleccionados. Utilizando la clasificación por agrupamiento jerárquico, no podemos describir claros grupos dentro de los niños con marcha de puntillas idiopática. Esto puede apreciarse en el dendrograma de la porción superior del heatmap (**figura 39**). Aunque existe cierto ordenamiento dentro de los pacientes por niveles de gravedad, todos los pacientes mostraban una distancia importante con su vecino más próximo sin agruparse claramente de forma característica. En las variables (dendrograma de la porción derecha), sí observamos algunos agrupamientos. Los parámetros de la dorsiflexión formaron dos agrupamientos: el primero formado por la dorsiflexión del tobillo en contacto inicial, la mínima dorsiflexión en fase de apoyo y la máxima dorsiflexión en fase oscilante y el segundo por los rangos de dorsiflexión en fase de apoyo y fase oscilante. Las variables de velocidad normalizada de marcha y cadencia se agruparon en un mismo grupo. También lo hicieron la inclinación pélvica con parámetros de la flexión de la cadera como la flexión en el contacto inicial, la flexión mínima de la cadera y la flexión máxima de la cadera durante la fase oscilante. Los rangos de flexión de cadera y de inclinación pélvica también se relacionaron entre sí. Se puede apreciar que los pacientes con mayor alteración en los parámetros de dorsiflexión del tobillo tendían a presentar parámetros más alterados de inclinación pélvica y flexión de cadera. Los pacientes con menor velocidad y cadencia tenían valores menos alterados de la dorsiflexión del tobillo.

Mediante el uso de la distancia de DTW fuimos capaces de analizar la distribución de pacientes sin incurrir en sesgos por la selección de parámetros cinemáticos concretos, como se puede observar en la **figura 40** donde podemos distinguir una dispersión de los ciclos de marcha. Sin embargo, no encontramos grupos claros en torno a los cuales se pueda clasificar a los ciclos de los pacientes, salvo algún ciclo aislado o grupo pequeño que sí está separado del grupo principal. Este hecho se constató tanto utilizando todas las series temporales a la vez (distancia DTW multivariante) como cuando se utilizaron las series temporales una por una (distancia DTW univariante para cada movimiento angular) mostrando en la **figura 41**. Interpretamos este resultado como que a pesar de que la marcha idiopática de puntillas es un fenómeno muy variable, **corresponde más a un espectro fenotípico** que a distintos grupos independientes que tienen esa manifestación en común.

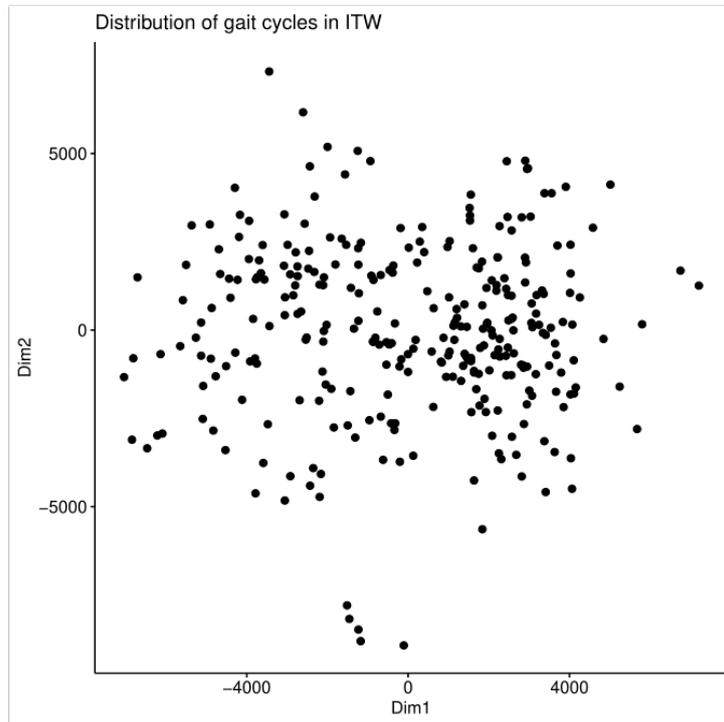


Figura 40. Resultados del escalado multidimensional para las distancias DTW entre los ciclos.

Se calcula a partir de los datos de 15 movimientos angulares (inclinación pélvica, rotación pélvica, oblicuidad pélvica y flexión, rotación y abducción de cadera, rodilla, tobillo y antepié). Cada ciclo se representa como un punto. La distancia entre los puntos es un estimado de la distancia DTW real representada en 2 dimensiones para facilitar la interpretación de los resultados. Obsérvese la dispersión continuada de los puntos sin existir grupos separados entre sí, salvo algún pequeño grupo parcialmente separado.

En la **figura 42**, mostramos la clasificación mostrada en la **figura 41** indicando los ciclos que corresponden a cada paciente (en verde se muestran los ciclos izquierdos y en rojo, los ciclos derechos). Obsérvese que la marcha de cada sujeto es variable aunque los ciclos tienden a hacer próximos entre sí (quizá la única excepción es el paciente P21), mostrando además mayor similitud para los distintos ciclos del mismo miembro inferior (es decir, los ciclos izquierdos son más próximos los izquierdos y los derechos, a los derechos).

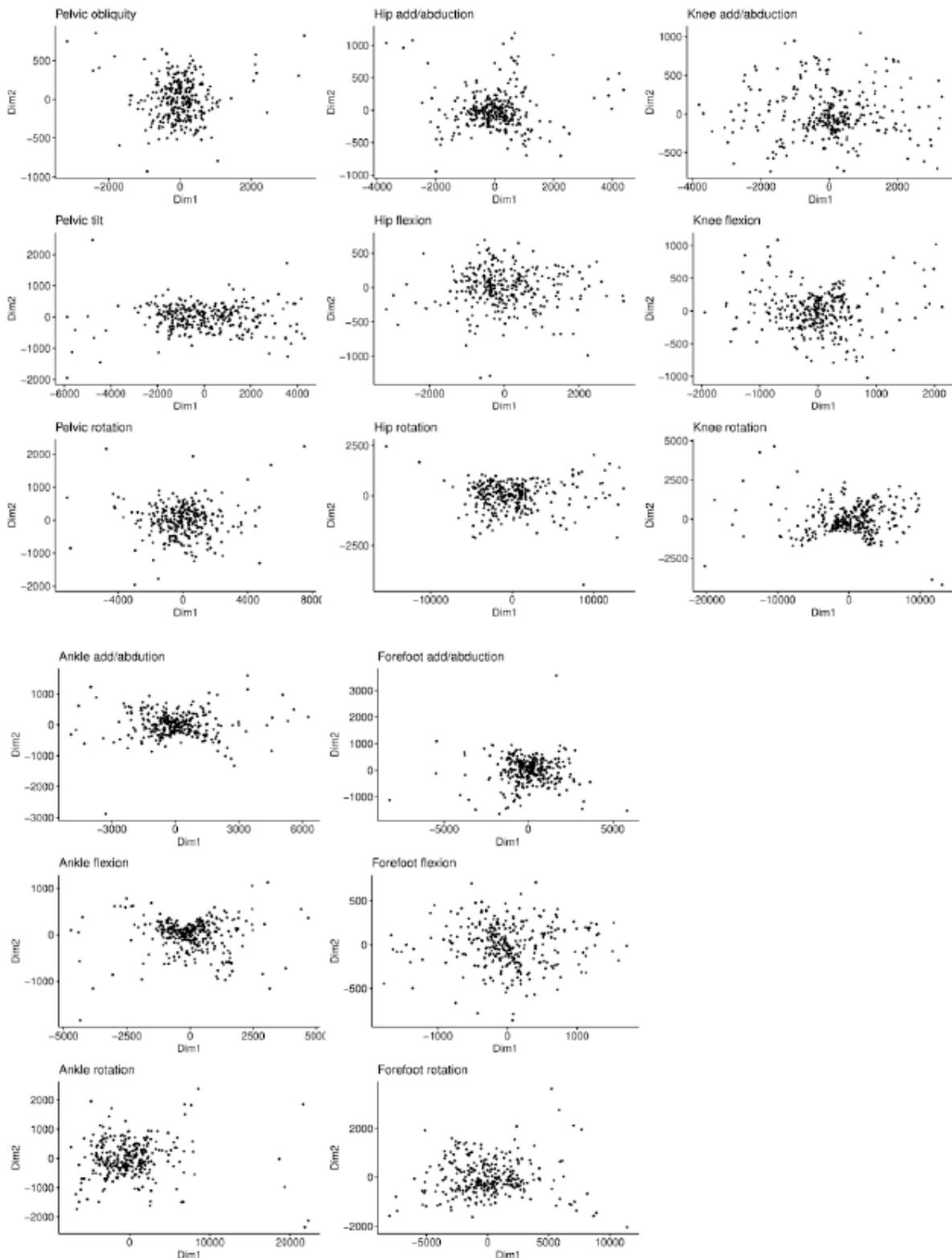


Figura 41. Resultados del escalado multidimensional para las distancias DTW de los diferentes movimientos angulares entre los ciclos.

En cada gráfica, se muestra la dimensión 1 y la dimensión 2. Cada ciclo se representa como un punto. La distancia entre los puntos es un estimado de la distancia DTW real representada en 2 dimensiones para facilitar la interpretación de los resultados.

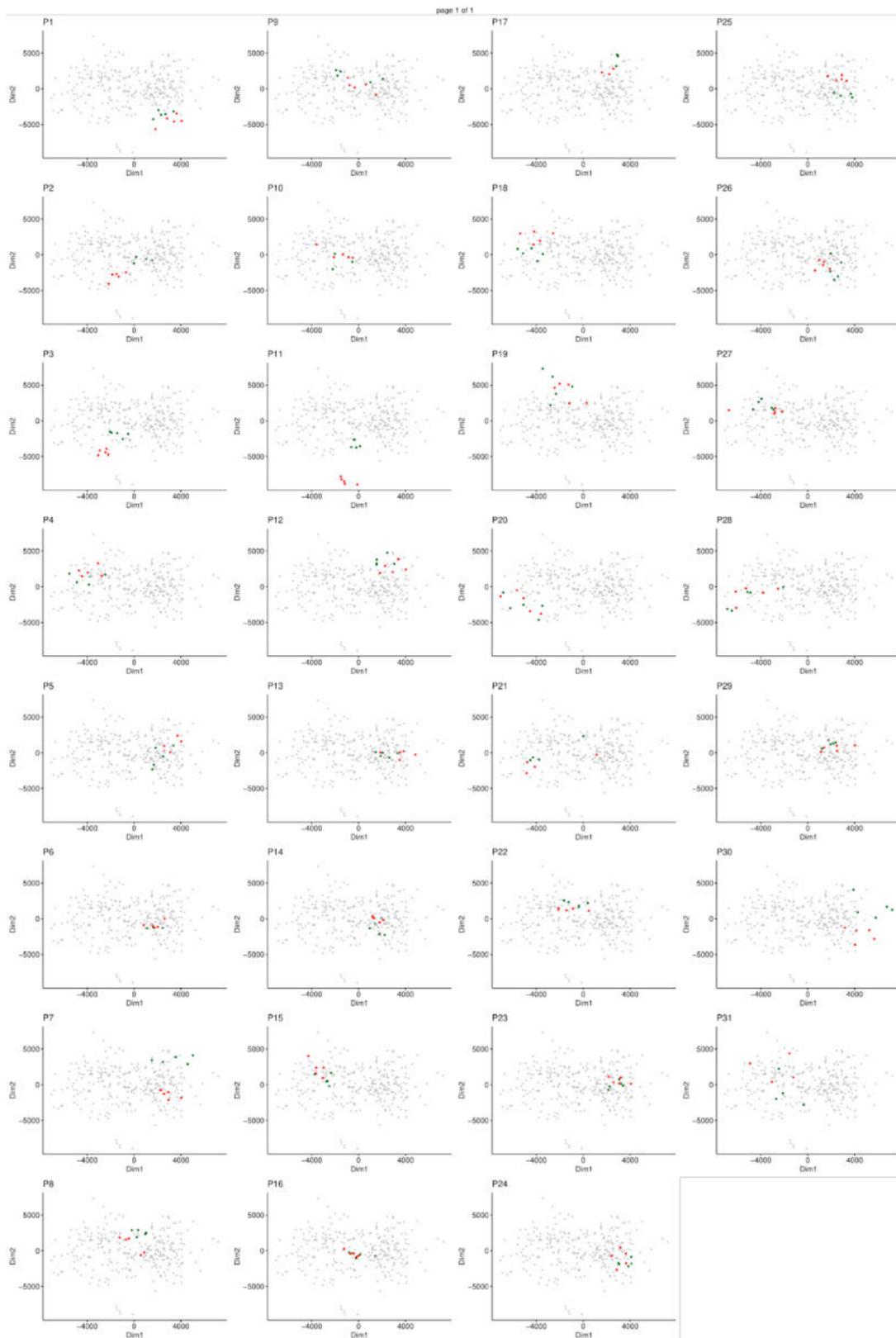


Figura 42. Correspondencia del escalado multidimensional para las distancias DTW para cada sujeto.

En verde los ciclos izquierdos y en rojo, los derechos. Se puede apreciar la proximidad entre ciclos del mismo sujeto.

4.3.3. Limitaciones y discusión del objetivo 3

Nuestro estudio describe un grupo de pacientes con marcha de puntillas idiopática con metodología de análisis instrumentado de marcha desarrollado y empleado en anteriores trabajos con éxito (178) (179) (191).

Hemos utilizado dos estrategias para poder procesar los datos extraídos del análisis de nuestra muestra de MPI. Por un lado, se describen los parámetros espaciotemporales y cinemáticos que considerábamos más relevantes para la definición de las características de marcha en este grupo de niños. Los hallazgos demuestran que estos pacientes tienden a presentar una marcha con un tiempo de apoyo aumentado mientras conservan su cadencia y en la mayor parte de los casos la velocidad normalizada de marcha respecto a un grupo control de referencia. El tiempo de apoyo no se agrupó de forma conjunta con otros parámetros cinemáticos cuando lo estudiamos mediante análisis de conglomerados jerárquicos. En la pelvis, los pacientes con MPI presentaron una mayor inclinación pélvica que interpretamos como consecuencia de una flexión de cadera disminuida durante el apoyo por la asociación de estos parámetros de la cadera en el análisis de conglomerados jerárquicos y la literatura previa (158). La flexión de cadera disminuida durante la fase de apoyo y la fase oscilante podría ser consecuencia del falso aumento de la longitud del miembro inferior, explicando también la presencia de mayor alteración en los parámetros que miden esta flexión de cadera disminuida en los pacientes que presentan mayor dorsiflexión. En la rodilla, el aumento del tiempo hasta la flexión máxima de la rodilla parece consecuencia del aumento del apoyo. La flexión máxima de la rodilla también está disminuida. Entre los mecanismos por el que podría suceder, se encuentra que este problema sea secundario a la disminución de la flexión máxima de la cadera, aunque no encontramos una clara relación entre estos parámetros en nuestra muestra.

Mediante diversas técnicas hemos conseguido demostrar que el patrón cinemático de los niños con MPI es un continuo donde difícilmente se pueden configurar patrones específicos. Pensamos que es importante definir criterios de gravedad desde el punto de vista del AIM que ayuden al clínico. Un objetivo más allá de la presente tesis sería la creación de índices de desviación de la marcha que incluyan los fenómenos clínicos descritos en los objetivos previos y que se ajustarán para tener un valor pronóstico a fin de poder detectar problemas futuros de forma precoz.

Recordemos algo importante respecto al diseño del estudio. A modo de ejemplo, si bien en la bibliografía clásica se describen aspectos como el del acortamiento aquíleo con una prevalencia hasta del 46% en pacientes con MPI (9), a la hora de determinar el comportamiento de población pediátrica española, no se dispone de estudios actualizados de similares características realizados sobre grandes poblaciones de menores sintomáticos con MPI españoles. Ello se debe principalmente a que para determinar la prevalencia de clínica del grupo de MPI, precisamos no sólo abarcar un número muy elevado de pacientes a estudiar sino que también tanto por diseño como por organización, al menos en nuestro caso, no podíamos alcanzar valores epidemiológicos

aplicables a la globalidad. La naturaleza del estudio (niños derivados a rehabilitación) ya incluía un sesgo “selección” que conllevaba que muchos pacientes fueran derivados “exclusivamente” para tratamiento, sospechando de forma clara que perdíamos parte de la muestra “subclínica” o con “baja-nula repercusión” estimada por parte de los derivadores potenciales de atención primaria y/o especializada que no consideraban preciso tratar al menor. Los investigadores asumimos que el aspecto epidemiológico del estudio está claramente condicionado por nuestras características organizativas, pero que nuestros resultados arrojan luz al menos sobre la población de los niños más sintomáticos con MPI. No poder vislumbrar la naturaleza de resultados absolutos por la imposibilidad de acceder a la muestra completa de pacientes sintomáticos y asintomáticos era un condicionante previamente asumido en el estudio por los investigadores. A cambio la fortaleza de la riqueza de datos, el procesado de información y el diseño organizativo centralizando en una sola consulta (la referente del área para tratamiento) permitía recoger los casos más floridos desde la perspectiva sintomática, en sinergia con el cribado potente descrito en el objetivo 1 y nos permitía recoger casuística relevante desde la perspectiva clínica. En definitiva, el diseño, cuestiones institucionales y organizativas, junto la alta prevalencia de la MPI descrita, determinó que las conclusiones extraídas fueran aplicables no al grupo completo sino al sintomático, dato fundamental para entender y considerar representativos los hallazgos del colectivo de casos remitido por MPI a la consulta responsable del tratamiento de rehabilitación pediátrica.

Resumiendo, pese a tantas dificultades y limitaciones, la metodología de selección y análisis se demostró eficaz y robusta con las muestras evaluadas de pacientes.

Destacar entre las limitaciones encontradas durante el desarrollo del objetivo 3 que pese a la inicial colaboración por parte de las familias, pronto se observó que estas expresaban reservas por los traslados y el tiempo requerido para completar estudio voluntario. La distancia entre el Hospital Infanta Sofía y el laboratorio de análisis de movimiento era de casi 18 Km además de que su comunicación en transporte público precisaba siempre más de una hora de desplazamiento desde el Hospital Infanta Sofía según la hora de cita. Este motivo, junto a otras razones menos frecuentes, obligó a que de todos los pacientes infiltrados apenas un tercio se prestaron a completar el AIM. A las dificultades logísticas de distancia y tráfico hasta llegar al laboratorio se sumó la no obligatoriedad de su realización para continuidad del procedimiento y seguimiento, lo que delimitó la muestra disponible, pues por extraño que parezca, muchas familias no lo consideraron relevante para el tratamiento y seguimiento del paciente. La voluntariedad del procedimiento produjo un sesgo de selección por parte de las familias con ambos padres trabajadores y/o con más hijos menores en los que la logística familiar para el traslado al centro alejado varios kilómetros, se complicaba todavía más. Esas circunstancias contribuyeron a dificultar la cumplimentación del programa de evaluación completo en laboratorio, obligando a prolongar más el tiempo de seguimiento a fin de poder alcanzar un número relevante de casos.

Añadir en la misma línea de las limitaciones que nuestra muestra es representativa de los casos sintomáticos, lo que dificulta la comparación con otras muestras de la literatura que incluyan

casos asintomáticos. El diseño del estudio no nos permite acceder a la totalidad de casos a fin de establecer la incidencia y prevalencia real, menor de la referida por la bibliografía, por tanto.

Por último destacar que nuestro estudio se centra en la cinemática y en las variables espaciotemporales por lo que en futuros estudios de nuestro laboratorio, pensamos ampliar este análisis a la cinética y al uso de modelos musculares mejor evaluados desde la perspectiva clínica también, que nos permitan ahondar en el significado funcional de nuestros hallazgos.

4.3.4. Conclusiones del objetivo 3

Como ya comentamos, gracias al diseño del estudio, los pacientes de nuestra muestra con MPI presentaron un sesgo de selección por su “síntomatología” al remitirse a consulta de rehabilitación por algún motivo, ya que en la mayoría de casos el motivo de derivación sólo constaba como “para valoración y/o para tratamiento” indistintamente. No sería descabellado suponer que nos enfrentamos a una amalgama de “casos más o menos floridos” del grupo global de MPI, del que suponiendo una prevalencia del 5% (rango entre 2-24%) habríamos seguido y tratado menos del 10%. Aunque como ya se ha comentado, no estaba en nuestra intención ni capacidades acceder al total de niños con MPI del área de influencia para el estudio y seguimiento de las variables clínicas de nuestra selección de menores si pudimos extraer conclusiones respecto al grupo sintomático seguido en el estudio. Respecto a los pacientes recibidos en consulta, para un área como la nuestra los menores cursaban con clínica susceptible de generar derivación en un 5 - 6% de casos estimados. A modo de ejemplo en el muestreo realizado, de los posibles pacientes de 5 a 6 años del área, esperábamos recibir hasta 187 pacientes/año con MPI, pero como comentábamos en el muestreo realizado respecto a cuantos pacientes se recibían anualmente en rehabilitación de esos 187 tan solo fueron remitidos 17 menores del mismo grupo etáreo, es decir menos del 10% de la población total estimada (ver apartado 3.2) que deberíamos haber evaluado.

Por otro lado, puesto que como estrategia adicional de nuestro estudio utilizamos la distancia DTW para evitar la selección de parámetros a priori, al combinar esta estrategia con esclavo multidimensional, hemos podido demostrar que **la MPI es un fenómeno continuo**, similar al que sucede en procesos de tipo adaptativo o gradual. Un ejemplo para entender el modelo podría ser la fiebre, que presenta un amplio rango de valores límites y que obliga a determinar unos valores a partir de los cuales se considera patológico referenciando con la población normal. Los resultados encontrados con nuestra metodología no soportan el uso restrictivo y restringido de la clasificación clínica de gravedad propuesta por otros autores (83), pero apoyan la tesis de proceso “gradual o adaptativo en el tiempo y el espacio”.

La configuración en forma de espectro continuo justifica la importancia cuantitativa de cada parámetro y la necesidad de incluir un análisis de varias variables de marcha para comprender cambios en la cinética y cinemática de la MPI con el tratamiento, dada la interrelación entre dichas variables.

4.4. Objetivo 4. Cambios cinemáticos con toxina botulínica en niños con MPI

4.4.1. Justificación del objetivo

Para poder evaluar adecuadamente la validez de la aplicación de la TxBA en los menores con MPI de nuestra muestra y una vez evaluada su situación basal con AIM en el laboratorio MOVUAM de la ONCE, realizamos un segundo estudio durante el período post-infiltración, siempre antes de 2 meses de haberse realizado la aplicación de TxBA y tras haber completado un ciclo de fisioterapia de dos semanas postinfiltración con el protocolo aplicado en el servicio de rehabilitación del HUIS. Se actuó de este modo por cuestiones éticas y metodológicas, pues primaba el bienestar del menor por encima de cualquier dificultad organizativa y la prioridad era respetar las recomendaciones de la biblioteca Cochrane (97) respecto a cualquier intervención sobre MPI. Según dichas recomendaciones la fisioterapia debía considerarse el tratamiento de base como buena práctica clínica de forma sinérgica en caso de infiltración de TxBA para MPI (105). Se compararon los cambios antes y después de ser infiltrados los niños para objetivar cambios derivados de la intervención.

4.4.2. Pacientes y métodos incluyendo el análisis de datos

De los 100 pacientes inicialmente derivados a rehabilitación, tras cribado con la herramienta TWT y exploración sistematizada, se obtuvo la “**cohorte 1**” formada con 77 pacientes con MPI, descartando 23 pacientes con otros diagnósticos. De esa cohorte 26 pacientes pudieron ser estudiados mediante AIM en el laboratorio de análisis de movimiento de la ONCE (MOVUAM) por lo que a fin de mejorar la caracterización de la cinética y la cinemática de la MPI, se amplió el reclutamiento a casos externos a los de la consulta de rehabilitación del HUIS. Empleando el mismo cribado retrospectivo de nuestro estudio para homogeneizar caso, se formó la “**cohorte 3**” constituida por 31 menores con MPI y AIM válido para estudio cinético y cinemático basal. De ellos 26 fueron tratados con el protocolo con TxBA configurando la “**cohorte 4**” de pacientes con MPI para estudiar su AIM post-tratamiento y compararlo con su marcha “basal” previa.

En resumen, los pacientes diana de este cuarto objetivo han configurado la “**cohorte 4**”, constituida por 26 pacientes con MPI analizados mediante AIM válidos previo y posterior a tratamiento. Los pacientes fueron seleccionados en la “**cohorte 4**” siempre que tuvieran una infiltración con toxina botulínica en tríceps sural en los 2 meses posteriores al análisis de marcha y dispusieran de un AIM válido desde el punto de vista técnico al menos 4 meses después de la infiltración con toxina botulínica para su comparación y contraste de cambios.

El **análisis de marcha** siguió la misma sistemática descrita en los objetivos previos. Se seleccionaron 3 parámetros espaciotemporales (velocidad normalizada de marcha, cadencia y porcentaje de tiempo de apoyo) y 28 parámetros cinemáticos que se corresponden a los empleados en el objetivo 3 de esta tesis.

4.4.2.1. Estadística descriptiva empleada

Como paso previo a un análisis más avanzado, se describieron las distribuciones de los valores medios de los parámetros de marcha medios antes y después de la infiltración de toxina, para cada lado en cada sujeto, utilizando la mediana como parámetro de centralidad y el primer y tercer cuartil como parámetros de dispersión. También se calculó la diferencia entre los parámetros entre antes y después, cuya distribución se expresó en los mismos términos.

4.4.2.2. Modelos lineales mixtos

Para cuantificar el efecto de la TxBA sobre la marcha de estos pacientes se usaron modelos lineales mixtos. Se decidió actuar así porque, explicado en pocas palabras, los modelos lineales mixtos son una tecnología estadística que corresponde a una extensión de los modelos de regresión lineal multivariante. Son útiles cuando dentro de los datos existe alguna estructura que produce que las observaciones no sean independientes, es decir, cuando existen observaciones relacionadas entre sí por algún motivo subyacente (mismo sujeto, misma unidad de observación,...). En nuestro caso particular, disponemos de resultados que provienen del mismo sujeto, ya sea porque se han empleado sus parámetros en varias ocasiones (antes y después del tratamiento) o porque existen ciclos en los cuales la extremidad evaluada es la izquierda junto a otros en los que es la derecha. La ventaja de estos modelos respecto a otras alternativas (por ejemplo, agregar los resultados del mismo sujeto del mismo lado, como hemos hecho en el objetivo 3 o en la descripción de los resultados) reside en que así se incluyen todas las observaciones, permitiendo añadir la estructura jerárquica dentro de los resultados (252).

Para ello, los modelos de efectos mixtos separan las variables dependientes en dos grandes grupos. Por un lado, están las variables “efectos fijos” y por otro, las variables “efectos aleatorios”. Los modelos de efectos mixtos asumen que las variables de efectos fijos tienen un efecto distribuido de forma similar en todas las observaciones, independientemente del grupo de datos al que corresponda, mientras que el efecto de las variables de efectos aleatorias se distribuye como su nombre indica de forma aleatoria y similar en cada clúster de observaciones (253).

Se ajustó un modelo para cada parámetro de marcha seleccionado. En este modelo el parámetro de marcha en cada ciclo de marcha era la variable dependiente. Como variables independientes, se incluyó como efecto fijo el estado de infiltración en el momento del AIM (pre-tratamiento

vs. post-tratamiento) y como efectos aleatorios, el sujeto y el lado al que corresponde el ciclo (anidado dentro del sujeto).

Podemos resumir al modelo, con la siguiente ecuación:

$$Y = \beta_0 + \beta_1 * estado.infiltracion + \mu_{ID} + \mu_{lado:ID} + \epsilon.$$

Donde...

Y es el vector del parámetro espaciotemporal o cinemático (variable dependiente) formado por cada dato de cada ciclo en sujeto

B₀ es la intersección fija (corresponde al valor medio del parámetro Y cuando el resto de variables son 0).

B₁ es la predicción de cambio en el valor del parámetro Y según el estado de infiltración (pretratamiento o post-tratamiento)

estado.infiltración es un vector correspondiente a una variable dicotómica cuyo valor es 0 si el análisis instrumental de marcha se realiza antes de la infiltración o 1 si se realiza después.

μ_{ID}, μ_{lado:ID} son los vectores de los coeficientes aleatorios correspondientes a cada sujeto y a cada lado en cada sujeto

ε son los residuales de la regresión

Así, el efecto de la infiltración de toxina podría cuantificarse por el coeficiente β_1 . Para facilitar la interpretación del mismo mostraremos los resultados en términos absolutos.

Los modelos se ajustaron mediante una aproximación bayesiana utilizando métodos tipo “Markov-chain Monte Carlo” (MCMC), que permitirían ajustes más robustos. Utilizamos priors no informativos de distribución gaussiana para los efectos fijos y de distribución inversa de Whishart para las varianzas. Se utilizó el paquete MCMCglmm de R (254). Se calculó el intervalo de densidad con el 95% de probabilidad posterior más alto: el intervalo HPD (“highest probability density”) 95%.

4.4.3. Resultados del protocolo incluyendo TxBA no recombinante

La **tabla 20**, se muestran los estadísticos descriptivos (mediana, cuartil 1 y cuartil 3) de los valores medios para cada parámetro en los ciclos izquierdos y derechos del niño, además de la diferencia pre y postratamiento entre la media de cada parámetro en sus ciclos izquierdo y derecho. La tabla incluye los resultados del modelo de efectos mixtos. Analizaremos detalladamente los resultados parámetro por parámetro.

La velocidad de marcha normalizada y la cadencia mostraron mínimos cambios en los sujetos. El porcentaje de tiempo de apoyo disminuyó de manera significativa tras la infiltración. Aunque los cambios fueron muy variables dentro del grupo (véase la amplia distribución de las diferencias entre los valores medios, izquierdos y derechos), de media, se observó una reducción en torno a 1,4% de tiempo de apoyo.

La inclinación pélvica media disminuyó significativamente. Sin embargo, la distribución dentro del grupo de los cambios en esta variable fue muy amplia. El rango de inclinación pélvica tuvo pequeños cambios y aunque el intervalo de credibilidad es estrecho e incluye al cero, encontramos cierta tendencia a su disminución tras terapia. El rango de rotación pélvica en el segundo doble apoyo aumentó significativamente y la diferencia de valores medios en los sujetos también tendió a ser positiva.

La flexión mínima en el contacto inicial y la flexión mínima de cadera disminuyeron poco (valores por debajo de 2 grados según intervalo de credibilidad) con valores muy variables dentro del grupo. La máxima flexión de cadera mostró una leve disminución que no llegó a ser estadísticamente significativa. El rango de flexión de cadera o la abducción media de cadera durante el primer doble apoyo y el apoyo único mostró cambios variables dentro del grupo sin demostrar cambios significativos en el modelo.

La flexión de la rodilla en el contacto inicial y la flexión mínima de la rodilla durante el apoyo disminuyeron, pero también fueron cambios pequeños (valores por debajo de 2 grados según el intervalo de credibilidad). La mayoría de los sujetos mostraron valores muy similares antes y después de la infiltración. La flexión máxima de la rodilla no mostró cambios significativos y los valores cambiaron de forma variable en los sujetos dentro de un intervalo relativamente estrecho. El pico de flexión de la rodilla no se adelantó ni atrasó y la mayoría de los sujetos mantuvieron valores similares antes y después de la infiltración. El rango de flexión de la rodilla aumentó levemente.

La dorsiflexión del tobillo en el contacto inicial aumentó significativamente, aunque los cambios fueron relativamente modestos (de 1,4 a 3,1 grados según el intervalo HPD); además, los resultados fueron variables en los sujetos, como muestran los parámetros de distribución de la diferencia. La dorsiflexión máxima en el apoyo mostró cambios variables dentro del grupo sin una diferencia significativa. El rango de dorsiflexión del tobillo en fase de apoyo, la dorsiflexión máxima en la fase oscilante, el rango de dorsiflexión del tobillo en la fase oscilante y el ángulo de progresión media durante el apoyo no cambiaron significativamente.

Tabla 20. Estadística descriptiva de los parámetros espaciotemporales y cinemáticos izquierdos y derechos junto a las diferencias entre los análisis instrumentales de marcha antes y después de la infiltración de TxBA.

	Valor medio izquierdo pre- infiltración Mediana (Q1-Q3)	Valor medio izquierdo post -infiltración Mediana (Q1-Q3)
Velocidad normalizada (m/s)	1.32 (1.16 ; 1.59)	1.33 (1.17 ; 1.58)
Cadencia	1.96 (1.86 ; 2.2)	2.05 (1.88 ; 2.19)
Tiempo de apoyo (% del ciclo)	63.52 (62.38 ; 65.28)	64.19 (63.16 ; 65.4)
Inclinación pélvica media (grados)	14.93 (10.89 ; 18.85)	15.15 (10.59 ; 19.22)
Rango de inclinación pélvica (grados)	6.21 (5.61 ; 8.22)	6.73 (5.56 ; 7.67)
Rango de rotación pélvica en el segundo doble apoyo (grados)	2.57 (2.05 ; 3.85)	3.09 (2.38 ; 4.45)
Flexión de cadera en el contacto inicial (grados)	38.31 (32.64 ; 41.28)	36.17 (33.88 ; 44.57)
Flexión mínima de la cadera (grados)	4.85 (-1.21 ; 7.41)	3.88 (0.64 ; 8.92)
Flexión máxima de la cadera en fase oscilante (grados)	41.52 (35.78 ; 46.18)	41.28 (35.88 ; 49.17)
Rango de flexión de la cadera (grados)	39.93 (36.39 ; 42.35)	37.89 (34.15 ; 43.05)
Abducción de la cadera durante el primer doble apoyo y apoyo único (grados)	4 (0.27 ; 5.99)	4.64 (2.55 ; 7.8)
Flexión de rodilla en el contacto inicial (grados)	6.82 (1.92 ; 9.26)	7.25 (3.43 ; 10.31)
Flexión mínima de la rodilla en el apoyo (grados)	6.15 (0.05 ; 7.89)	6.47 (2.51 ; 9.42)
Flexión máxima de rodilla (grados)	63.64 (59 ; 67.75)	63.35 (59.05 ; 67.86)
Tiempo hasta flexión máxima de rodilla (% del ciclo de marcha)	73.62 (73.18 ; 74.3)	73.9 (72.95 ; 74.54)
Rango de flexión de rodilla (grados)	-7.95 (-10.36 ; -1.68)	-6.3 (-12.62 ; -1.5)
Dorsiflexión del tobillo en el contacto inicial (grados)	-15.96 (-21.85 ; -11.88)	-18.47 (-22.37 ; -13.06)
Dorsiflexión máxima del tobillo en la fase de apoyo (grados)	9.77 (4.75 ; 13.92)	9.41 (4.25 ; 11.8)
Rango de dorsiflexión del tobillo en la fase de apoyo (grado)	0.06 (-5.06 ; 2.62)	-0.87 (-5.56 ; 3.68)
Dorsiflexión máxima del tobillo en la fase oscilante (grados)	16.79 (12.99 ; 22.36)	16.4 (14.17 ; 21.08)
Rango de dorsiflexión del tobillo en la fase oscilante (grados)	-6.16 (-13.22 ; -1.69)	-4.27 (-8.4 ; 2.56)

En la columna de la derecha, se muestra el intervalo HPD-95% (equivalente al intervalo de confianza) del coeficiente I que indica la diferencia en los parámetros entre los AIM para cada parámetro.

	Valor medio derecho pre-infiltración Mediana (Q1-Q3)	Valor medio derecho post-infiltración Mediana (Q1-Q3)	Diferencia de los valores medios izquierdos Mediana (Q1-Q3)	Diferencia de los valores medios derechos Mediana (Q1-Q3)	Coficiente estimado (HPD95%)
	1.33 (1.14 ; 1.56)	1.35 (1.13 ; 1.57)	0 (-0.01 ; 0.01)	0 (-0.01 ; 0.01)	0.002 (-0.02 ; 0.024)
	1.96 (1.81 ; 2.18)	1.97 (1.85 ; 2.23)	0 (-0.05 ; 0.04)	-0.01 (-0.06 ; 0.02)	-0.016 (-0.043 ; 0.009)
	62.45 (60.42 ; 63.51)	62.56 (60.42 ; 64.45)	-1.01 (-2.26 ; -0.01)	-0.99 (-3.37 ; 0)	-1.408 (-1.846 ; -0.972)
	14.76 (11.5 ; 17.67)	14.66 (11.36 ; 17.47)	0.18 (-0.31 ; 0.47)	0.04 (-0.34 ; 0.28)	-0.469 (-0.865 ; -0.047)
	6.37 (5.65 ; 7.63)	6.37 (4.84 ; 7.06)	-0.19 (-0.63 ; 0.23)	-0.32 (-0.98 ; 0.01)	-0.395 (-0.782 ; 0.006)
	5.59 (4.01 ; 6.96)	5.11 (4.15 ; 6.83)	1.9 (0.93 ; 3.01)	1.36 (0.82 ; 3.35)	2.171 (1.762 ; 2.579)
	37.34 (33.09 ; 39.96)	35.69 (33.5 ; 39.83)	0.03 (-0.81 ; 0.68)	-0.09 (-0.87 ; 0.57)	-0.729 (-1.38 ; -0.099)
	3.26 (-1.19 ; 5.74)	2.51 (0.26 ; 6.56)	0.2 (-0.63 ; 0.65)	0.03 (-0.85 ; 0.78)	-0.716 (-1.289 ; -0.148)
	41.77 (35.5 ; 45.41)	39.84 (36.24 ; 44.68)	0.31 (-0.51 ; 0.91)	0 (-0.6 ; 0.74)	-0.579 (-1.145 ; 0.034)
	39.95 (37.04 ; 43.3)	36.89 (34.95 ; 41.7)	-0.35 (-0.65 ; 0.89)	-0.07 (-1.32 ; 0.25)	0.008 (-0.58 ; 0.612)
	5.25 (1.73 ; 6.35)	4.48 (2.18 ; 6.62)	0.14 (-0.65 ; 1.67)	0.17 (-0.83 ; 0.81)	0.215 (-0.244 ; 0.677)
	5.1 (0.58 ; 9.15)	6.22 (2.88 ; 9.76)	-0.96 (-2.03 ; 0.52)	-0.03 (-0.49 ; 0.8)	-0.625 (-1.194 ; -0.025)
	5.06 (-0.48 ; 8.06)	5.29 (1.09 ; 8.26)	-0.2 (-1.48 ; 0.37)	-0.05 (-0.58 ; 0.28)	-0.715 (-1.233 ; -0.176)
	62.65 (56.86 ; 68.06)	64.12 (59.61 ; 67.58)	-0.01 (-0.58 ; 0.72)	0.01 (-0.08 ; 0.83)	0.049 (-0.527 ; 0.616)
	73.68 (73.04 ; 74.69)	73.88 (72.59 ; 74.5)	0.08 (-0.55 ; 0.6)	0 (-0.34 ; 0.41)	-0.086 (-0.404 ; 0.235)
	-4.42 (-9.5 ; -1.29)	-5.4 (-9.34 ; -0.04)	0.48 (-0.37 ; 1.68)	0.03 (-0.25 ; 2.03)	1.161 (0.439 ; 1.913)
	-15.32 (-20.44 ; -10.2)	-16.87 (-20.02 ; -11.71)	0.72 (0.02 ; 3.93)	0.12 (-0.59 ; 5.38)	2.253 (1.391 ; 3.097)
	11.03 (3.91 ; 14.36)	9.82 (5.06 ; 11.62)	0 (-0.32 ; 0.97)	0 (-0.6 ; 0.48)	0.127 (-0.345 ; 0.6)
	0.31 (-3.13 ; 3.48)	-0.64 (-3.75 ; 1.99)	0.25 (-0.05 ; 1.02)	-0.01 (-0.39 ; 0.34)	0.392 (-0.151 ; 0.902)
	17.23 (12.97 ; 22.36)	17.5 (14.95 ; 21.89)	0.77 (-0.29 ; 1.1)	0.14 (-0.13 ; 1.02)	-0.157 (-1 ; 0.661)
	-6.22 (-13.84 ; -2.91)	-4.23 (-7.88 ; -0.8)	-0.45 (-1.12 ; 0.78)	-0.31 (-0.63 ; 0.14)	0.32 (-0.628 ; 1.313)

4.4.4. Limitaciones y discusión de los resultados del objetivo 4

Una limitación importante de nuestro estudio es la ausencia de un grupo control de referencia que haya sido estudiado de forma repetida. Esto nos limita de modo significativo la interpretación al no poder definir qué errores de medida son esperables en nuestro laboratorio y qué valor concreto dar a las diferencias encontradas. En términos generales, las diferencias mostradas son pequeñas. La interpretación individualizada es complicada y aunque enriquecedora, se ha optado por su no realización. En cambio, consideramos que a nivel grupal los cambios encontrados y la definición de intervalos de credibilidad son una técnica robusta que permite extraer las conclusiones señaladas al final.

A pesar de todo, aunque nuestro tamaño muestral es limitado, se ha mostrado suficiente, empleando la metodología estadística adecuada, como para ofrecer información relevante sobre el tamaño muestral.

Hemos detectado cambios significativos de moderado impacto en varios parámetros de marcha tras la infiltración con toxina. Tras el tratamiento, los niños caminaron con menor flexión plantar en el contacto inicial, mejoraron su rango de flexión de rodilla, corrigieron el aumento de flexión de cadera en el momento inicial y la reducción de extensión de cadera y redujeron su inclinación pélvica aumentada. También normalizaron en parte el retraso de la fase de apoyo y redujeron el tiempo hasta la flexión máxima de la rodilla sin cambiar la velocidad de marcha ni la cadencia. También disminuyó mínimamente la flexión de la rodilla en el contacto inicial y aumentó el rango de rotación pélvica.

La reducción de la flexión plantar en el contacto inicial representaría el objetivo primario que podría tener el tratamiento con TxBA sobre el patrón de marcha. Destaca que la respuesta es altamente variable para cada sujeto.

La mejora en la flexión plantar se tradujo probablemente en las mejoras de flexión de cadera y en la normalización de la inclinación pélvica. Los cambios en la rotación pélvica podrían ser atribuibles a una mejora del control motor pélvica o una disminución de dolor o a cambios más complejos en el patrón motor. Los cambios en la flexión de la rodilla en la fase de apoyo pueden ser secundarios al efecto de la toxina botulínica en el tríceps sural, como débiles flexores de la rodilla. La mejora en el tiempo de apoyo podríamos atribuirla a una reducción de la “cautela” al caminar de los menores es decir un aumento de la seguridad en su marcha.

Como aspecto a discutir es relevante señalar las limitaciones del análisis instrumental como técnica de monitorización de respuesta. A pesar del gran número de parámetros que permite estudiar, tiene las limitaciones impuestas por la medición en un laboratorio de marcha que produce una evaluación algo artificial de unos pocos ciclos de marcha durante un momento concreto fuera de las actividades de la vida diaria. Además, clínicamente es conocido que los pacientes con MPI

pueden variar su patrón de marcha en función del grado de observación que sientan, si muestran interés en hacerlo. Sin embargo, dadas estas limitaciones, conviene defender que el análisis con un laboratorio de marcha es un paso previo necesario para “progresar tecnológicamente” hacia estrategias portátiles de nuevo desarrollo que permitan un mayor tiempo de medición y entornos más relacionados con la vida real. Además, en estos casos seguirán existiendo otras incertidumbres como la anotación de las diferentes actividades como la carrera, salto..., el verdadero valor de su inclusión en el análisis o incluso el grado de precisión de estos sistemas de medición al enfrentar patologías de respuesta variable.

4.4.5. Conclusiones del objetivo 4

La serie presentada es una de las más grandes estudiadas de las sometidas a terapia combinada de fisioterapia y TxBA. Dado el diseño del estudio, la comparación con los cambios dinámicos en el AIM tras la introducción del protocolo de TxBA y fisioterapia estandarizada, no pudieron ser aislados de la acción de la fisioterapia aislada, pues todos los casos presentados fueron infiltrados y tratados con al menos un ciclo de fisioterapia aislada previa al ciclo de fisioterapia y TxBA estudiado en el AIM.

Se encontraron cambios en la mejora del porcentaje del tiempo de apoyo del 1,4%, parámetro que previamente estaba alterado en todas las MPI valoradas. Su disminución podía estar en relación a un apoyo más eficiente con mejoras en el equilibrio dinámico.

La inclinación pélvica media tendía a disminuir con el tratamiento de forma variable pero constante, acercándose más al grupo control sano mientras que la rotación pélvica en el doble apoyo también aumentó de forma significativa en la misma línea. La flexión mínima y máxima de cadera también disminuyeron levemente, lo cual podría indicar cierta normalización en el control del centro de gravedad postratamiento

La rodilla experimento cambios muy sutiles tras tratamiento tanto en la flexión en el momento de contacto inicial como en el apoyo, no tanto en la flexión máxima, que no variaba, sino en la flexión mínima que disminuía, aumentando el rango de flexión de rodilla levemente. Los cambios en la flexión de rodilla en fase de apoyo podrían estar en concordancia como la menor actividad de los gemelos tras su infiltración.

Hubo un cambio significativo esperado en la dorsiflexión de tobillo en el contacto inicial, que aumentó. Eso podría ser coherente con un patrón de marcha algo mejorado, pues asociaba una menor flexión plantar, aunque con un cambio modesto (entre 1,4 y 3,1 grados), acorde a un acercamiento a un “patrón más normalizado”. Sin embargo, la disminución de la flexión plantar en el contacto inicial aparente asociada a la menor dorsiflexión de tobillo en estos pacientes con MPI, estuvo presente de forma demasiado variable entre sujetos como para extraer conclusiones.

El AIM permite extraer gran cantidad de datos, pero es una técnica no exenta de limitaciones importantes incluyendo peor accesibilidad al no permitir que sea fácilmente “popularizable” desde la perspectiva clínica. Además evalúa en condiciones “in vitro” alejadas de lo considerado habitual en la actividad basal del individuo por lo que en el futuro quizá debiera ser complementada con otras estrategias tecnológicas precisas reproducibles y más “portátiles”.

El protocolo de tratamiento se ha mostrado eficaz para mejora de variables clínicas, cinéticas y cinemáticas halladas en la muestra. El dolor, el arco de movilidad del tobillo con la rodilla extendida y el equilibrio mejoraron con significación estadística. Falta por determinar la persistencia en el tiempo de estas mejoras con seguimientos más prolongados, creemos mínimo hasta 24 meses.



5. RESUMEN FINAL DE LAS LIMITACIONES DEL ESTUDIO

5. RESUMEN FINAL DE LAS LIMITACIONES DEL ESTUDIO

Es preciso adelantar que nuestro estudio presenta ciertas limitaciones de difícil control. En primer lugar, el tamaño de la muestra es considerablemente pequeño a pesar de los esfuerzos en reclutar todos los pacientes disponibles. Esto se debe en parte a la dificultad de reclutar niños para estudios de observación creemos por escasa percepción de la enfermedad transmitida tanto por familia como por profesionales considerándose “una manía pasajera” a los casos subclínicos.

Este efecto se suma al “sesgo selección” que se produce por un diseño que recoge pacientes derivados a rehabilitación, pudiendo comprender que muchos facultativos derivadores seleccionaban pacientes por su sintomatología y no por la marcha de puntillas exclusivamente. El diseño del estudio, centralizado en una consulta de rehabilitación acrecentaba también el sesgo organizativo de selección de los pacientes pues el acceso a la consulta de rehabilitación infantil se realiza desde consultas de otros facultativos que a su vez valoran si remiten o no a consulta de rehabilitación bajo sus propios criterios. Los datos de accesibilidad que manejamos cifran en torno al 5-6% de menores afectados de MPI los derivados, lo que limitó las características clínicas de los pacientes a evaluar y por tanto podría limitar la validez externa de los datos para población subclínica con MPI no seleccionada en Atención primaria o especializada para terapia. Incluso no se puede descartar que el número de pacientes con MPI sintomáticos no sea mayor también que el apreciado pues hubo demoras en asistencia, algunas en torno a 6-8 semanas para ver a un paciente nuevo por los recursos limitados que presenta nuestro centro tanto para accesibilidad al diagnóstico como para tratamiento. Tampoco podemos, en definitiva, garantizar la equidad de derivación desde los centros de salud, lo que orienta la necesidad de incluir mecanismos que optimicen las estrategias de reclutamiento en el futuro de manera consensuada.

Otra limitación resulta del hecho de que estandarizar los tratamientos sería suficiente como objetivo principal, pero para ello carecemos de un grupo de control en la consulta del tipo que disponíamos en el laboratorio.

Es interesante reseñar que el protocolo terapéutico introducido no se benefició de la sinergia potencial con todos los tipos de tratamiento probados en consulta con anterioridad como órtesis, yesos seriados y/o las plantillas. En el primer caso la observación detallada y la monitorización de los terapeutas junto al ejercicio domiciliario permitió demorar la ortetización. En el caso de los yesos seriados y/o las plantillas, cuestiones organizativas e institucionales limitaban la aplicación en la consulta por lo que se evitó intervenir con terapias que pudieran romper los protocolos de Helsinki respecto a la accesibilidad en grupos sociales desfavorecidos.

Pese a que sólo se empleara un programa terapéutico con dos tipos de procedimientos en el protocolo, el estudio en cambio ofrece información valiosa sobre la gestión de la MPI en un entorno sanitario habitual. Por otro lado, para hacer frente a la pandemia por SARS-CoV-2 en nuestro centro, se reubicó el personal de nuestra unidad incluyendo al investigador principal, de modo que el seguimiento de los pacientes tuvo que pasar de ser siempre presencial a ser realizado principalmente por teléfono. Bajo estas perspectivas sin duda podemos afirmar que son recomendables estudios adicionales que abarquen tamaños simples más grandes con metodología similar.

Hubo limitaciones “temporales” además de la pandemia que afectaron al estudio. El protocolo de atención empleado desde 2011 en el HUIS no dispuso de la herramienta TWT aplicable a la población española para el cribado sistemático hasta su publicación en 2018. Para aumentar la cantidad de menores que cumplieran criterios de inclusión del estudio, actuamos de forma retrospectiva en la recogida de casos incluyendo el empleo de la herramienta TWT también de forma retrospectiva, completando los datos de algunos casos telefónicamente que ya habían sido seguidos anteriormente. Se respetó la metodología de recogida de casos pero se fracasó en que todos fueran consecutivos desde 2018 por pérdidas de pacientes de diversa índole, finalizando en 2020 el reclutamiento por la pandemia. El equipo de rehabilitación se reconvirtió por necesidades de salud pública. Los terapeutas se destinaron a labores de asistencia en la UCI del Hospital y el facultativo encargado de rehabilitación infantil se le reubicó en atención a residentes geriátricos del área afectados por SARS-Cov2, obligando a ambos a trabajar de forma retrospectiva, separada y por teléfono en el estudio.

A la hora de la elaboración de anamnesis y recogida de datos observamos también limitaciones por subjetividad difíciles de obviar. La información proporcionada por los padres no estuvo exenta del “sesgo memoria”, mayor en padres que en madres, a la hora de recordar datos relevantes del nacimiento o desarrollo psicomotor de la historia clínica del menor. Tampoco está exenta de subjetividad, la percepción de normalidad en casos familiares que caminan de forma similar o descripción subjetiva de la clínica del menor que este no podía contrastar (dolor, caídas frecuentes...) limitaciones esperadas y frecuentes en este tipo de diseños con componente retrospectivo (67).

Pese al intento de controlar la Kappa del estudio existieron limitaciones organizativas que no permitieron extender el estudio al 100% de las variables, lo que obligó a tomar decisiones terapéuticas basándose en pocas variables de confianza metodológica, seleccionando para evolutivo aquellas con porcentaje de correlación inter-observador mayor del 95%.

Otra limitación importante fue la incapacidad de seguir a los pacientes el tiempo suficiente para estudiar la evolución de los cambios tras terapia o la aparición del dolor asociado con la velocidad de crecimiento, comparando la pérdida evolutiva fisiológica del rango de dorsiflexión de los controles con la observada en niños con MPI. Pese a no poder ofrecer recomendaciones absolutas, sí podemos mostrar orientaciones que aun sin significación estadística suficiente reflejan la influencia del factor tiempo en el empeoramiento de arco de movilidad en niños con MPI según la edad (**figura 22**) pero sin referencia clara respecto a controles sanos.



6. DISCUSIÓN FINAL



6. DISCUSIÓN FINAL

Este estudio de marcha de puntillas ha arrojado luz sobre ciertos aspectos poco conocidos de cómo se maneja habitualmente la patología en nuestro entorno y ha proporcionado varias conclusiones prácticas.

Obtuvimos datos válidos desde la perspectiva epidemiológica de lo que habitualmente se remite a una consulta de rehabilitación del sistema sanitario público “para valoración y tratamiento” de MPI. La primera dificultad para establecer estudios epidemiológicos fiables era que los cálculos muestrales variaban por el desconocimiento de la población real atendida o la población teórica, por lo que, tras consulta a los órganos administrativos de salud pública y demografía del área, incluíamos la horquilla de datos desde 52.000 menores de 14 años según el padrón estatal (1) hasta 44.000 menores de 3 a 12 años según los datos de menores con cartilla atendidos en la zona del SERMAS (2) y, por tanto, pacientes potenciales de la consulta de rehabilitación desde la que se efectuaba la investigación. La prevalencia real no podía ser fácilmente conocida puesto que esta no es una enfermedad de declaración obligatoria sometida a control epidemiológico estricto, de manera que los menores que llegaban a consulta de rehabilitación eran “derivados” con algún motivo, lo que produjo un claro sesgo de selección sintomático. Ello nos llevó a considerar como dato fiable el de la bibliografía de poblaciones similares a la nuestra, tomando valores teóricos de prevalencia como referencia. De esa manera y entendiendo que aunque únicamente el 4.9% (190) de los menores padecían MPI, de ellos solamente el 5,5% aproximadamente eran remitidos a rehabilitación, es decir una cantidad de niños, frecuentemente sintomáticos, con los que realizamos el presente estudio, lo que podría magnificar la relevancia de la sintomatología a la hora de considerar la muestra representativa del colectivo de MPI.

La metodología empleada mediante la herramienta TWT es una de las primeras iniciativas que se lleva a cabo en nuestro país para poblaciones “relativamente grandes”. Pese a su descripción en 2018 como herramienta de cribado, la TWT ha sido validada tan solo hace 2 años para población española. Su aplicación resultó sencilla, con una parte auto-administrada (las primeras 17 preguntas) y otra parte completada por el profesional, lo que se ha mostrado como metodología eficiente, capaz de orientar el diagnóstico del 23% de casos de marcha de puntas con ayuda de baterías de test y exploración sistematizada que permite organizar algoritmos de diagnóstico eficiente según las características organizativas de la zona. En nuestro caso como la tasa de cribado alcanzaba el 23%, es decir, casi 1 de cada 4, aún no permitía encontrar origen en el 77% de casos restante, persistiendo la categoría de MPI propiamente dicha como predominante.

La coexistencia de la marcha de puntas en patología neurológica como TEA, TGD o trastornos sensorio-motores era conocida y está claramente descrita en la bibliografía (43) (7). Una aportación original de este estudio es la relación con el TDAH, también descrito desde el aspecto epidemiológico en nuestro entorno de forma inversa tanto por este estudio como por otros paralelos (45).

La confirmación de asociación epidemiológica entre la MPI y sus comorbilidades demuestra de forma indirecta la validez de la muestra obtenida mediante la metodología de uso de TWT junto a baterías diagnósticas, aplicada de forma sistemática en nuestro estudio para el dolor, el acortamiento de los flexores (rodilla y tobillo), las caídas y el TDAH. La presencia de antecedentes familiares de MPI encontrados con anamnesis profunda en el 53,2% de pacientes asintomáticos pero tan solo en el 30% del grupo de MPI con dolor, es un hecho que a pesar de disponer de significación estadística limitada como para extraer conclusiones, podría indicar la posible búsqueda de marcadores genéticos para determinadas poblaciones con sospecha de predisposición a desarrollar el proceso y abunda en la profundización de la línea “genética” de estudio. La inclusión de muestras mayores podría permitir continuar perfeccionando las herramientas de cribado a fin de poder detectar genes involucrados y/u orientar en la fisiopatología del trastorno.

La relación hallada entre TDAH y MPI de forma paralela al estudio y en proporción similar al valor obtenido por otros grupos (48), no indicaba mayor prevalencia de TDAH en la cohorte con dolor, (23,3% del grupo dolor y 34% de MPI asintomática), lo que podría sugerir que bajo la MPI nos encontráramos con una multitud de entidades con mecanismos de desarrollo biomecánico similares, pero orígenes etiopatogénicos distintos, lo que refuerza la necesidad de continuar mejorando la metodología de cribaje comenzada con la TWT.

Considerando un intervalo de confianza > 90% encontramos dolor relacionado con acortamiento y asociación entre el TDAH (trastorno por déficit de atención e hiperactividad), el uso del tacatá, el peso de recién nacido (PRN), y la presencia de antecedentes familiares con la MPI de forma concordante con la bibliografía. Cada una de esas condiciones es diferente al resto y podría encerrar mecanismos fisiopatológicos distantes con un mismo desarrollo biomecánico.

Este desarrollo biomecánico de marcha en punta, parece presentar elementos comunes a diferentes orígenes, comportándose como un **signo de amplio espectro de expresividad fenotípica** común a muchas causas más que como un problema único. La marcha en punta podría desarrollarse en todos los casos “desde el inicio” como forma habitual de marcha reforzando su repetición por el aprendizaje motor. El cerebro del menor entiende que el apoyo en la punta evitando el taloneo es la forma “habitual” de marcha, teniendo orígenes tan dispares que fueran desde la presencia de un brazo de palanca corto por restricciones de tono o longitud muscular hasta la incapacidad de procesar la información propioceptiva por lesión o inmadurez en las redes responsables, que obligue a restringir la información a la proveniente de la punta, desarrollándose, por tanto, como primer patrón motor de marcha bípeda, que únicamente desaparecería según apareciesen nuevos patrones motores más exitosos. En definitiva, el apoyo en punta con desplazamiento adelantando el centro de gravedad “desde el principio” actúa al menos en parte como mecanismo adaptativo a diferente problemática, y

su repetición en el tiempo como patrón de desplazamiento permite un almacenamiento “erróneo” en el córtex cerebeloso como “patrón predominante” desde donde será empleado por el córtex frontal para la marcha como estrategia eficaz y habitual de desplazamiento bípedo. Esta teoría integradora de “dispraxia del desarrollo de la marcha” de base anatómica o funcional por descifrar, evolutiva o estacionaria, siempre presentaría una consecuencia común, pero únicamente como mecanismo adaptativo. El razonamiento podría explicar casi toda la etiología, pero con el componente de la predisposición previa a factores predisponentes involucrados. Tal sería el caso de usar andadores tipo tacatá cuando aparezca predisposición por incapacidad de procesamiento de información de la planta del pie. Para entender el mecanismo baste comprender un ejemplo. Del mismo modo que si abordamos una playa desde el agua, toleramos mejor el calor de la arena y procesamos mejor la información térmica más gradualmente, pudiendo talonear durante un tiempo sobre la arena a pesar de que esté muy caliente por el frescor de la planta, si lo hacemos directamente con nuestro pie descalzo a temperatura ambiente desde la calle, de forma refleja nuestro tríceps sural se activará bruscamente colocándonos en punta para no quemarnos al contactar con la arena de la playa caliente, gracias a mecanismos reflejos medulares-arcaicos (del tipo supra-púbico extensor), que se encuentran inhibidos por el córtex motor central. Múltiples orígenes con una respuesta común, en forma de “restricción propioceptiva refleja” que interviene con más frecuencia en menores de 3 años (de ahí su frecuencia) donde sin una adecuada maduración de la mielinización responsable del enderezamiento del tronco en desarrollo, termina teniendo como consecuencia el apoyo en puntera como modo de restricción de información propioceptiva, que el cerebro no puede modular adecuadamente y que acaba creando una impronta en el individuo como patrón motor predominante.

Más allá de la elaboración de nuevas hipótesis, fenómeno que ocurre en cualquier tesis y cualquier trabajo científico, lo cierto es que también hemos encontrado datos muy relevantes para abordar un poco mejor la patología en nuestro entorno.

La presencia de sintomatología era algo esperable amparado por el sesgo selección, pero no esperábamos tal nivel de “infra-tratamiento” detectado. Encontramos dolor en el 39% de los niños con MPI que era el motivo más frecuente de consulta a rehabilitación, pero pese a ser un hallazgo de especial relevancia, más del 50% de casos los menores había estado muchos meses (incluso años) sin evaluación o tratamiento específico para el mismo. Se ha nombrado repetidamente la influencia del sesgo de selección por el diseño centrado en una consulta de rehabilitación de orientación terapéutica, pero el dolor en 2 de cada cinco menores subraya la premisa de estudiar siempre esa “quinta constante” (92) que es el dolor. Es norma instaurada de este siglo y en todo estudio de investigación de patología infantil que se precie, la valoración del dolor. Se habla de hospitales “libres de dolor” y el gasto derivado de fármacos para controlar el dolor supone uno de los más elevados de entre el presupuesto de cualquier servicio sanitario occidental, pero aquí esa premisa no se aplicaba. Descubrimos así que ese dolor era con frecuencia subagudo-crónico (>6 meses), de intensidad media-alta (EVA 6,1), focalizado en la pantorrilla, tobillo y pie, en ese orden. También encontramos que en más de 2/3 de los pacientes interaccionó produciendo absentismo escolar en el 37% de los menores y que a pesar de ser motivo frecuente de derivación a la consulta de rehabilitación en niños con MPI, este ni había sido evaluado ni tratado de forma adecuada. La ausencia de relevancia

percibida del dolor podría explicarse, al menos en parte, gracias al hallazgo de que la edad influía en la descripción del dolor, siendo más difícil su precisión en menores de 5 años, mejorando el dato significativamente con la edad ($p < 0,007$), probablemente por mejor capacidad comunicativa para identificarse a mayor edad, pudiendo ser así evaluado y tratado. Este detalle justifica el desarrollo sistemático de programas de cribado y abordaje sistemático del dolor en MPI menores de 5 años, con mayores dificultades expresivas.

La verdadera influencia de la edad como variable en la MPI no ha podido ser determinada del todo en aspectos biomecánicos por el seguimiento relativamente corto del estudio, pero al menos ha permitido orientarnos en su influencia como factor favorecedor del empeoramiento del rango de flexión dorsal de tobillo. Ese “relativamente corto” período de seguimiento junto a la ausencia de un grupo control, no permitió cuantificar de forma estadística que parte del hallazgo podría responder al acortamiento fisiológico y que parte a la evolución de la propia MPI sobre el tríceps sural. Profundizar en el futuro en estudios tipo ensayo clínico con grupos control sanos y series mayores podría permitir conocer la evolución de la MPI. La utilidad de este dato permitiría “adelantarnos” a sus consecuencias, pudiendo tomar medidas preventivas tales como uso de órtesis nocturnas profilácticas sinérgicas con el tratamiento en determinados momentos “de mayor riesgo”. El uso sistemático de las órtesis con ese fin podría ser controvertido por coste ya que con una duración de 1 a 3 años por órtesis prescritas y casi mil euros el par de órtesis a medida, que actualmente se cobra a las familias, podría suponer un sobrecoste demasiado elevado, pese al notable esfuerzo de la administración por subvencionar el 80-90% del mismo, pues su abono tiene una demora media de entre 6 y 24 meses.

La eficiencia del uso de recursos implica todos los aspectos del abordaje del paciente. A ese respecto esta tesis de vocación estrictamente clínica, intenta facilitar recomendaciones de buen nivel de evidencia para optimizar el tiempo en consulta dedicado a la anamnesis y exploración. La estandarización de herramientas como la TWT, asequible a cualquier consulta de atención primaria o especializada, junto a nuestros hallazgos de qué variables son reproducibles y eficientes de monitorizar en la evolución de todos los menores con MPI, caso de los test de Silfverskiöld, poplíteo o lumbo-horizontal, constituyen un hallazgo más valioso que innovador para la práctica clínica habitual.

Del tratamiento en rehabilitación también se pueden extraer valiosas recomendaciones para los clínicos que aborden esta críptica patología. El tratamiento más empleado en rehabilitación para el dolor fue la fisioterapia, pero no fue el único. Fármacos como el Ibuprofeno o el paracetamol, junto a la toxina botulínica como cuarta terapia más empleada (tan sólo 14% de los casos globales con dolor) buscaban atenuar el impacto sensorial nociceptivo detectado, sin que por ello no se utilicen otros “procedimientos conservadores” como las plantillas o las órtesis y que por los motivos antes comentados, deben ser evaluados cuidadosamente en nuestra actual situación socioeconómica. No olvidemos que en el presente estudio se obviaron para evitar dilemas éticos y/o factores de confusión.

En el grupo con dolor el acortamiento se observó que era más frecuente, llegando al 46,7% del grupo de MPI, similar al de las series más extensas. Dicho acortamiento fue sin embargo menor del esperado en la MPI sin dolor/asintomática, llegando al 31,9%.

Desarrollar e implementar en los menores de nuestro grupo un protocolo de tratamiento eficiente es necesario dentro de todo sistema sanitario, pero más si este es público. Por más sorpresa que nos cause, España es el tercer país de Europa con mayor tasa de riesgo de pobreza y exclusión social infantil, con dos de cada cinco menores en riesgo de pobreza procedentes de familias con empleo (255), lo que exige a los facultativos responsables un conocimiento científico y ético exquisito para el manejo de los recursos disponibles (256), actuando siempre no solo del modo más eficaz sino también más eficiente posible.

Este estudio de vocación clínica ha intentado arrojar algo de luz en la controversia al respecto del uso de la toxina botulínica en el abordaje de la MPI y algunas de sus comorbilidades. Ciertas series (18) (107) (134), encuentran mejoras en áreas como la mayor actividad del tibial anterior en fase oscilante (107) (134) o mejor dorsiflexión pasiva con rodilla en extensión, entre otras mejoras (18) (134). Aunque los seguimientos fueron similares al nuestro (12 meses) y las infiltraciones evaluadas eran únicas, no seriadas, dichas mejoras abarcaron el 70% de menores a las 12 semanas. La eficacia de la TxBA no era discutida, pero si su persistencia en estudios con buena metodología, controversia reflejada incluso entre los mismos autores que primero proponían y luego criticaban su empleo (124). La premisa de nuestro estudio no era realizar un estudio de intervención propiamente dicho. Requeríamos de un estudio observacional con el fin de ayudar al resto de clínicos a elaborar un algoritmo terapéutico en nuestro entorno basado en la evidencia disponible eficaz y eficiente dentro de los resultados de mejora con criterios de seguridad y equidad, lo que quizá pueda haber mediatizado algunas de las respuestas a la introducción de fármacos junto a la TxBA. Durante los 24 meses de seguimiento no se reportaron efectos adversos derivados del protocolo terapéutico por los profesionales del HUIS, los niños o sus familias. La seguridad del protocolo se mostró extensible tanto a la terapia física, la medicación o la aplicación de la TxBA en dosis prescritas en protocolo a razón de 2-3 uds/kg de inco (Botox®) y onabotulinum toxina A (Xeomin®). Estas dosis fueron deliberadamente menores de las recomendadas para el manejo de la espasticidad en miembros inferiores (entre 3-6 uds/kg para cada uno de los dos tipos de TxBA), empleadas en la mayor parte de los estudios, pues buscaban la utilidad de la TxBA como fármaco sinérgico para el aprendizaje motor, y su reiteración en el tiempo como apoyo para la fisioterapia. En el caso de los autores que primero la recomendaban y más tarde no, por baja persistencia de mejora, que no por eficacia, emplearon doble y triple de las dosis de nuestro estudio (18) (124) sin reportar empeoramiento a largo plazo o complicaciones derivadas de su uso. En nuestro caso tratamos de conseguir un reequilibrio de entrada propioceptiva desde el tríceps sural (que abarcaba la zona de referencia algésica en al menos 2/3 de los pacientes) facilitando el bloqueo reversible de la unión neuromuscular con toxina, la mejora de la cinética y cinemática de la MPI, confirmada finalmente con AIM de forma modesta pero positiva y segura entre 3 y 6 meses después de la infiltración.

Nuestro algoritmo de abordaje de la MPI se realizó siempre primando el bienestar del menor mediante fisioterapia, combinando la misma con/sin TxBA con los ejercicios domiciliarios por cuestiones de sinergia de reentrenamiento motor, eficiencia y persistencia de dicho reentrenamiento. El protocolo permitió controlar buena parte del espectro clínico de la MPI y su comorbilidad asociada a pesar de

no incluir elementos (órtesis, plantillas, electroestimulación...) que podrían haber aumentado su eficacia, pero con dudas sobre la eficiencia por cuestiones organizativas con coberturas limitadas (117) agravadas por la situación socioeconómica del país (256). La mejora observada con el tratamiento puede leerse en una doble perspectiva. Por un lado, como mejora de variables clínicas referidas, algunas persistentes con el tratamiento seguido en nuestro estudio durante más de 24 meses, caso del dolor, el acortamiento muscular y la torpeza motora o las caídas frecuentes referidas. Las familias expresaron lógicas reservas a las infiltraciones repetidas (nunca superaron las 4 en 24 meses), aunque fuera a baja dosis. La técnica no dejaba de ser incomoda para el menor, aunque se empleara crioanalgesia u oxido nitroso en algún caso puntual, pero las familias autorizaron su repetición pues las mejoras a pesar de ser relativas, fueron referidas por el menor especialmente en el área de dolor y equilibrio, además de ser objetivadas por los progenitores con frecuencia. No se produjeron empeoramientos cuando el protocolo respetaba tiempos y dosificación de recursos. A lo sumo se observó algún caso con estabilización del ángulo de dorsiflexión de tobillo en los niños más mayores. Durante el estudio ningún menor del protocolo tuvo que ser derivado a cirugía por retracción aquilea, tal vez favorecido por haberse excluido del estudio aquellos menores con contracturas fijas al acceder a consulta de rehabilitación.

La accesibilidad siempre actúa como factor determinante para la evaluación y el tratamiento de cualquier patología prevalente y este estudio de MPI no fue una excepción. En nuestro caso, ya no solo fue la limitación del 5-6% de casos remitidos a consulta de rehabilitación, cifra claramente mejorable con estrategias de reclutamiento e información. Además, la posibilidad de realizar a los menores un AIM fue el paradigma de la accesibilidad limitada. De los 77 menores, sólo un tercio de los niños con MPI incluidos en el estudio pudieron analizarse con AIM por motivos organizativos principalmente. Los padres tenían que emplear no menos de 60-90 minutos en acceder al laboratorio de análisis de movimiento de la ONCE (MOVUAM) al estar ubicado a más de 15 km del hospital. Por parte de los profesionales tanto del HUIS como de la ONCE se prestaron todos los apoyos posibles, pero la ausencia de tiempo de disponibilidad familiar, la escasa percepción de necesidad o motivos de índole variada, limitaron el acceso voluntario al AIM. A pesar de todo, la serie de casos presentada sin ser la más amplia descrita con AIM de la literatura, pues, Álvarez describió la clasificación actual de la MPI con 133 casos (83) y Engelbert no recomienda la TxBA sobre el yeso (124) con 47 casos, este estudio constituye una de las mayores series de casos de MPI a nivel nacional y europeo realizadas con AIM estudiando el resultados del tratamiento con TxBA. En nuestra serie siempre se midieron las características cinéticas y cinemáticas basales y tras la aplicación de la TxBA, abarca más de 150 ciclos válidos por lado, cada una con entre cinco y diez ciclos válidos por lado o lo que es lo mismo, numerosos cientos de estudios de marcha de MPI para cada lado, cifra a tener en consideración a la hora de establecer la relevancia de los hallazgos y su extrapolación a la clínica, comparable a los resultados de la mayor parte de autores.

Si bien la cinemática de la MPI está alterada en algunos parámetros como la flexión plantar en fase oscilante, la disminución del rango de flexión de cadera, la ausencia de apoyo talar y un sinnúmero de alteraciones definitorias de la marcha de puntillas (ver apartado 1.6), al contrario que lo encontrado por otros investigadores (83), observamos que, con cribaje robusto y metodología estadística adecuada, la alteración no se comporta de forma tan persistente y homogénea en los cambios

de balancines del pie y en los apoyos como la descrita por Álvarez. La alteración se desarrolla de forma más sutil y significativamente variable, tal y como podría corresponder a un mecanismo de compensación adaptativo. Desconocemos si ese cribado sistemático, no incorporado de igual forma en otras series, junto a la exclusión de contracturas a nivel del tríceps sural o deformidades fijas (185) incluyendo cualquier tratamiento quirúrgico en miembros inferiores (73), podría influir en subrayar esa variabilidad hallada en la MPI.

Hallazgos como los encontrados en el tiempo de apoyo de los menores con MPI, aumentado de forma persistente pese a mantener la cadencia y velocidad de marcha similar a la de niños sanos, podría hipotetizarse como una estrategia motora de compensación de cambios en la marcha de puntillas. Tal es el caso de la disminución de la base de sustentación, menor capacidad de despegue por atenuación del brazo de palanca del tríceps sural en la MPI y/o menor inclinación pélvica probablemente por menor flexión de cadera en fase de apoyo y oscilante, a su vez influenciada por el “falso aumento” de la longitud del miembro inferior que ir de puntillas produce. No sólo se encontró menor flexión máxima de rodilla y de cadera, también como era de esperar menor dorsiflexión de tobillo respecto a los controles sanos de modo que en nuestro estudio la MPI presentaba disminución de los rangos articulares en cierto modo proporcionalmente atenuados.

Emplear la técnica de distancias DTW, que el grupo MOVUAM ya había empleado con éxito para estudiar la paraparesia espástica hereditaria (179), permitió enfocar la relación de variables de flexoextensión de cada articulación de cada paciente de modo alternativo al de otros estudios, a fin de poder descubrir patrones ocultos por el desfase temporal. Esta metodología mostró que la marcha de nuestra muestra de MPI se comporta como un fenómeno dinámico y cambiante en el tiempo y el espacio, alejado de las categorizaciones de otros estudios.

Los cambios conseguidos clínicamente con la TxBA se reflejan en una “normalización” de la marcha. Mediante AIM, hemos conseguido observar cómo se corrigen determinados parámetros de forma incompleta pero positiva.

El AIM permite extraer gran cantidad de datos, pero es una técnica no exenta de limitaciones importantes incluyendo su peor accesibilidad, lo que no permite que sea una herramienta fácilmente “popularizable” desde la perspectiva clínica. Además, evalúa en condiciones “in vitro” alejadas de lo considerado habitual en la actividad basal del individuo, por lo que en el futuro quizá debiera ser complementada con otras estrategias tecnológicas precisas reproducibles y más “portátiles”.

El protocolo de tratamiento se ha mostrado eficaz para mejora de las variables clínicas, cinéticas y cinemáticas halladas en la muestra. El dolor, el arco de movilidad del tobillo con la rodilla extendida y el equilibrio mejoraron con significación estadística. Falta por determinar la persistencia en el tiempo de estas mejoras con seguimientos más prolongados, recomendándose por los metaanálisis de al menos 24 meses (23) (113).



7. CONCLUSIONES Y CONTRIBUCIONES



7. CONCLUSIONES Y CONTRIBUCIONES

1. Hemos descubierto que de los potenciales pacientes con MPI tan sólo se remiten a rehabilitación un 5-6% de los mismos.
2. Recomendamos la aplicación de la herramienta TWT como paso inicial en la valoración de la marcha de puntas por su sencillez, aplicabilidad, reproducibilidad y fiabilidad. Hemos demostrado que TWT es eficiente y que si se apoya en una exploración bien sistematizada, es capaz de orientar hacia otros diagnósticos el 23% de los casos de MPI. El uso de pruebas “en cascada” es “altamente recomendable” por eficiencia y limitaciones de tiempo.
3. Confirmamos la asociación entre la MPI y comorbilidades como dolor, acortamiento de tendón aquileo y TDAH.
4. El dolor en la MPI derivada a rehabilitación es frecuente (casi 4 de cada 10 pacientes), aunque este hallazgo puede relacionarse con un sesgo de selección. Es difícil de evaluar en menores de 5 años y con frecuencia es subagudo-crónico (mayor de seis meses), de intensidad media/alta por escala visuo-analógica y por absentismo escolar y se localiza en varios puntos, generalmente infrapoplíteos. Se trata habitualmente con fisioterapia y con medicación analgésica (paracetamol y antiinflamatorios no esteroideos).
5. Respecto a los fenómenos de acortamiento muscular, el del tríceps sural, que es evaluable mediante el test de Silfverskiöld, es mayor con la edad y puede afectar también a los flexores de rodilla, debiendo explorarse activamente con otras maniobras como la medición del ángulo poplíteo.
6. Hemos diseñado un protocolo para organizar el trabajo de forma eficiente, en un medio público y que ha sido implementado en un centro hospitalario con éxito. Este protocolo incluye la combinación de fisioterapia con o sin TxBA de uso seriado. Con este protocolo aplicado a pacientes con MPI hemos mejorado el dolor, el acortamiento muscular y la torpeza motora o la frecuencia referida de caídas.
7. Los pacientes con MPI evaluados presentan alargamiento en el porcentaje de tiempo de apoyo del ciclo de marcha manteniendo una cadencia y velocidad de marcha similar a la de un

grupo control de referencia. A nivel cinemático, los pacientes con MPI presentan una serie de adaptaciones multiarticulares al apoyo de puntillas como una mayor flexión de cadera en las fases de apoyo y oscilante y una mayor inclinación pélvica.

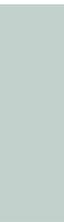
8. Las alteraciones demostradas en nuestra serie son más sutiles y significativamente más variables que las descritas en otras series. Hipotetizamos que estas discrepancias son fruto de una selección más sistemática por nuestra parte y de la exclusión de contracturas de tríceps sural, deformidades fijas o cirugías previas.
9. Mediante técnicas de agrupamiento jerárquico de una serie de parámetros espaciotemporales y cinemáticos seleccionados, no detectamos distintos patrones de marcha en el grupo de pacientes con MPI. Mediante una metodología que combina distancia DTW y escalado multidimensional para evitar sesgos de la selección a priori de variables de marcha, hemos demostrado que la alteración cinemática de la marcha en MPI corresponde más a un espectro fenotípico que a la implementación neural de distintos patrones de marcha.
10. Los pacientes con MPI tratados con el protocolo de TxBA reducen el porcentaje de tiempo de apoyo del ciclo, lo que indica un apoyo más eficiente y/o mejoras en el equilibrio dinámico.
11. La dorsiflexión en el contacto inicial también mejoró ligeramente tras la aplicación de TxBA, aunque la respuesta es muy variable. Así mismo también mejoran o desaparecen las compensaciones descritas al apoyo en punta, como las alteraciones en la inclinación pélvica media o la flexión mínima y máxima de cadera.
12. Tras el tratamiento con TxBA se detectan cambios en los parámetros de la flexión de rodilla en fase apoyo en concordancia con una posible menor actividad de los gemelos tras la infiltración.

CONCLUSIONES GLOBALES

- Es importante en la MPI mejorar la accesibilidad a la valoración y al tratamiento a través de herramientas organizativas es importante en la MPI.
- La herramienta TWT es sencilla y eficaz para el diagnóstico inicial; posiblemente, necesitemos otras herramientas para orientar el tratamiento.
- El tratamiento de pacientes sintomáticos debería asegurarse ya que mejora el dolor, el arco de movilidad del tobillo, parámetros de marcha alterados y el equilibrio. Necesitamos periodos de observación más prolongados para asegurar la eficacia a largo plazo de las intervenciones y certificar su seguridad a largo plazo.
- El AIM es una técnica útil para la investigación de la MPI. Necesitamos tecnologías accesibles, portátiles y asequibles que permitan evaluar la actividad del paciente en la vida diaria, evaluar la eficacia del tratamiento y orientar el manejo de cualquier patología similar. Esas tecnologías se desarrollarán en función de la información que obtengamos de los estudios de AIM presentes y futuros.



8. ANEXOS



8. ANEXOS

Anexo I. Protocolo de fisioterapia seguido en el estudio con versión final presentada a la comisión de calidad HUIS el 1/6/22 (López-López J, De la Rosa JC, Pajero V.)



Hospital Universitario
Infanta Sofía

Comunidad de Madrid

Protocolo de Rehabilitación 01/22

PROTOCOLO DE FISIOTERAPIA PARA TRATAMIENTO DE LA MARCHA DE PUNTILLAS IDIOPÁTICA (MPI) EMPLEADO EN EL HOSPITAL INFANTA SOFÍA (HUIS)

(Versión 2.0) (Presentación a D.M. HUIS 1/06/22)

Rutina a realizar por el menor con MPI sea o no infiltrado con TxBA previamente

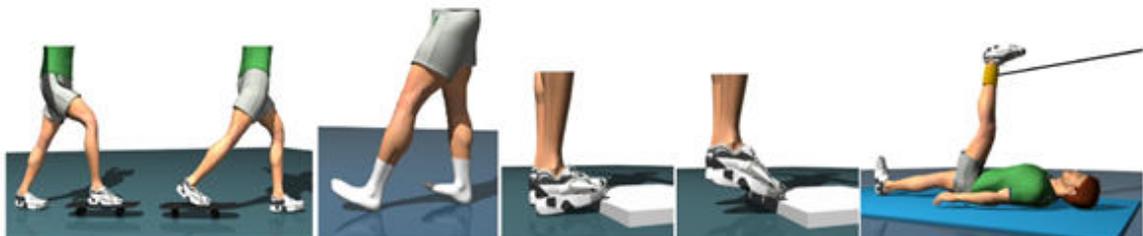
- 1) 5 minutos de calentamiento.
- 2) Entrenar el choque del talón con rodilla extendida (paso del soldado) como repetición de las fases de marcha lenta del talón.
- 3) Estiramiento pasivo progresivo 20 segundos - 60 segundos, 2 veces cada pierna en extensión de rodilla (**enseñarlo a la familia**)
- 4) Ejercicios de dorsiflexión activa: marcha del talón y mantener un balón en el dorso del pie con flexión activa del tobillo y rodilla extendida (**ídem**)
- 5) Entrenamiento de equilibrio sobre base inestable (pies en dorsiflexión del tobillo).
- 6) Ejercicios de coordinación y equilibrio: exageración del paso del talón para superar obstáculos (ejecución lenta), alternar paso del talón y superación de obstáculos (**ídem**).
- 7) Ejercicios de entrenamiento propioceptivo, de equilibrio con desequilibrio posterior y entrenamiento con equilibrio de dos y una pierna de pie (**ídem**)
- 8) Para diseñar la potenciación personalizada de músculos se calcula la resistencia estática máxima (RM) con la técnica de Rocher.

En registro semanal (cada 5-7 días), La RM se va aumentando si se observa mejoría.

Se realizan 2 series de ejercicios: (1ª serie, 20 x 1/2 RM y 2ª serie, 10 x 3/4 RM)



ESTIRAMIENTOS DE CADENA POSTERIOR EN LA PARED, EN ESCALÓN, CON TRIPLE EXTENSIÓN Y EN FLEXIÓN DORSAL



EJERCICIOS EXCÉNTRICOS CON UN PATINETE O UN PAÑO, CAMINANDO DE ESPALDAS, BAJANDO ESCALONES A UNO/DOS PIES, CON FLEXO-EXTENSIÓN DE CADERA EN POLEA



Hospital Universitario
Infanta Sofía

Comunidad de Madrid

Protocolo de Rehabilitación 01/22

PROTOCOLO FISIOTERÁPICO tras INFILTRACIÓN de T.SURAL con TxBA. (versión 1.0)

(Presentación a D.M HUIS 21/11/11)

Protocolo de Rehabilitación 07/11

El protocolo será individualizado. La sesión de fisioterapia será lo más agradable, motivando al niño para que sea consciente del ejercicio mientras juega (mín 10ss máx 30).

1. – Calentamiento: el niño viene andando al gimnasio por lo que se presupone un calentamiento inicial, no obstante pediremos que ande durante 5 minutos (no correr si pudiera estimular su marcha patológica) para calentar los miembros inferiores.

2. - Estiramiento pasivo: Realizaremos un estiramiento pasivo de tobillo de ambas piernas con flexión de rodilla y también con extensión de rodillas para estirar toda la musculatura posterior del miembro inferior en retracción. El estiramiento debe ser progresivo y nunca provocar dolor, para evitar contracción refleja de los músculos que deseamos relajar o inhibir con la toxina botulínica y el tratamiento fisioterápico. También se enseñará estos estiramientos al niño y sus padres para que puedan ser reproducidos después de las sesiones de rehabilitación.

3.- Ejercicio de taloneo con los talones (pingüino): Una vez calentada y estirada la zona a trabajar se puede empezar a andar con los talones, es decir se pide al niño que, según sus posibilidades, apoye sólo los talones o en su caso el pie/planta del pie sin tocar con los dedos en el suelo. Progresivamente se incluirán otros parámetros que complicarán el ejercicio con los pies paralelos, disminuyendo la base de sustentación y aumentando la cadencia de paso.

4.- Ejercicios de equilibrio: Los niños con MPI presentan un desequilibrio anterior debido a su típica marcha de puntillas, por lo que realizaremos ejercicios de propiocepción o equilibrio en base estática y móvil según la progresión del tratamiento y capacidades del paciente. También provocaremos desequilibrios mediante cosquillas o realizando pases con balón para lo mismo.

5.- Ejercicios de coordinación: Para evitar compensación y sinergias patológicas por lo que necesitamos reorganizar y estimular sinergias enfocadas para una marcha normal, el decir en el apoyo inicial, lo normal debe de ser apoyo de talón con leve flexión de rodilla, que evolucionara hacia un apoyo de toda la planta y dedos. Esto se puede conseguir mediante lo siguiente:

- Ejercicios de alternar pies (baile), aquí el fisioterapeuta se coloca enfrente al paciente, le coge las manos y los dos realizan a modo de espejo simultáneamente un apoyo de talón de una pierna y el apoyo completo del pie con leve flexión de rodilla de la contraria. Es decir el terapeuta enseñara a su paciente a realizar lo anterior a modo de baile estimulando a nuestro niño mediante el ritmo de la música, con palabras (derecho-izquierdo, talón-planta) y también con movimientos sobre las manos. Una vez logrado se podrá efectuar el siguiente ejercicio consistente en superar obstáculos primero a velocidad rápida y poco a poco más lento y difícil.

- Golpear un balón en extensión de rodillas y con flexión dorsal tobillo. El fisioterapeuta sujetará un balón a aproximadamente 30 cm del suelo y nuestro niño intentara golpear el balón, como se ha descrito anteriormente, con una fuerza que pueda impulsar la pelota no más alto de 50 cm. Estos ejercicios buscan provocar que el paciente integre el sincronismo normal de la marcha.

6.- Potenciación del tibial anterior: El gemelo está formado en su mayor parte por fibras tipo II. Los niños con MPI tienen más fibras tipo I en gemelos, tónicas y resistentes a la fatiga.

1.- Utilización de una suspensión axial y un sistema de peso-polea.

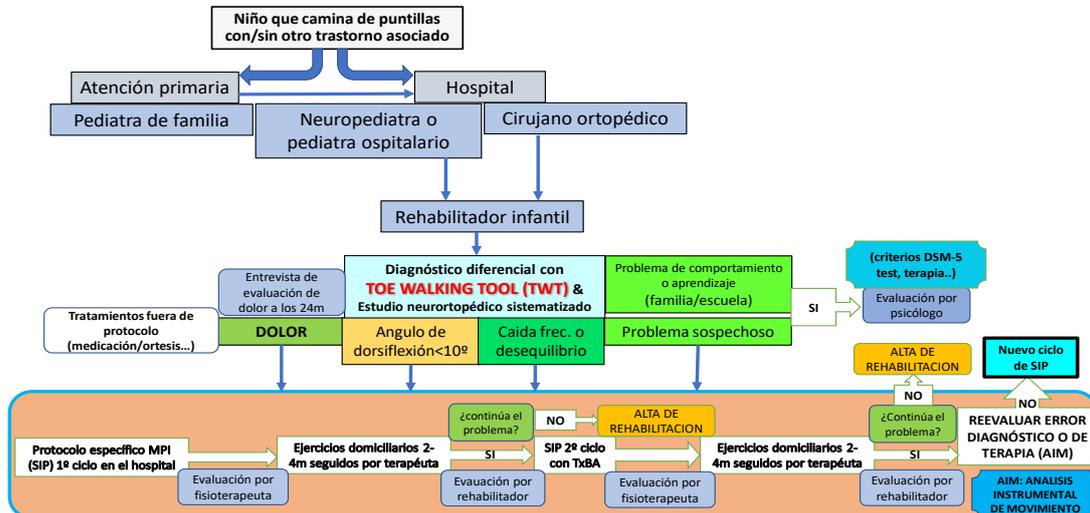
2.- Cálculo resistencia máxima (RM) con dinamómetro o cargas.

3.- Resistencia mínima 30% (RM) o un 10% del peso corporal, por debajo no se gana fuerza.

4.- Dos series de ejercicios: La 1ª de 20 repeticiones 50% de la resistencia máxima (RM). y la 2ª de 10 repeticiones a 3/4 partes de la RM..

5.- Reevaluación cada semana de la RM

7.- Electroestimulación (EES): No existe consenso respecto a la idoneidad de los parámetros para estimular determinados tipos de fibras musculares y discriminar el resto. Sin embargo podríamos usar una corriente bifásica simétrica de componente galvánico despreciable pues se conoce que las fibras rápidas que en nuestro estudio queremos estimular necesitan tiempos de impulso de 300 microsegundos y frecuencias superiores a 50 Hz. LEn EES estática la contracción son 3 a 5 segundos dependiendo de la intensidad con tiempo de reposo doble que el de contracción. El umbral se establece aumentando la intensidad de los estímulos eléctricos progresivamente hasta alcanzar la máxima tolerada individual.

DIAGRAMA DE FLUJO DE LOS PACIENTES CON MPI EN EL HUIS
Flujograma de Pacientes a nivel hospitalario con MARCHA DE PUNTAS en RHB HUIS:

Bibliografía

- 1) Cincinnati Children's Hospital Medical Center; all rights reserved "Idiopathic Toe Walking in children and young adults ages 2 through 21 years" Publication Date: 15-Feb-2011. Evidence-Based Care Guideline for Management of Idiopathic Toe Walking Guideline 040. Copyright © 2011
- 2) Darrah J, Fan JSW, Chen LC, Nunweiler J, Watkins B Review of the effects of progressive resisted muscle strengthening in children with cerebral palsy: a clinical consensus exercise
- 3) Liao HF, Liu YC, Liu WY, Lin YT Effectiveness of loaded sit-to-stand resistance exercise for children with mild spastic diplegia: a randomized clinical trial .
- 4) CA Johnson, JH Burridge, PW Strike, Madera DE, Swain ID A single-blinded, randomized pilot study of botulinum toxin type a combined with non-pharmacological treatment for spastic foot. Rehabil J Med 2008; 40: 870-872 Fundación de Información de Rehabilitación. ISSN 1650-1977

Anexo II. Autorización del comité de investigación clínica del HUIS



**Hospital Universitario
Infanta Sofía**

 **Comunidad de Madrid**

INFORME COMISION DE INVESTIGACIÓN 10 DE DICIEMBRE DE 2019

TÍTULO: APLICACION DE LA HERRAMIENTA “TOE WALKING TOOL” (TWT) EN LA DISCRIMINACION CLINICA DE LA MARCHA DE PUNTILLAS (MIP).

INVESTIGADOR PRINCIPAL: Javier López López
SERVICIO O UNIDAD: Rehabilitación
Clasificación.- Estudio Epidemiológico

COMENTARIOS DEL GRUPO EVALUADOR

Una vez revisado el contenido del proyecto presentado por los evaluadores de la Comisión, no existen aspectos metodológicos a corregir en el protocolo presentado o que impidan su realización en nuestro centro.

CONCLUSIÓN:

El proyecto puede llevarse a cabo en el centro hospitalario.


Jorge Gómez Cerezo
Presidente de la Comisión de Investigación


Iñigo Sanchis Benítez
Secretario de la Comisión de Investigación.

Anexo III. Consentimiento informado para el AIM estandarizado. La grabación de vídeo y el uso de datos se regula por LOPD y está aprobado en comisión de CI HUIS para uso de fotografías / vídeo (válido en AIM)



CONSENTIMIENTO INFORMADO

Don/Doña: _____

Con DNI: _____

Don/Doña: _____

Con DNI: _____ en calidad de padre/madre/tutor (subraye lo que proceda) del paciente: _____

DECLARA:

Que ha sido informado de la realización del presente estudio para valorar la fisiopatología de distintas enfermedades neurológicas y del Aparato Locomotor.

Que comprende que el objeto del estudio es conocer su marcha y capacidades motrices con el ánimo de compararlas con las limitaciones relacionadas con distintas enfermedades.

Que comprende que por ello es necesario que sea evaluado en nuestro Centro por un experto acreditado (especialista en Rehabilitación o Cirugía Ortopédica, Enfermería y Fisioterapia)

Que entiende que la prueba que va a realizar no tiene ningún efecto secundario conocido sobre su salud.

Que accede a que sus datos sean almacenados y procesados según un fichero protegido, como ordena la Ley Oficial de Protección de Datos (LOPD) Y que estos datos serán utilizados únicamente por los miembros del equipo investigador.

Que conoce que puede revocar este consentimiento en cualquier momento que lo desee.

En Madrid a.....de.....de 20...

Fdo.....

Anexo IV. Consentimiento informado (CI) para la infiltración de TxBA del HUIS aprobado por la comisión de dirección HUIS vigente desde 2008 (4 hojas)

 Hospital Universitario Infanta Sofía Paseo de Europa, 34 28702 San Sebastián de los Reyes 91 191 40 00	N.H.C.: <\$Paciente.numHistoria\$>	
	Nombre y apellidos: <\$Paciente.nombre\$><\$Paciente.apellido1\$><\$Paciente.apellido2\$>	
CONSENTIMIENTO INFORMADO	Fecha de nacimiento: <\$Paciente.fechaNacimiento\$>	Sexo: <\$Paciente.sexo\$>
	Dirección: <\$Paciente.Domicilio.Direccion\$> <\$Paciente.Domicilio.Poblacion\$><\$Paciente.Domicilio.Provincia\$><\$Paciente.Domicilio.CodigoPostal\$>	
	CIP: <\$Paciente.NumeroTarjetaSanitaria\$>	
TOXINA BOTULÍNICA		

D./Dña.: <\$Paciente.nombre\$><\$Paciente.apellido1\$><\$Paciente.apellido2\$>, con DNI/Pasaporte nº <\$Paciente.nif\$> en calidad de paciente o, en su defecto D./Dña con DNI/Pasaporte nº como Representante y/o Tutor del paciente, mayor de edad, en pleno uso de mis facultades mentales manifiesto que:

He sido informado de forma satisfactoria por el Dr/Dra. <\$Responsable informe.nombre\$><\$Responsable informe.apellido1\$><\$Responsable informe.apellido2\$> adscrito a la unidad de <\$Responsable informe.especialidad\$> de los siguientes puntos: qué es, como se realiza, para qué sirve, los riesgos existentes, posibles molestias o complicaciones y alternativas al procedimiento.

Descripción del procedimiento diagnóstico o quirúrgico susceptible de autorización: **TOXINA BOTULÍNICA.**

A. IDENTIFICACIÓN:

NOMBRE DEL MEDICO QUE LE INFORMA:<\$Responsable informe.nombre\$><\$Responsable informe.apellido1\$><\$Responsable informe.apellido2\$> Fecha: <\$Autor informe.fechaHoy\$>.

B. INFORMACIÓN SOBRE LA TOXINA BOTULÍNICA:

- **La Toxina Botulínica** es una sustancia que produce una bacteria y que actúa a nivel de la unión entre el nervio y el músculo, bloqueando la transmisión nerviosa y produciendo la parálisis del músculo. Se aplica por vía intramuscular y su efecto dura de 2-4 meses. Debe acompañarse siempre de Rehabilitación para obtener un mejor aprovechamiento de sus efectos. Debido a la duración limitada de su efecto en el tiempo, puede ser necesaria su re-infiltración bajo las mismas circunstancias que se describen en este documento y de las cuales le ha informado su médico. Salvo que sus circunstancias personales sufran alguna alteración no se le solicitará la firma de un nuevo documento a estos fines.
- **Indicaciones:** enfermedades que producen contracción mantenida de determinados músculos (Espasticidad) como trombosis o hemorragias cerebrales, parálisis cerebral, traumatismo craneo encefálico, esclerosis múltiple, torticolis espasmódica, espasmo de media cara, espasmo de los párpados, etc.
- **Contraindicaciones:** Miastenia gravis. Síndrome Eaton-Lambert. Otras enfermedades neuromusculares. Embarazo y/o lactancia. Uso de aminoglucósidos u otros fármacos que puedan interferir en la unión neuromuscular.

C: ALTERNATIVAS:

Aunque el equipo que le trata considera que en su caso concreto esta es la mejor opción existen otras posibilidades de tratamiento como son fisioterapia, medicación oral, bloqueos nerviosos, medicación intratecal, cirugía.

D: RIESGOS Y COMPLICACIONES (relativos a la indicación médica de espasticidad, usada en el Servicio de Rehabilitación):

En general las complicaciones se producen en los días siguientes a la inyección y tienen carácter transitorio.

- **Efectos locales:** El más frecuente es la debilidad muscular con posible aumento de caídas. Dolor localizado, en la zona de inyección, de corta duración. Sensibilidad y/o hematoma en el lugar de inyección. Dificultad para tragar.
- **Efectos sistémicos:** Síntomas gripales. Reacciones alérgicas graves Fatiga excesiva. Debilidad muscular generalizada. Incontinencia urinaria. Vómitos. Somnolencia.
- En caso de **sobredosis** puede producir parálisis neuromuscular distante y profunda. Si causara parálisis de músculos respiratorios, sería necesario respiración asistida.

San Sebastián de los Reyes, a <\$Autor informe.fechaHoy\$> Firma del Paciente / Representante y/o Tutor	San Sebastián de los Reyes, a <\$Autor informe.fechaHoy\$>. Identificación y firma del médico que PRESCRIBE <\$Responsable informe.nombre\$><\$Responsable informe.apellido1\$><\$Responsable informe.apellido2\$>	San Sebastián de los Reyes, a <\$Autor informe.fechaHoy\$>. Identificación y firma del médico que REALIZA LA PRUEBA
		Página 1 de 4
Nota: Se deben firmar todas las páginas.		

 <p>Hospital Universitario Infanta Sofía</p> <p>Paseo de Europa, 34 28702 San Sebastián de los Reyes 91 191 40 00</p>	N.H.C.: <\$Paciente.numHistoria\$>	
	Nombre y apellidos: <\$Paciente.nombre\$><\$Paciente.apellido1\$><\$Paciente.apellido2\$>	
	Fecha de nacimiento: <\$Paciente.fechaNacimiento\$>	Sexo: <\$Paciente.sexo\$>
	Dirección: <\$Paciente.Domicilio.Direccion\$> <\$Paciente.Domicilio.Poblacion\$><\$Paciente.Domicilio.Provincia\$><\$Paciente.Domicilio.CodigoPostal\$>	
	CIP: <\$Paciente.Numero TarjetaSanitaria\$>	
CONSENTIMIENTO INFORMADO		
TOXINA BOTULÍNICA		

- A veces se forman anticuerpos anti-toxina botulínica que hacen que disminuya la eficacia con inyecciones sucesivas.
- Riesgos relacionados con sus circunstancias personales específicas:

.....

.....

ANTES DE FIRMAR ESTE DOCUMENTO, SI DESEA MÁS INFORMACIÓN O TIENE CUALQUIER DUDA NO TENGA REPARO EN PREGUNTARNOS.

E. DECLARO:

- Que he sido informado por el Médico, de las ventajas e inconvenientes del tratamiento y de que en cualquier momento puedo revocar mi consentimiento.
- He comprendido la información recibida y he podido formular todas las preguntas que he creído oportunas.
- Si surgiese alguna situación imprevista urgente, que requiriese la realización de algún procedimiento distinto de los que he sido informado, autorizo al equipo médico para realizarlo.
- Por lo tanto declaro estar debidamente informado/a, según dispone el artículo 10.6 de la Ley General de Sanidad.

San Sebastián de los Reyes, a <\$Autor informe.fechaHoy\$> Firma del Paciente / Representante y/o Tutor	San Sebastián de los Reyes, a <\$Autor informe.fechaHoy\$>. Identificación y firma del médico que PRESCRIBE <\$Responsable informe.nombre\$><\$Responsable informe.apellido1\$><\$Responsable informe.apellido2\$>	San Sebastián de los Reyes, a <\$Autor informe.fechaHoy\$>. Identificación y firma del médico que REALIZA LA PRUEBA
Nota: Se deben firmar todas las páginas.		Página 2 de 4

 Hospital Universitario Infanta Sofía Paseo de Europa, 34 28702 San Sebastián de los Reyes 91 191 40 00	N.H.C.: <\$Paciente.numHistoria\$>	
	Nombre y apellidos: <\$Paciente.nombre\$><\$Paciente.apellido1\$><\$Paciente.apellido2\$>	
CONSENTIMIENTO INFORMADO	Fecha de nacimiento: <\$Paciente.fechaNacimiento\$>	Sexo: <\$Paciente.sexo\$>
	Dirección: <\$Paciente.Domicilio.Direccion\$> <\$Paciente.Domicilio.Poblacion\$><\$Paciente.Domicilio.Provincia\$><\$Paciente.Domicilio.CodigoPostal\$>	
	CIP: <\$Paciente.Numero TarjetaSanitaria\$>	
TOXINA BOTULÍNICA		

FIRMA DEL PACIENTE:

FIRMA RELATIVA AL MÉDICO QUE PRESCRIBE LA PRUEBA: Dr./Dra. <\$Responsable informe.nombre\$><\$Responsable informe.apellido1\$><\$Responsable informe.apellido2\$> he informado al paciente y/o tutor del objeto y naturaleza del procedimiento que se le va a realizar
--

FIRMA RELATIVA AL MÉDICO QUE REALIZA LA PRUEBA: Dr./Dra. he informado al paciente y/o tutor del objeto y naturaleza del procedimiento que se le va a realizar explicándole los riesgos, complicaciones y alternativas posibles
--

Nombre del representante legal en caso de incapacidad del paciente para consentir, ya sea por minoría de edad, incapacidad legal o incompetencia, con indicación del carácter con que interviene (padre, madre, tutor, etc.).
 Nombre DNI/NIF.....
 En calidad de..... autorizo la realización del procedimiento mencionado.

Firma del representante legal

Conforme a lo dispuesto en la LOPD 15/1999 de 13 de diciembre se informa que sus datos serán objeto de tratamientos e incorporados a ficheros de nuestro área de Atención Especializada con fines asistenciales, de gestión investigación científica y docencia. Solo podrán ser cedidos a organismos autorizados. Podrá ejercer el derecho a acceso, cancelación, rectificación y oposición en la Gerencia del Área

San Sebastián de los Reyes, a <\$Autor informe.fechaHoy\$> Firma del Paciente / Representante y/o Tutor	San Sebastián de los Reyes, a <\$Autor informe.fechaHoy\$>. Identificación y firma del médico que PRESCRIBE <\$Responsable informe.nombre\$><\$Responsable informe.apellido1\$><\$Responsable informe.apellido2\$>	San Sebastián de los Reyes, a <\$Autor informe.fechaHoy\$>. Identificación y firma del médico que REALIZA LA PRUEBA
		Página 3 de 4

Nota: Se deben firmar todas las páginas.

Anexo V. Artículo asociado.

López-López J, Pulido-Valdeolivas I, Martín-Gonzalo JA, De Gorostegui A, Pérez-Villena A, Abenza-Albidua MJ, et al. Dolor y acortamiento aquileo en pacientes con marcha de puntillas idiopática.

Rev. Neurol. 2021; 73:307-14. DOI:10.33588/rn.7308.2021228

ORIGINAL

Dolor y acortamiento aquileo en pacientes con marcha de puntillas idiopática

Javier López-López, Irene Pulido-Valdeolivas, Juan A. Martín-Gonzalo, Alfonso de Gorostegui, Ana Pérez-Villena, M. José Abenza-Albidua, Jara Fernández-Jiménez, David Gómez-Andrés, Estrella Rausell

Introducción. La marcha de puntillas idiopática (MPI) es una entidad heterogénea que asocia acortamientos musculares en las extremidades inferiores, dolor y trastornos del neurodesarrollo. Pretendemos estudiar la frecuencia de ciertas características clínicas en pacientes diagnosticados de MPI.

Pacientes y métodos. De un total de 100 pacientes evaluados por marcha de puntillas en una consulta de rehabilitación infantil, se diagnosticó a 77 pacientes (24,7% mujeres) como con MPI con ayuda del cuestionario *Toe Walking Tool*. Mediante la maniobra de Silfverskiöld pudo determinarse el acortamiento aquileo y mediante test adaptados también el dolor y la asociación con el trastorno por déficit de atención/hiperactividad (TDAH). En el grupo con dolor ($n = 30$), estudiamos su evolución mediante encuesta telefónica evaluando la intensidad, la localización, el absentismo escolar asociado y el tratamiento utilizado.

Resultados. De los 77 pacientes, el 44,2% presentó antecedentes familiares de marcha de puntillas, el 37,7% tuvo acortamiento aquileo y el 9,1%, de los flexores de la rodilla. El 9,1% de ellos tuvo TDAH confirmado y el 20,8%, sólo sospecha. A mayor edad, encontramos mayor frecuencia de dolor y menor ángulo de dorsiflexión pasiva del tobillo. El dolor fue de moderada-alta intensidad, produjo un 42,3% de absentismo escolar y se localizó predominantemente en la pantorrilla, el tobillo y el pie, y se prescribió fisioterapia, analgesia oral, ortesis y/o toxina botulínica principalmente.

Conclusiones. El dolor en la MPI es frecuente, de intensidad moderada-alta, interfiere en la vida diaria y es más referido en niños más mayores que asocian menor dorsiflexión del tobillo. Encontramos asociación de la MPI y el TDAH con frecuencia, lo que anima a profundizar más su estudio como signo de alerta.

Palabras clave. Contractura. Dolor musculoesquelético. Marcha. Niño. Paso. Rango de movimiento articular.

Introducción

El término 'marcha de puntillas idiopática' (MPI) representa una entidad que abarca los casos de niños que caminan de puntillas sin una causa médica o anatómica que pueda explicarlo y más allá de una edad determinada, que operativamente suele situarse entre los 2 o 3 años y se considera fisiológica en pacientes más jóvenes [1,2].

Como consecuencia del patrón biomecánico anómalo que produce la marcha de puntillas, los pacientes presentan dolor [3] en el antepié, con tropezos o caídas frecuentes [4], esguinces de tobillo, pérdida de eficiencia en la marcha y disminución en la capacidad de ejercicio físico [4]. La disminución de la capacidad de flexión dorsal del tobillo provoca acortamiento del tríceps sural y/o del tendón de Aquiles. La frecuencia de dolor y su relación con el acortamiento aquileo, así como la limitación de la flexión dorsal de tobillo, se han descrito parcialmente [5]. Estudiar esta relación de forma más pro-

funda es importante a la hora de personalizar las estrategias terapéuticas [5], determinando las medidas que permitan evaluar las diferentes terapias según protocolos consensuados y basados en la evidencia [6,7].

Como comorbilidades, los pacientes con MPI pueden presentar trastornos del neurodesarrollo [8]. Se ha descrito la elevada frecuencia de marcha de puntillas en pacientes con trastorno del espectro autista [9,10] o alteraciones del lenguaje [11], y aparece también en pacientes con trastorno por déficit de atención/hiperactividad (TDAH) [11,12], circunstancias que requieren estudio sistemático en los niños con MPI [13,14].

El objetivo del presente estudio es describir las características clínicas y la prevalencia de dolor en la MPI y su relación con el acortamiento aquileo, la sintomatología de TDAH y/o la flexión dorsal en pacientes diagnosticados de MPI dentro de un grupo de pacientes derivados a una consulta de rehabilitación por marcha de puntillas.

Sección de Rehabilitación (J. López-López); Servicio de Pediatría (A. Pérez-Villena); Servicio de Neurología (M.J. Abenza-Albidua); Servicio de Anestesia (J. Fernández-Jiménez). Hospital Universitario Infanta Sofía. San Sebastián de los Reyes, Madrid. Departamento de Anatomía, Histología y Neurociencia (J. López-López, I. Pulido-Valdeolivas, J.A. Martín-Gonzalo, A. de Gorostegui, E. Rausell); Escuela Universitaria de Fisioterapia de la ONCE. Universidad Autónoma de Madrid. Madrid (J.A. Martín-Gonzalo). Neurología Pediátrica. Vall d'Hebron Institut de Recerca (VHIR). Hospital Universitari Vall d'Hebron. Barcelona, España (D. Gómez-Andrés).

Correspondencia:
Dr. David Gómez Andrés.
Neurología Pediátrica. Hospital Universitari Vall d'Hebron. Pg. de la Vall d'Hebron, 119-129. E-08027 Barcelona.

E-mail:
david_gomez@vhebron.net

Conflicto de intereses:
J.L.L., I.P.V., J.A.M.G., D.G.A. y E.R. recibieron la beca SERMEF-Merz para el estudio del efecto de la toxina botulínica en pacientes con marcha de puntillas idiopática. I.P.V. es empleada de UCB Iberia desde junio de 2020. J.L.L. ha recibido financiación para asistencia a congresos de Grünenthal en relación con el dolor y la marcha de puntillas idiopática.

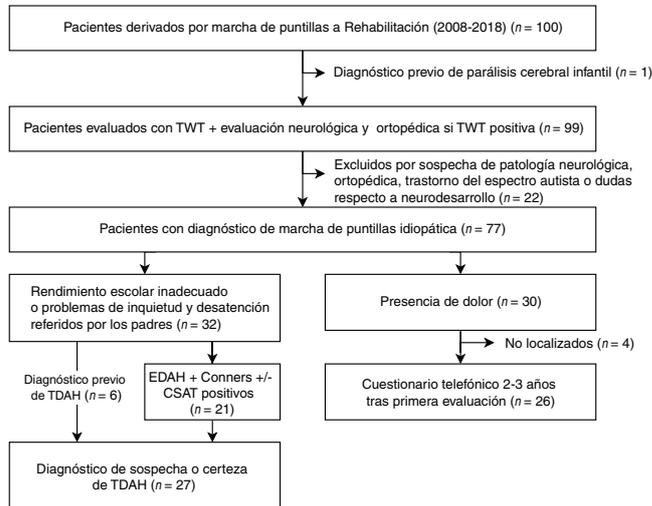
Aceptado tras revisión externa:
09.10.21.

Cómo citar este artículo:
López-López J, Pulido-Valdeolivas I, Martín-Gonzalo JA, de Gorostegui A, Pérez-Villena A, Abenza-Albidua MJ, et al. Dolor y acortamiento aquileo en pacientes con marcha de puntillas idiopática. Rev Neurol 2021; 73: 307-14. doi: 10.33588/rn.7308.2021228.

© 2021 Revista de Neurología

J. López-López, et al

Figura 1. Diagrama de flujo de los pacientes estudiados.



Pacientes y métodos

Se trata de un estudio observacional sobre 100 pacientes reclutados consecutivamente en la consulta de rehabilitación infantil del Hospital Universitario Infanta Sofía para valoración de marcha de puntillas. Se incluyó a todos los mayores de 24 meses con una marcha de puntillas persistente más allá de los 3 años remitidos a la consulta de rehabilitación entre 2008 y 2018 tras obtener el consentimiento. Los criterios de exclusión fueron: historia de cirugía de alargamiento del tendón de Aquiles, diagnóstico o sospecha de algún trastorno neuromuscular, neurológico y/o traumatológico, y casos en los que la *Toe Walking Tool* [14,15] orientara hacia otro diagnóstico, sin poder descartar una patología alternativa tras la evaluación clínica y de las pruebas complementarias [16]. Cumplieron estos criterios 77 casos (edad: 2-14 años). Los pacientes que en el momento de la primera consulta presentaban o referían dolor fueron seguidos posteriormente. En la figura 1 se recoge el flujo de pacientes.

El estudio fue aprobado por el comité de investigación del Hospital Infanta Sofía y siguió las normas de buena práctica de investigación [17,18], y la recogida de datos fue anonimizada según la normativa [19-21]. Se recogieron variables demográficas, antecedentes familiares conocidos de marcha de

puntillas en familiares de primer y segundo grado, y parámetros de la *Toe Walking Tool*. La gravedad del trastorno se definió con la presencia de acortamiento aquileo según los test de Lunge y/o Silfverskiöld, la máxima dorsiflexión pasiva con la rodilla flexionada y con la rodilla extendida [22,23], y la presencia de acortamiento de los flexores de rodilla según el ángulo poplíteo y/o lumbo-horizontal [24] y de los flexores de la cadera mediante el test de Thomas con la pelvis controlada [25]. Se recogió el diagnóstico previo o la sospecha de trastorno por déficit de atención/hiperactividad [26] mediante la anamnesis, la valoración del rendimiento escolar, el test de evaluación del trastorno por déficit de atención/hiperactividad [27,28] y el test de Conners para padres [29], que se contrastó con la tarea de atención sostenida en la infancia [30] en caso de discordancia. El diagnóstico de TDAH se clasificó como confirmado, sospechoso o ausente.

En la población con dolor después de caminar o durante la marcha referido tanto por el paciente como por sus padres en la anamnesis del primer día de consulta ($n = 30$), se realizó una encuesta telefónica adaptada a los 24 meses de la primera consulta para valorar cómo había evolucionado el dolor atribuido a MPI [31,32]. La encuesta incluyó un estudio de intensidad mediante una escala verbal analógica (EVA) (equivalente a la *11-point Pain Numbered Rating Scale*), la localización categorizada del dolor (pie, tobillo, pantorrilla, rodilla, muslo o no sabe precisar), el absentismo escolar asociado únicamente al dolor [33] y el tratamiento empleado en los menores con dolor por MPI. Respondieron 26 familias del total de 30. En niños capaces de expresar verbalmente el dolor, la intensidad del dolor se valoró por los padres según las quejas cotidianas del niño [34,35]. En los más pequeños, se empleó su expresión facial, postura, llanto y movimientos corporales [34]. Cuando alcanzaron madurez suficiente, se combinó la información directa del niño con la supervisión paterna [36,37]. Se confirmó que los tratamientos descritos por las familias correspondían con la historia clínica.

El análisis estadístico se realizó con *R*. Se utilizaron las frecuencias absoluta y relativa para la descripción de variables categóricas, y la mediana, el mínimo y el máximo para las variables cuantitativas. La relación entre variables categóricas se evaluó mediante χ^2 , y entre categóricas y cuantitativas, mediante la *t* de Student y el análisis de la varianza. La relación entre variables categóricas y ordinales se estudió mediante el test de Wilcoxon. En los análisis multivariantes, se utilizó la regresión logística cuando la variable dependiente era dicotómica (dolor) y modelos lineales mixtos cuando la variable

dependiente estaba repetida dentro del mismo individuo (ángulos de dorsiflexión del tobillo). Para las variables de localización y tratamiento recogidas en la encuesta de dolor, generamos *heatmaps* con dendrogramas calculados mediante agrupamiento jerárquico agregativo con distancia binaria y agrupamiento de máximo como criterio de enlace.

Resultados

Descripción de la muestra

En la tabla I se muestran las características de los 77 pacientes incluidos –58 varones (75,3%) y 19 mujeres (24,7%), sin diferencias significativas en la distribución de sexos– con una mediana de edad de 7.27 años (cuartil 1 = 4,2 y cuartil 3 = 10,2 años), considerados globalmente y separados en tres grupos de edad, que corresponden con las aproximaciones enteras de los terciles de edad de la muestra (tercil 1 = 6,12 y tercil 2 = 9,31 años).

De los 77 pacientes, 9 (11,7%) fueron prematuros menores de 37 semanas y 3 (3,9%) necesitaron ingreso en una unidad de cuidados intensivos neonatales. Dos pacientes presentaron un retraso psicomotor leve y uno de ellos inició la marcha independiente más allá de los 20 meses. Ninguno de ellos presentaba alteraciones en el momento de la evaluación ni durante su seguimiento para considerar la existencia de una enfermedad subyacente. Treinta y cuatro (44,2%) pacientes presentaban antecedentes familiares de primer o segundo grado de MPI, sin diferencias entre sexos, pero con una tendencia a aparecer con más frecuencia en los niños más jóvenes ($p = 0,088$). Siete (9,1%) pacientes estaban diagnosticados de trastorno por déficit de atención/hiperactividad y en 16 (20,8%) existía sospecha clínica importante por parte de la familia o del medio educativo de la presencia de este trastorno comórbido, aunque no cumpliera criterios del *Manual diagnóstico y estadístico de los trastornos mentales, quinta edición*, por completo. No se encontró relación clara entre el diagnóstico de TDAH y el de MPI ni correlación con la edad de evaluación ($p = 0,683$). Sí que se observó que, cuando el paciente era varón, era más frecuente encontrar un diagnóstico definitivo de TDAH –7/58 niños (12,1%) frente a 0/19 niñas– o sospecha diagnóstica de TDAH –13/58 (22,4%) frente a 3/19 niñas (15,8%)–, si bien la diferencia encontrada a favor del sexo masculino no se mostró significativa ($p = 0,191$). A nivel ortopédico, 29 (37,7%), 7 (9,1%) y 2 (2,6%) pacientes presentaron acortamiento aquileo, de los flexores de la

Tabla I. Características clínicas por edad.

	Menores de 6 años (n = 24)	6-9 años (n = 22)	Mayores de 9 años (n = 31)	Total (n = 77)
Mujeres Frecuencia (%)	5 (20,8%)	4 (18,2%)	10 (32,3%)	19 (24,7%)
Peso al nacer menor de 2.500 g Frecuencia (%)	4 (16,7%)	4 (18,2%)	3 (9,7%)	11 (14,3%)
Edad gestacional menor de 37 semanas Frecuencia (%)	3 (12,5%)	3 (13,6%)	3 (9,7%)	9 (11,7%)
Ingreso en la UCI neonatal Frecuencia (%)	1 (4,2%)	2 (9,1%)	0 (0%)	3 (3,9%)
Adquisición de marcha posterior a los 20 meses sin otros hallazgos Frecuencia (%)	0 (0%)	1 (4,5%)	0 (0%)	1 (1,3%)
Retraso del neurodesarrollo sin alteración significativa en el momento de la evaluación Frecuencia (%)	1 (4,2%)	1 (4,5%)	0 (0%)	2 (2,6%)
Antecedentes familiares en primer o segundo grado conocidos Frecuencia (%)	14 (58,3%)	11 (50,0%)	9 (29,0%)	34 (44,2%)
Trastorno por déficit de atención con y sin hiperactividad Frecuencia (%)				
Sospecha de TDAH	5 (20,8%)	6 (27,3%)	5 (16,1%)	16 (20,8%)
Diagnóstico de TDAH	1 (4,2%)	3 (13,6%)	3 (9,7%)	7 (9,1%)
Acortamiento aquileo Frecuencia (%)	10 (41,7%)	7 (31,8%)	12 (38,7%)	29 (37,7%)
Acortamiento de los flexores de la rodilla Frecuencia (%)	1 (4,2%)	2 (9,1%)	4 (12,9%)	7 (9,1%)
Acortamiento de los flexores de la cadera Frecuencia (%)	1 (4,2%)	0 (0%)	1 (3,2%)	2 (2,6%)
Dolor en los miembros inferiores Frecuencia (%)	4 (16,7%)	8 (36,4%)	18 (58,1%)	30 (39,0%)
Dorsiflexión derecha con rodilla en extensión –mediana (mín., máx.)–	15 (–10, 40)	10 (0, 25)	10 (0, 30)	10 (–10, 40)
Dorsiflexión izquierda con rodilla en extensión –mediana (mín., máx.)–	15 (–10, 40)	10 (0, 25)	10 (0, 30)	10 (–10, 40)
Dorsiflexión derecha con rodilla en flexión –mediana (mín., máx.)–	20 (0, 40)	15,0 (5, 28)	15 (–10, 20)	15 (–10, 40)
Dorsiflexión izquierda con rodilla en flexión –mediana (mín., máx.)–	20 (0, 40)	15,0 (5, 25)	15 (–10, 25)	15 (–10, 40)

TDAH: trastorno por déficit de atención/hiperactividad; UCI: unidad de cuidados intensivos.

J. López-López, et al

Tabla II. Características de los pacientes con y sin dolor.

	MPI sin dolor (n = 30)	MPI con dolor (n = 47)	Total (MPI)
Sexo –Frecuencia (%)–			<i>p</i> = 0,446
Mujeres	14 (29,8%)	5 (16,7%)	19 (24,7%)
Varones	33 (70,2%)	25 (83,3%)	58 (75,3%)
Edad			<i>p</i> = 0,002
Mediana (mín., máx.)	6,24 (2,04, 13,2)	9,28 (3,02, 12,3)	7,28 (2,04, 13,2)
Antecedentes familiares			<i>p</i> = 0,099
Frecuencia (%)	25 (53,2%)	9 (30%)	34 (44,2%)
Acortamiento aquileo			<i>p</i> = 0,288
Frecuencia (%)	15 (31,9%)	14 (46,7%)	29 (37,7%)
TDAH [Frecuencia (%)]			<i>p</i> = 0,601
Diagnóstico confirmado	5 (10,6%)	2 (6,7%)	7 (9,1%)
Diagnóstico de sospecha	11 (23,4%)	5 (16,7%)	16 (20,8%)

MPI: marcha de puntillas idiopática; TDAH: trastorno por déficit de atención/hiperactividad.

Tabla III. Características del dolor evaluado a los 2-3 años de la primera consulta.

	Frecuencia (%) n = 26	Relación con la escala visual analógica Valor de <i>p</i>	Relación con el absentismo Frecuencia (%) en el grupo con absentismo Valor de <i>p</i>
Ausencia de recuerdo de dolor	6 (23,1%)	–	–
Absentismo escolar	11 (42,3%)	0,004	–
Localización			
Pie	7 (26,9%)	0,378	4 (36,4%); <i>p</i> = 0,63
Tobillo	9 (34,6%)	0,084	5 (45,5%); <i>p</i> = 0,563
Pantorrilla	11 (42,3%)	0,091	5 (45,5%); <i>p</i> = 1
Rodilla	4 (15,4%)	0,159	3 (27,3%); <i>p</i> = 0,374
Muslo	1 (3,8%)	0,456	1 (9,1%); <i>p</i> = 0,874
Tratamientos recibidos			
Ibuprofeno	18 (69,2%)	0,001	10 (90,9%); <i>p</i> = 0,105
Paracetamol	5 (19,2%)	0,059	2 (18,2%); <i>p</i> = 1
Metamizol	1 (3,8%)	0,104	1 (9,1%); <i>p</i> = 0,874
Fisioterapia	22 (84,6%)	0,828	9 (81,8%); <i>p</i> = 1
Ortesis	7 (26,9%)	0,094	7 (63,6%); <i>p</i> = 1
Toxina botulínica	10 (38,5%)	0,18	7 (63,6%); <i>p</i> = 0,064
Cirugía	3 (11,5%)	0,073	3 (27,3%); <i>p</i> = 0,12

rodilla y de los flexores de las caderas. Treinta y cuatro de los 77 pacientes (44,2%) presentaron algún acortamiento muscular. Estas alteraciones no mostraron relación con la edad ni con el sexo. Al evaluar la relación entre el acortamiento aquileo y el de los

flexores de la rodilla, se pudo observar que la presencia de acortamiento de los flexores de la rodilla sólo asociaba acortamiento aquileo en 3 de los 7 pacientes (42,8%) mientras que, en presencia de acortamiento aquileo, el acortamiento de los flexores de la rodilla se encontraba en 3 de los 29 casos (10,3%).

Factores que influyen en la presencia de dolor

En la tabla II se muestran las principales características de los pacientes según la presencia de dolor. El dolor referido en los pacientes o en sus familias aumentó significativamente con la edad de evaluación (*odds ratio* = 1,27; intervalo de confianza al 95%, 1,07-1,5; *p* = 0,007). Controlando por la edad, no se consiguió demostrar diferencias por sexo (*p* = 0,109), acortamiento aquileo (*p* = 0,231), TDAH (*p* = 0,286) o antecedentes familiares (*p* = 0,156). Los valores de dorsiflexión con la rodilla en extensión (*p* = 0,087) o en flexión (*p* = 0,954) no mostraron diferencias entre pacientes con y sin dolor.

Factores que influyen en la dorsiflexión pasiva

Se emplearon diferentes modelos para estudiar los factores que se relacionan con la dorsiflexión del tobillo. Desde el modelo más sencillo, que incluía únicamente la edad como covariable, estudiamos la influencia de otras variables. Según el modelo que incluía únicamente la edad, tanto el ángulo de dorsiflexión máxima con la rodilla en extensión (disminución de 0,67 grados/año; intervalo de confianza al 95%, 0,04-1,3 grados/año; *p* = 0,035) como con la rodilla en flexión (disminución de 0,96 grados/año; intervalo de confianza al 95%, 0,38-1,5 grados/año; *p* < 0,001) disminuían con la edad (Fig. 2). Controlando por edad, no se encontraron diferencias significativas relacionadas con sexo, antecedentes familiares o un TDAH confirmado o sospechado.

Encuesta de dolor

En la tabla III se señalan las características del dolor en la evaluación a largo plazo de los pacientes. Las familias de seis pacientes (23,1%) no recordaban que el dolor hubiera estado relacionado con la MPI. Entre los que sí presentaban buena memoria de éste, la EVA mostró una gran variabilidad, y cabe destacar un número de pacientes con niveles de dolor moderado-alto [34], teniendo en cuenta que el sesgo de atenuación por el efecto memoria tiende a minimizar el impacto. En cuanto a la repercusión funcional, hasta 11 niños de los pacientes con dolor (42,3%) tuvieron absentismo por dolor musculoes-

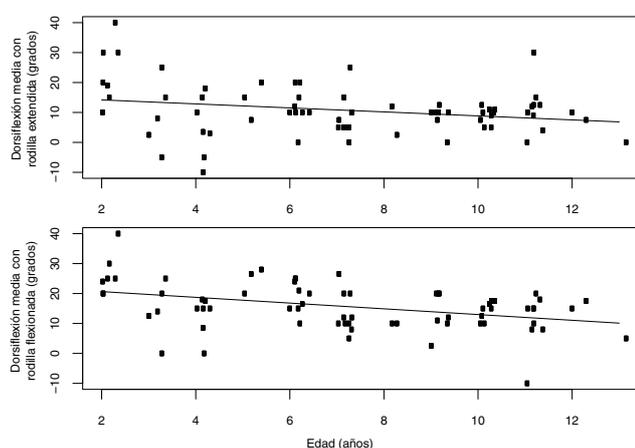
quelético y mostraron valores de la EVA significativamente mayores (mediana: 7; cuartil 1: 6; y cuartil 3: 8) que los que no (mediana: 4; cuartil 1: 0; y cuartil 3: 5; $p = 0,004$). La localización más frecuente de dolor fue la pantorrilla (11/26; 42,3%), el tobillo (9/26; 34,6%) y el pie (7/26; 26,9%) y fueron frecuentes tanto combinaciones de localizaciones como la presencia de dolor aislado en una región concreta (Fig. 3b). Los patrones de distribución del dolor por localización no parecen relacionarse con la intensidad del dolor, ya sea medida mediante una EVA referida como en impacto en el absentismo escolar [34,35] (Fig. 3b). En cuanto al uso de diferentes terapias, destaca la fisioterapia, los analgésicos orales y la toxina botulínica. No existe un patrón claro en las terapias recibidas. Los pacientes con mayor intensidad de dolor según la EVA tomaron más ibuprofeno (EVA mediana de 6,5 en el caso de ingesta frente a EVA mediana de 0 en el caso de no ingesta) y tendieron a utilizar más paracetamol.

Discusión

En este trabajo, hemos estudiado la relación de la edad con el dolor y con la pérdida de rango de dorsiflexión en los pacientes con MPI evaluados en una consulta hospitalaria de rehabilitación infantil. También hemos analizado la evolución de los pacientes que presentaban dolor, y cabe destacar el uso de múltiples terapias, la toma de antiinflamatorios orales y la interferencia del dolor de la MPI en la vida diaria. Otro hallazgo importante es la alta prevalencia de TDAH en esta población. A nivel etiopatológico, sugiere la presencia de mecanismos compartidos entre el TDAH y la MPI. También cuantifica la relación entre el TDAH y la MPI, previamente descrita en el sentido contrario en la bibliografía [12,38]. La presencia de TDAH no se relacionó con la aparición de dolor ni con menores rangos de dorsiflexión.

Los resultados de nuestro estudio revelan que la MPI asocia en un elevado porcentaje dolor con interferencia en la vida diaria. La frecuencia del dolor en la MPI ya se había descrito previamente [5], si bien nuestro estudio ha podido encontrar la coexistencia de otros factores potencialmente asociados, como la presencia de acortamientos musculares y/o la alta frecuencia de TDAH comórbido, del que la MPI puede ser un indicador precoz, como ya se ha sugerido en otras patologías cognitivas de la infancia [38]. Por todo ello, la idea de abordar a los pacientes con una MPI como afectados por una patología menor sin trascendencia debería desterrarse,

Figura 2. Dorsiflexión media con la rodilla extendida y la rodilla flexionada según la edad.



dada la repercusión funcional encontrada y su asociación con comorbilidades, independientemente de que la MPI tienda o no a su desaparición espontánea [39].

La edad fue el factor más determinante para que el paciente refiriera dolor musculoesquelético, mientras que otros posibles factores no resultaron significativos. Existen varios motivos por los cuales la edad tendría esta influencia. Por un lado, los pacientes con mayor edad pueden expresar más fácilmente el dolor. Por otro, los pacientes mayores también tienen menor ángulo de dorsiflexión y han estado expuestos durante mayor tiempo al patrón cinemático desadaptativo de marcha. Alternativamente, la MPI detectada con mayor edad podría ser un grupo etiológico y fisiopatológico diferente a la MPI detectada más precozmente. Estos hallazgos, junto con las dudas sobre la fisiopatología del dolor en la MPI, tienen la importancia de evaluar el dolor longitudinalmente en un estudio prospectivo. El tratamiento del dolor en nuestra muestra con analgésicos orales también quizá merecería cierta consideración específica para un estudio futuro.

En cuanto a los acortamientos encontrados en la exploración, es interesante la falta de asociación entre los acortamientos musculares aquíleos y de los flexores de la rodilla en contra de nuestras expectativas iniciales que esperaban acortamientos aquíleos con más frecuencia en presencia de acortamiento de los flexores de la rodilla.

12. Soto Insuga V, Moreno Vinués B, Losada del Pozo R, Rodrigo Moreno M, Martínez González M, Cutillas Ruiz R, et al. ¿Camina de manera diferente los niños con trastorno por déficit de atención hiperactividad (TDAH)? Relación entre marcha de puntillas idiopática y TDAH. *An Pediatr* 2018; 88: 191-5.
13. Haynes KB, Wimberly RL, VanPelt JM, Jo CH, Riccio AL, Delgado MR. Toe walking: a neurological perspective after referral from pediatric orthopaedic surgeons. *J Pediatr Orthop* 2018; 38: 152-6.
14. Williams CM, Tinley P, Curtin M. The Toe Walking Tool: a novel method for assessing idiopathic toe walking children. *Gait Posture* 2010; 32: 508-11.
15. López-Bustos-de-las-Heras R, Cano-de-la-Cuerda R, De-la-Llave-Rincón AI, Guerrero-Blázquez A, Plaza-Manzano G, Martín-Casas P. Traducción y adaptación transcultural de la Toe Walking Tool: herramienta para el cribado de la marcha de puntillas. *Rev Neurol* 2019; 69: 99-108.
16. Pomarino D, Ramírez Llamas J, Martín S, Pomarino A. Literature review of idiopathic toe walking: etiology, prevalence, classification, and treatment. *Foot Ankle Spec* 2017; 10: 337-42.
17. Zion D, Gillam L, Loff B. The Declaration of Helsinki, CIOMS and the ethics of research on vulnerable populations. *Nat Med*. 2000; 6: 615-7.
18. Declaration of Helsinki - Ethical Principles for Medical Research Involving Human Subjects. October 2013. URL: [https://www.wma.net/policies-post/wma-declaration-of-helsinki-ethical-principles-for-medical-research-involving-human-subjects/#:~:text=The%20World%20Medical%20Association%20\(WMA,identifiable%20human%20material%20and%20data.&text=Consistent%20with%20the%20mandate%20of,is%20addressed%20primarily%20to%20physicians.](https://www.wma.net/policies-post/wma-declaration-of-helsinki-ethical-principles-for-medical-research-involving-human-subjects/#:~:text=The%20World%20Medical%20Association%20(WMA,identifiable%20human%20material%20and%20data.&text=Consistent%20with%20the%20mandate%20of,is%20addressed%20primarily%20to%20physicians.) Fecha última consulta: 10.11.2020.
19. Jefatura del Estado. «BOE» núm. 294, de 6 de diciembre de 2018, RB-A-2018-16673. Ley Orgánica 3/2018, de 5 de diciembre, de Protección de Datos Personales y garantía de los derechos digitales. BOE-A-2018-16673. 2018. p. 1-67. URL: <https://www.boe.es/buscar/pdf/2018/BOE-A-2018-16673-consolidado.pdf>. Fecha última consulta: 13.04.2021.
20. International Society for Pharmacoepidemiology. Data Privacy, Medical Record Confidentiality, and Research in the Interest of Public Health. 19 August 1998. URL: <https://www.pharmacoepi.org/resources/policies/privacy/>. Fecha última consulta: 13.04.2021.
21. Leavy MB. Multinational registries: challenges and opportunities: addendum to registries for evaluating patient outcomes: a user's guide, third edition. Rockville (MD): Agency for Healthcare Research and Quality (US); 2018 Feb. URL: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK493607/>. Fecha última consulta: 12.04.2021.
22. Hall EA, Docherty CL. Validity of clinical outcome measures to evaluate ankle range of motion during the weight-bearing lunge test. *J Sci Med Sport* 2017; 20: 618-21.
23. Molund M, Husebye EE, Nilsen F, Hellesnes J, Berdal G, Hvala KH. Validation of a new device for measuring isolated gastrocnemius contracture and evaluation of the reliability of the Silfverskiöld test. *Foot Ankle Int* 2018; 39: 960-5.
24. Santonja F, Andújar P, Martínez I. Ángulo lumbo-horizontal y valoración de repercusiones del síndrome de isquiosurales cortos. *Apunt Educ Fis Deport* 1994; 31: 103-11.
25. Vigotsky AD, Lehman GJ, Beardsley C, Contreras B, Chung B, Feser EH. The modified Thomas test is not a valid measure of hip extension unless pelvic tilt is controlled. *Peer J* 2016; 4: e2325.
26. Simmons RW, Taggart TC, Thomas JD, Mattson SN, Riley EP. Gait control in children with attention-deficit/hyperactivity disorder. *Hum Mov Sci* 2020; 70: 102584.
27. Sánchez CR, Ramos C, Díaz F. Validación de la escala de evaluación del trastorno por déficit de atención/hiperactividad (TDAH) en población adolescente. *Rev Neurol* 2010; 50: 283-90.
28. Farré A, Narbona J. Escalas para la evaluación de trastorno por déficit de atención con hiperactividad. Madrid: TEA; 2013.
29. Morales-Hidalgo P, Hernández-Martínez C, Vera M, Voltas N, Canals J. Psychometric properties of the Conners-3 and Conners Early Childhood Indexes in a Spanish school population. *Int J Clin Heal Psychol* 2017; 17: 85-96.
30. Servera M, Llabrés J. Children sustainability attention test [Internet]. Madrid: TEA; 2015.
31. Wager J, Barth F, Stahlschmidt L, Zernikow B. Testing the validity of telephone interviews to assess chronic pain in children and adolescents: A randomized cross-over trial. *Eur J Pain (United Kingdom)* 2017; 21: 1707-16.
32. Raja SN, Carr DB, Cohen M, Finnerup NB, Flor H, Gibson S, et al. The revised International Association for the Study of Pain definition of pain: concepts, challenges, and compromises. *Pain* 2020; 161: 1976-82.
33. von Baeyer CL, Spagrud LJ. Systematic review of observational (behavioral) measures of pain for children and adolescents aged 3 to 18 years. *Pain* 2007; 127: 140-50.
34. Von Baeyer CL. Children's self-reports of pain intensity: scale selection, limitations and interpretation. *Pain Res Manag* 2006; 11: 157-62.
35. Leyva Carmona M, Torres Luna R, Ortiz San Román L, Marsinyach Ros I, Navarro Marchena L, Mangudo Paredes BA. Documento de posicionamiento del Grupo Español para el Estudio del Dolor Pediátrico (GEEDP) de la Asociación Española de Pediatría sobre el registro del dolor como 5.^a constante. *An Pediatr* 2019; 91: 58-9.
36. Quiles MJ, Van-Der Hofstadt CJ, Quiles Y. Instrumentos de evaluación del dolor en pacientes pediátricos: una revisión (1.^a parte). *Rev Soc Esp Dolor* 2003; 10: 94-105.
37. Quiles MJ, Van-Der Hofstadt CJ, Quiles Y. Instrumentos de evaluación del dolor en pacientes pediátricos: una revisión (2.^a parte). *Rev Soc Esp Dolor* 2004; 11: 360-9.
38. Thapar A, Cooper M, Jefferies R, Stergiakouli E. What causes attention deficit hyperactivity disorder? *Arch Dis Child* 2012; 97: 260.
39. Honig EL, Haerberle HS, Kehoe CM, Dodwell ER. Pediatric orthopedic mythbusters: the truth about flexible flatfeet, tibial and femoral torsion, W-sitting, and idiopathic toe-walking. *Curr Opin Pediatr* 2021; 33: 105-13.

Pain and Achilles tendon shortening in patients with idiopathic toe walking

Introduction. Idiopathic toe walking (ITW) is a heterogeneous disorder, which is associated with muscle shortening in lower limbs, pain and neurodevelopmental disorders. We try to study the frequency of clinical features in patients with ITW.

Patients and methods. Out of 100 patients evaluated with toe walking in a pediatric rehabilitation clinic, 77 (24,7% women) patients were diagnosed with ITW by means of TWT questionnaire. Achilles' tendon shortening with Silfverskiöld manoeuvre, pain and attention deficit hyperactivity disorder (ADHD) were studied. In the group of patients with pain ($n = 30$), we studied pain evolution by means of a telephonic interview which assessed intensity, location, school absenteeism and used therapies.

J. López-López, et al

Results. Out of 77 patients, 44.2% had family history of toe walking. 37.7% and 9.1% showed Achilles' tendon shortening and Knee flexor shortening, respectively. Confirmed diagnosed of ADHD was present in 9.1% and was suspected in 20.8%. The older the patient was, the higher frequency of pain and the lower passive ankle dorsiflexion. Pain has a moderate-severe intensity, was related with school absenteeism in 42.3% of the patients with pain. Pain was located mainly on the calf, the ankle and the foot. It was treated with physiotherapy, oral pain relievers, orthosis and botulinum toxin type A (BTxA).

Conclusions. Pain in ITW is frequent, have a moderate-severe intensity, interferes in normal life and is referred in older children with lower ankle dorsiflexion. We found a common association between ITW and ADHD which points out ITW as alarm sign of learning problems.

Key words. Articular range of motion. Child. Contracture. Gait. Musculoskeletal pain. Walking.

Anexo VI. Otros trabajos científicos presentados durante la investigación

1. Poster defendido en la 5ª jornada nacional del dolor infantil. (HULP 20-4-2021): "Relevancia del dolor infantil en la marcha de puntillas idiopática (MPI)"

5ª Jornada Nacional del dolor infantil

10 de abril 2021

RELEVANCIA DEL DOLOR INFANTIL EN LA MARCHA DE PUNTIILLAS IDIOPÁTICA (MPI)

J. López-López (1), J. Fernández-Jiménez (2), G. Carretero-Cristóbal (3), A. De Gorostegui (4), I. Pulido-Valdeolivas (5), J.A. Martín-Gonzalo (6), D. Gómez-Andrés (7), E. Rausell-Tamayo (8)

(1) Iñstituto de Rehabilitación Hospital Universitario Infanta Sofía (2) Iñstituto de Anestesiología y Reanimación Hospital Universitario Infanta Sofía (3) Iñstituto de Psiquiatría y Psicología Clínica Hospital Universitario Infanta Sofía (4) Facultad de Medicina Universidad Autónoma de Madrid (5) Iñstituto de Diagnóstico y Referencia Epidemiológica (6) Facultad de Medicina Universidad Autónoma de Madrid (7) Iñstituto de Diagnóstico y Referencia Epidemiológica (8) Iñstituto de Diagnóstico y Referencia Epidemiológica

INTRODUCCIÓN El dolor es causa frecuente de consulta médica en la marcha de puntillas idiopática (MPI). El diagnóstico de MPI exige una exclusión clínica sistemática que descarte otras patologías para lo que empleamos la herramienta TWT (Toe walking tool) que incluye diferentes variables clínicas. Estudiamos dichas variables en el grupo con dolor frente al asintomático mediante encuesta telefónica que defina mejor el dolor pediátrico.

OBJETIVOS Principal: Describir la relevancia del dolor en niños con MPI. Secundarios: Describir características clínicas y demográficas de niños con dolor por MPI, midiendo asociación con indicadores de neurodesarrollo, trastorno por déficit de atención e hiperactividad (TDAH), hallazgos ortopédicos o neurológicos descritos en la TWT.

MATERIAL Y METODOS
Tipo de estudio: De prevalencia, observacional, descriptivo, transversal, retrospectivo.
Población: Cohorte inicial de 100 niños remitidos por marcha de puntillas a una consulta de rehabilitación del Hospital Infanta Sofía entre los años 2008 y 2018. El cribado TWT halló 77 niños con MPI, 30 de los cuales presentaron dolor asociado (motivo de consulta).
Variables: Características clínicas de 30 niños con dolor asociado a MPI y su asociación con acortamiento aquileo, TDAH, PRN, antecedentes familiares, etc. Al grupo se le aplicó una encuesta telefónica para dolor pediátrico que incluyó intensidad, localización, absentismo escolar y terapias empleadas para dolor para definir la relevancia del dolor en la MPI.
Recogida de datos: Revisión de historias clínicas de MPI atendidas en la consulta de rehabilitación infantil de 2008 a 2018. Tras seleccionar la cohorte de dolor aplicamos una encuesta telefónica diseñada para definir mejor la relevancia del dolor en la MPI.
Plan de análisis estadístico: Análisis descriptivo (frecuencias).

BIBLIOGRAFÍA: Hall JE, Saller RB, Halla SK. "Congenital short tendo calcaneus". J Bone Joint Surg Br. 1967; 49(4): 695-697.
 Wang F, Barth L, Söhlberg M, S. Zornits. Testing the validity of telephone interview to assess idiopathic children and adolescents: A randomized cross-over trial. European journal of pain. 2017; 21 (2017): 2107-2126
 Sato S, Shikama T, Kennedy R, Grant A, Chu M. Idiopathic toe walking: A review. Developmental Medicine & Child Neurology. 1999; 41(12): 886-888
 Pomarino D, Ramirez-Llanusa J, Martín S, Pomarino A. "Literature Review of Idiopathic Toe Walking: Etiology, Prevalence, Classification, and Treatment." Foot & Ankle Specialist. 2017; 10(4):337-342.
 Williams CM, Finley P, Zurita M. The Toe Walking Tool: a novel method for assessing idiopathic toe walking children. Gait and posture 2010; 32: 508-11.
 López-Bustor de los Heras R, Cano de la Cuerda R, De la Llave-Rincon AI, Guerrero-Bilbao A, Plaza-Manzano S, Martín-Casá P. Traducción y adaptación transcultural de la Toe Walking Tool: herramienta para el cribado de la marcha de puntillas. Rev Neurol. 2018; 66(3): 95-100.

DOLOR EN MPI

MPI GLOBAL

TDAH DSM

Marcha de puntillas idiopática: MPI	MPI SIN DOLOR n=47	MPI CON DOLOR n=30
Varón - mujer (en %)	70,2 - 29,8 % (33-14)	83,3 - 16,7 % (25-5)
Desarrollo psicomotor normal	55,7 % (45)	100% (30)
Nacido a término	85,1 % (40)	90 % (27)
Peso adecuado a edad gestacional	83 % (38)	90 % (27)
Acortamiento de Aquiles	32 % (15)	46,6% (14)
Antecedentes familiares de MPI	53,2 % (25)	30 % (9)
Hiperreflexia reflejo cuadriceps	53,2 % (25)	40 % (12)
Hiperreflexia aquiles	10,6 % (5)	10 % (3)
Asociación con TDAH	34 % (16)	23,3 % (7)
Pueden balancear sin problema	31,9% (15)	13,3% (4)

TRATAMIENTO EMPLEADO

LOCALIZACIÓN DEL DOLOR

INTENSIDAD DEL DOLOR (media: 6,1)

ABSENTISMO POR DOLOR

CONCLUSIONES El Dolor es motivo frecuente de consulta en niños con MPI. Mediante la TWT se seleccionó de 100 andadores de puntillas una muestra representativa de 77 niños con MPI de los que el 38,96% consultó por dolor de intensidad media-alta (EVA: 6,1). La localización más frecuente fue pantorrilla, tobillo y pie (2/3). 37% faltaron al colegio por el dolor. El tratamiento más empleado de los asistidos en Rehabilitación para el dolor crónico fue la fisioterapia seguido del ibuprofeno y el paracetamol. La TWT tan sólo representó un 14% de los métodos terapéuticos empleados.

El acortamiento aquileo fue superior en el grupo con dolor (46,7%), mayor incluso que el descrito en bibliografía pero menor en el grupo sin dolor/asintomático (31,9%). Hubo antecedentes familiares de MPI en 53,2% de asintomáticos y tan sólo en el 30% del grupo con dolor. Se encontró clara relación entre TDAH y MPI pero sin mayor prevalencia de TDAH en la cohorte con dolor, concretamente 23,3% del grupo dolor y 34% de MPI asintomático.

La TWT y la encuesta telefónica fueron herramientas útiles de cribaje e investigación clínica en la MPI y el dolor crónico infantil.

2.- Ponencia presentada de la sociedad Española de Neurorehabilitación. Congreso de la Sociedad Española de Neurología. (Madrid 23-11-2020) "Uso de la TWT para describir niños con MPI en una consulta de rehabilitación infantil del Hospital Universitario Infanta Sofía. Resultados"

XXII REUNIÓN ANUAL DE LA SOCIEDAD ESPAÑOLA DE NEUROLOGÍA

23 de noviembre a 3 de diciembre de 2020

USO DE LA "TWT" PARA DESCRIBIR NIÑOS CON "MPI" EN UNA CONSULTA DEL HOSPITAL INFANTA SOFÍA: RESULTADOS.

J. López-López (1), C. Annibale (2), A. De Gorostegui (3), I. Pulido-Valdeolivas (4), J.A. Martín-Gonzalo (5), Wang Ting (3), Wang Yu (3), D. Gómez-Andrés (6), E. Rausell

INTRODUCCIÓN La marcha de puntillas idiopática (MPI) precisa de la combinación de diagnóstico clínico y de exclusión de otras patologías para lo que se usa la herramienta "Toe Walking Tool" (TWT). No todos los pacientes con MPI presentan acortamiento aquileo (flexión dorsal con rodilla extendida < 10°).

OBJETIVOS
Principal: Describir la prevalencia de acortamiento aquileo en pacientes con marcha de puntillas idiopática.
Secundarios: Describir la prevalencia de acortamiento de los isquiotibiales, del trastorno por déficit de atención hiperactividad (TDAH), dolor, uso del tacatá y otros indicadores neurológicos y neuromusculares de la TWT.

MATERIAL Y METODOS
Diseño → Estudio de prevalencia: observacional, descriptivo, transversal, retrospectivo.
Población → 77 niños con diagnóstico de MPI, remitidos a la consulta de rehabilitación del Hospital Infanta Sofía entre los años 2008 y 2018.
Variables → Las principales de la herramienta TWT, algunas de importante relevancia clínica como acortamiento aquileo - isquiotibial, TDAH, dolor, uso del tacatá, PRN, antec. familiar...
Recogida de datos → Revisión de historias clínicas atendidas en "Selene" en la consulta de rehabilitación infantil entre los años 2008 a 2018.
Plan de análisis estadístico → Análisis descriptivo (frecuencias).

BIBLIOGRAFÍA: Hall JE, Saller RB, Halla SK. "Congenital short tendo calcaneus". J Bone Joint Surg Br. 1967; 49(4): 695-697.
 Sato S, Shikama T, Kennedy R, Grant A, Chu M. Idiopathic toe walking: A review. Developmental Medicine & Child Neurology. 1999; 41(12): 886-888
 Pomarino D, Ramirez-Llanusa J, Martín S, Pomarino A. "Literature Review of Idiopathic Toe Walking: Etiology, Prevalence, Classification, and Treatment." Foot & Ankle Specialist. 2017; 10(4):337-342.
 Williams CM, Finley P, Zurita M. The Toe Walking Tool: a novel method for assessing idiopathic toe walking children. Gait and posture 2010; 32: 508-11.
 López-Bustor de los Heras R, Cano de la Cuerda R, De la Llave-Rincon AI, Guerrero-Bilbao A, Plaza-Manzano S, Martín-Casá P. Traducción y adaptación transcultural de la Toe Walking Tool: herramienta para el cribado de la marcha de puntillas. Rev Neurol. 2018; 66(3): 95-100.

RESULTADOS

Acortamiento aquileo (%)

Acortamiento de isquiotibiales

Presencia de TDAH (%)

Dolor

Uso del tacatá

Prematuridad (%)

PN < 2500 gramos (%)

AF de MPI (%)

CONCLUSIONES

- El Dolor es el motivo más frecuente de consulta en rehabilitación.
- La prevalencia de AF y TDAH, incluyendo dx confirmado y sospechoso, concuerda con la bibliografía. El acortamiento aquileo es menor al descrito en la mayor parte de los estudios. El resto de las características de la muestra son similares a series más amplias.
- Del casi centenar de andadores de puntillas atendidos la TWT rescató una muestra representativa de la MPI.
- La TWT es buena herramienta descriptiva y de cribaje MPI.



9. BIBLIOGRAFÍA

9. BIBLIOGRAFÍA

1. Instituto Nacional de Estadística 2019. INE. Censo poblacional por sexo, municipios y edad (año a año). [Internet]. 2019. 2018 [cited 2019 Oct 27]. Available from: <https://www.ine.es/jaxi/Datos.htm?path=/t20/e245/p05/a2018/10/&file=00028006.px>
2. Servicio de Admisión del Hospital Universitario Infanta Sofía. Registros TIS HUIS 2020. España: SERMAS-selene; 2020 p. web selene.
3. Griffin PP, Wheelhouse WW, Shiavi R, Bass W. Habitual toe-walkers. A clinical and electromyographic gait analysis. *J Bone Joint Surg Am* [Internet]. 1977 Jan [cited 2019 Oct 7];59(1):97–101. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/833184>
4. Conrad L, Bleck EE. Augmented auditory feed back in the treatment of equinus gait in children. *Dev Med Child Neurol* [Internet]. 1980 Dec 12 [cited 2019 Oct 7];22(6):713–8. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1111/j.1469-8749.1980.tb03737.x>
5. Shulman LH, Sala DA, Chu ML, McCaul PR, Sandler BJ. Developmental implications of idiopathic toe walking. *J Pediatr* [Internet]. 1997 Apr 1 [cited 2019 Sep 21];130(4):541–6. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9108850>
6. Fox AE, Deakin S, Pettigrew G, Paton R. Serial casting in the treatment of idiopathic toe-walkers and review of the literature [Internet]. Vol. 72, *Acta Orthopaedica Belgica*. 2006 [cited 2019 Oct 7]. p. 722–30. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/17260610>
7. Stricker SJ. Evaluation and treatment of the child with tiptoe gait [Internet]. Vol. 21, *International Pediatrics*. 2006 [cited 2019 Oct 10]. p. 91–6. Available from: http://www.int-pediatrics.org/PDF/Volume_21/21_2/91_99_IP_JUNE2006.pdf
8. Stricker SJ, Angulo JC. Idiopathic Toe Walking: A Comparison of Treatment Methods. *J Pediatr Orthop* [Internet]. 1998;18(3). Available from: https://journals.lww.com/pedorthopaedics/Full-text/1998/05000/Idiopathic_Toe_Walking__A_Comparison_of_Treatment.3.aspx
9. Sobel E, Caselli MA, Velez Z. Effect of persistent toe walking on ankle equinus. Analysis of 60 idiopathic toe walkers. *J Am Podiatr Med Assoc* [Internet]. 1997 Jan 1 [cited 2019 Oct 6];87(1):17–22. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9009544>
10. Pomarino D, Ramírez Llamas J, Pomarino A. Idiopathic Toe Walking: Tests and Family Predisposition. *Foot Ankle Spec* [Internet]. 2016 Aug 1 [cited 2021 Apr 21];9(4):301–6. Available from: <http://ovidsp-dc2-ovid-com.bvscsm.a17.csinet.es/sp-4.02.1a/ovidweb.cgi?WebLinkFrameset=1&S=BLIDFPCHPIEBHGAJIPCKMGEHHAMOAA00&returnUrl=ovidweb.cgi%3F%26Full%2BText%3DL%257cS.sh.22.23%257c0%257c00008480-201602000-00008%26S%3DBLIDFPCHPIEBHGAJIPCKMGEHHAMOAA00>

11. Pomarino D, Ramírez Llamas J, Pomarino A. Idiopathic Toe Walking: Family Predisposition and Gender Distribution. *Foot Ankle Spec*. 2016 Oct 1;9(5):417–22.
12. Taussig G, Delouvé E. [Idiopathic toe walker child. Diagnosis and spontaneous evolution]. *Ann Readapt Med Phys [Internet]*. 2001 Jul [cited 2019 Oct 8];44(6):333–9. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11587675>
13. Accardo P, Morrow J, Heaney MS, Whitman B, Tomazic T. Toe Walking and Language Development. *Clin Pediatr (Phila) [Internet]*. 1992 Mar 2 [cited 2019 Sep 21];31(3):158–60. Available from: <http://journals.sagepub.com/doi/10.1177/000992289203100306>
14. Martín-Casas P, Ballesteros-Pérez R, Meneses-Monroy A, Beneit-Montesinos JV, Atín-Arratibel MA, Portellano-Pérez JA. Neurodevelopment in preschool idiopathic toe-walkers. *Neurol (English Ed)*. 2017 Aug 1;32(7):446–54.
15. Hall JE, Salter RB, Bhalla SK. Congenital short tendo calcaneus. *J Bone Joint Surg Br [Internet]*. 1967 Nov [cited 2019 Oct 8];49(4):695–7. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/6073187>
16. Eastwood Deborah M, Xenia Denett, Lloyd K Shield RWD. Eastwood D et al Muscle abnormalities in ITW 2054554_50.pdf. *Jouanal Pediatr Orthop part B* 6 215-218 1997 [Internet]. 1997;Part B: 6:215–8. Available from: <http://ovidsp.dc2.ovid.com/sp-4.02.0b/ovidweb.cgi?T=-JS&PAGE=fulltext&D=ovft&AN=01202412-199707000-00012&NEWS=N&CSC=Y&CHANNEL=PubMed>
17. Brouwer B, Davidson LK, Olney SJ. Serial casting in idiopathic toe-walkers and children with spastic cerebral palsy. *J Pediatr Orthop*. 2000 Mar;20(2):221–5.
18. Engström P, Gutierrez-Farewik EM, Bartonek Å, Tedroff K, Orefelt C, Haglund-Åkerlind Y. Does botulinum toxin A improve the walking pattern in children with idiopathic toe-walking? *J Child Orthop [Internet]*. 2010 Aug [cited 2019 Oct 10];4(4):301–8. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/21804891>
19. Hemo Y, Macdessi SJ, Pierce RA, Aiona MD, Sussman MD. Outcome of Patients After Achilles Tendon Lengthening for Treatment of Idiopathic Toe Walking. *J Pediatr Orthop [Internet]*. 2006 [cited 2019 Sep 21];26(3):336–40. Available from: <https://insights.ovid.com/cross-ref?an=01241398-200605000-00011>
20. Hicks R, Durinick N, Gage JR. Differentiation of idiopathic toe-walking and cerebral palsy. *J Pediatr Orthop [Internet]*. 1988 [cited 2019 Oct 8];8(2):160–3. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/3350949>
21. Hirsch G, Wagner B. The natural history of idiopathic toe-walking: a long-term follow-up of fourteen conservatively treated children. *Acta Paediatr [Internet]*. 2004 Feb 1 [cited 2019 Oct 5];93(2):196–9. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/15046273>
22. Kalen, V; Adler, N; Bleck EE. Electromiography in idiopathic toe walkers. *J Pediatr Orthop [Internet]*. 1986;6(1):31–3. Available from: <https://www.c17.net/sf17/ill/request/3869919/download/96726208785fb19634bf191f4bf3120eb9f6bca8?created=1568112778&user=436950>
23. Pomarino D, Ramírez Llamas J, Martín S, Pomarino A. Literature Review of Idiopathic Toe Walking: Etiology, Prevalence, Classification, and Treatment. *Foot Ankle Spec [Internet]*. 2017 Aug 16 [cited 2019 Sep 2];10(4):337–42. Available from: <http://journals.sagepub.com/doi/10.1177/1938640016687370>
24. Sutherland DH, Olshen R, Cooper L, Woo SL. The development of mature gait. *J Bone Joint Surg Am [Internet]*. 1980 Apr;62(3):336–53. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/7364807>

25. Sutherland D, Olshen R, Biden E. The development of mature gait. *Gait Posture* [Internet]. 1997 Oct 1 [cited 2019 Sep 11];6(2):163–70. Available from: <https://www.sciencedirect.com/science/article/abs/pii/S0966636297000295?via%3Dihub>
26. Baber S, Michalitsis J, Fahey M, Rawicki B, Haines T, Williams C. A Comparison of the Birth Characteristics of Idiopathic Toe Walking and Toe Walking Gait Due to Medical Reasons. *J Pediatr*. 2016;171.
27. Mentiplay BF, Perraton LG, Bower KJ, Adair B, Pua YH, Williams GP, et al. Assessment of lower limb muscle strength and power using hand-held and fixed dynamometry: A reliability and validity study. *PLoS One*. 2015;10(10).
28. Clark E, Sweeney JK, Yocum A, McCoy SW. Effects of motor control intervention for children with idiopathic toe walking: a 5-case series. *Pediatr Phys Ther* [Internet]. 2010 Dec [cited 2022 Feb 11];22(4):417–26. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/21068642/>
29. Gormley J, Herring GM, Gaebler-Spira DJ. The use of botulinum toxin in children [Internet]. Vol. 4, *European Journal of Neurology*. Rapid Science Ltd; 1997 [cited 2019 Oct 13]. Available from: <https://www.scholars.northwestern.edu/en/publications/the-use-of-botulinum-toxin-in-children-a-retrospective-study-of-a>
30. Sala DA, Shulman LH, Kennedy RF, Grant AD, Chu MLY. Idiopathic toe-walking: A review. *Dev Med Child Neurol* [Internet]. 1999 Dec [cited 2019 Oct 6];41(12):S0012162299001681. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1017/S0012162299001681>
31. Multani I, Manji J, Hastings-Ison T, Khot A, Graham K. Botulinum Toxin in the Management of Children with Cerebral Palsy. *Pediatr Drugs* [Internet]. 2019 Aug 1 [cited 2019 Oct 7];21(4):261–81. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/31257556>
32. Marrus N, Eggebrecht AT, Todorov A, Elison JT, Wolff JJ, Cole L, et al. Walking, Gross Motor Development, and Brain Functional Connectivity in Infants and Toddlers. *Cereb Cortex* [Internet]. 2018 [cited 2019 Sep 12];28(2):750–63. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/29186388>
33. Engelbert R, Gorter JW, Uiterwaal C, van de Putte E, Helders P. Idiopathic toe-walking in children, adolescents and young adults: a matter of local or generalised stiffness? *BMC Musculoskelet Disord* [Internet]. 2011 Mar 21 [cited 2019 Oct 8];12(1):61. Available from: <https://bmcmusculoskeletdisord.biomedcentral.com/articles/10.1186/1471-2474-12-61>
34. Williams CM, Michalitsis J, Murphy A, Rawicki B, Haines TP. Do external stimuli impact the gait of children with idiopathic toe walking? A study protocol for a within-subject randomised control trial. *BMJ Open* [Internet]. 2013 [cited 2019 Sep 2];3(3):e002389. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/23454667>
35. Williams C, Tinley P, Curtin M. Vibration perception thresholds in children with idiopathic toe walking gait. *J Child Neurol*. 27.
36. Montgomery P, Gauger J. Sensory Dysfunction in Children Who Toe Walk. *Phys Ther* [Internet]. 1978 Oct 1 [cited 2019 Oct 6];58(10):1195–204. Available from: <http://academic.oup.com/ptj/article/58/10/1195/4559123>
37. Collignon H, Valleteau D. Un enfant qui marche sur la pointe des pieds. *Médecine & enfance*. 1997;
38. Tabrizi P, McIntyre WMJJ, Quesnel MB, Howard AW. Limited dorsiflexion predisposes to injuries of the ankle in children. 2000 Nov 1 [cited 2019 Oct 13];(8):1103–6. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/11132266/>

39. Hill R. Ankle equinus. Prevalence and linkage to common foot pathology. *J Am Podiatr Med Assoc* [Internet]. 1995 Jun [cited 2019 Oct 13];85(6):295–300. Available from: <http://www.japmaonline.org/doi/abs/10.7547/87507315-85-6-295>
40. Katz MM, Mubarak SJ. Hereditary tendo Achillis contractures. *J Pediatr Orthop* [Internet]. 1984 Nov [cited 2019 Oct 9];4(6):711–4. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/6511899>
41. Wilmore JH, Costill DL. Fisiología del esfuerzo y del deporte [Internet]. Editorial Paidotribo; 2004 [cited 2019 Oct 13]. 27–37 p. Available from: https://books.google.es/books?id=QOM901Sb8G-0C&pg=PP6&lpg=PP6&dq=Fisiología+del+esfuerzo+y+del+deporte.+Jack+H.+Wilmore.+David+L.+Costill,+SL.+Editorial+Paidotribo,+2004.&source=bl&ots=ccECFIQgeQ&sig=AC-fU3U0d4dKd9Qv98vBk7YZ_sYR_bAaJSA&hl=es&sa=X&ved=2
42. Levine MS. Congenital Short Tendo Calcaneus. *Am J Dis Child* [Internet]. 1973 Jun 1 [cited 2019 Oct 13];125(6):858. Available from: <http://archpedi.jamanetwork.com/article.aspx?doi=10.1001/archpedi.1973.04160060062014>
43. Haynes KB, Wimberly RL, Vanpelt JM, Jo CH, Riccio AI, Delgado MR. Toe Walking: A Neurological Perspective after Referral from Pediatric Orthopaedic Surgeons. *J Pediatr Orthop* [Internet]. 2018 [cited 2019 Nov 25];38(3):152–6. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/29309384/>
44. Valagussa G, Trentin L, Signori A, Grossi E. Toe Walking Assessment in Autism Spectrum Disorder Subjects: A Systematic Review [Internet]. *Autism Research* Oct, 2018 p. 1404–15. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1002/aur.2009>
45. Soto Insuga V, Moreno Vinués B, Losada del Pozo R, Rodrigo Moreno M, Martínez González M, Cutillas Ruiz R, et al. Do children with attention deficit and hyperactivity disorder (ADHD) have a different gait pattern? Relationship between idiopathic toe-walking and ADHD. *An Pediatría (English Ed)*. 2018 Apr;88(4):191–5.
46. American Psychiatric Association. American Psychiatric Association DSM-5. Manual Diagnóstico y Estadístico de los Trastornos Mentales DSM-5®. Editorial médica panamericana, editor. Editor Médica Panam [Internet]. 5ª. 2014 [cited 2021 Apr 18]; Available from: <https://www.medicapanamericana.com/es/libro/dsm-5-manual-diagnostico-y-estadistico-de-los-trastornos-mentales-incluye-version-digital>
47. Rodrigo Moreno M, Moreno Vinués B, Mateos Carmen C, Cutillas Ruiz R, Losada del Pozo R, Martínez González M, et al. ¿Caminan de manera diferente los niños con trastorno por déficit de atención hiperactividad (TDAH)? Relación entre marcha de puntillas idiopática y TDAH. *An Pediatría* [Internet]. 2017 [cited 2019 Nov 25];88(4):191–5. Available from: <https://www.analesdepediatria.org/es-pdf-S1695403317300358>
48. Carmen R. Sánchez, Concepción Ramos, Francisco Díaz MS. Validación de la escala de evaluación del trastorno por déficit de atención/hiperactividad (EDAH) en población adolescente. *Rev Neurol* [Internet]. 2010 [cited 2019 Oct 12];50(5):283–90. Available from: <https://www.psyciencia.com/wp-content/uploads/2012/11/Validacion-EDAH-en-poblacion-adolescente.pdf>
49. Farré A, Narbona J. Escalas para la evaluación de trastorno por déficit de atención con hiperactividad. TEA, editor. 7º. 2013 [cited 2019 Oct 12];9. Available from: http://www.web.teaediciones.com/Ejemplos/EDAH_Manual_EXTRACTO.pdf

50. Farré A., Narbona J. EDAH: Una escala para la evaluación del TDAH en niños de 6 a 12 años [Internet]. Ed EDAH. Evaluación del Trastorno por Déficit de Atención con Hiperactividad. . 2013 [cited 2021 Apr 18]. Available from: <https://www.fundacioncadah.org/web/articulo/edah-escala-para-la-evaluacion-del-tdah-en-ninos-de-6-a-12-anos-en-que-consiste.html>
51. Servera M. Llabrés J. Children Sustainability Attention Test [Internet]. TEA ediciones, editor. Madrid: Imprenta casillas Agustin Calvo 47, 28043 Madrid; 2015 [cited 2019 Oct 12]. 1–78 p. Available from: http://www.web.teaediciones.com/Ejemplos/CSAT-R_extracto_web.pdf
52. J. F-C. E-TDAH Escala de detección del TDAH y dificultades asociadas [Internet]. 1st ed. Ediciones T, editor. Madrid: TEA ediciones; 2020. 7–77 p. Available from: <https://web.teaediciones.com/Ejemplos/e-TDAH-extracto-web.pdf>
53. Williams CM, Tinley P, Curtin M. Idiopathic toe walking and sensory processing dysfunction. *J Foot Ankle Res* [Internet]. 2010 [cited 2019 Oct 6];3(1):16. Available from: <https://jfootankleres.biomedcentral.com/articles/10.1186/1757-1146-3-16>
54. Williams CM, Michalitsis J, Murphy AT, Rawicki B, Haines TP. Whole-Body Vibration Results in Short-Term Improvement in the Gait of Children with Idiopathic Toe Walking. *J Child Neurol*. 2016;31(9).
55. Williams CM, Tinley P, Curtin M, Wakefield S, Nielsen S. Is Idiopathic Toe Walking Really Idiopathic? The Motor Skills and Sensory Processing Abilities Associated With Idiopathic Toe Walking Gait. *J Child Neurol* [Internet]. 2014 Jan 24 [cited 2019 Sep 21];29(1):71–8. Available from: <http://journals.sagepub.com/doi/10.1177/0883073812470001>
56. Gibson EJ, Pick AD. An ecological approach to perceptual learning and development [Internet]. Oxford University Press; 2003 [cited 2019 Sep 22]. 238 p. Available from: <https://global.oup.com/academic/product/an-ecological-approach-to-perceptual-learning-and-development-9780195165494?cc=es&lang=en&>
57. Campos JJ, Anderson DI, Barbu-Roth MA, Hubbard EM, Hertenstein MJ, Witherington D. Travel Broadens the Mind. *Infancy* [Internet]. 2000 Apr 1 [cited 2019 Sep 22];1(2):149–219. Available from: http://doi.wiley.com/10.1207/S15327078IN0102_1
58. Leisman G, Moustafa A, Shafir T. Thinking, Walking, Talking: Integratory Motor and Cognitive Brain Function. *Front Public Heal* [Internet]. 2016 May 25 [cited 2019 Sep 23];4:94. Available from: <http://journal.frontiersin.org/Article/10.3389/fpubh.2016.00094/abstract>
59. Diamond A. Close Interrelation of Motor Development and Cognitive Development and of the Cerebellum and Prefrontal Cortex. *Child Dev* [Internet]. 2000 Jan 1 [cited 2019 Sep 23];71(1):44–56. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1111/1467-8624.00117>
60. Ghassabian A, Sundaram R, Bell E, Bello SC, Kus C, Yeung E. Gross Motor Milestones and Subsequent Development. *Pediatrics* [Internet]. 2016 [cited 2019 Sep 23];138(1). Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/27354457>
61. Graham AM, Pfeifer JH, Fisher PA, Lin W, Gao W, Fair DA. The potential of infant fMRI research and the study of early life stress as a promising exemplar. *Dev Cogn Neurosci* [Internet]. 2015 Apr [cited 2019 Sep 23];12:12–39. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/25459874>
62. Barber AD, Srinivasan P, Joel SE, Caffo BS, Pekar JJ, Mostofsky SH. Motor dexterity?: Evidence that left hemisphere lateralization of motor circuit connectivity is associated with better motor performance in children. *Cereb Cortex* [Internet]. 2012 Jan [cited 2019 Sep 23];22(1):51–9. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/21613469>

63. Nebel MB, Eloyan A, Nettles CA, Sweeney KL, Ament K, Ward RE, et al. Intrinsic Visual-Motor Synchrony Correlates With Social Deficits in Autism. *Biol Psychiatry* [Internet]. 2016 Apr 15 [cited 2019 Sep 23];79(8):633–41. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/26543004>
64. Kaiser ML, Schoemaker MM, Albaret JM GR. What is the evidence of impaired motor skills and motor control among children with attention deficit hyperactivity disorder (ADHD)? Systematic review of the literature. *Res Dev Disabil* [Internet]. 2015 Jan 1 [cited 2019 Sep 23];36:338–57. Available from: <https://www.sciencedirect.com/bvscsm.a17.csinet.es/science/article/abs/pii/S0891422214004132?via%3Dihub>
65. Engström P, Tedroff K. Idiopathic toe-walking: Prevalence and natural history from birth to ten years of age. *J Bone Jt Surg - Am Vol.* 2018; 100(8).
66. Kelly IP, Jenkinson A, Stephens M, O'Brien T. The kinematic patterns of toe-walkers. *J Pediatr Orthop.* 1997; 17(4):478–80.
67. Pendharkar G, Lai DTHH, Begg RK. Detecting idiopathic toe-walking gait pattern from normal gait pattern using heel accelerometry data and Support Vector Machines. In: Proceedings of the 30th Annual International Conference of the IEEE Engineering in Medicine and Biology Society, EMBS'08 - "Personalized Healthcare through Technology" [Internet]. IEEE; 2008 [cited 2019 Oct 6]. p. 4920–3. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/19163820/>
68. Anderson JM. Evidence-Based Care Guideline for Management of Idiopathic Toe Walking Idiopathic Toe Walking I in children and young adults ages 2 through 21 years Target Population [Internet]. 2011. Available from: <http://www.cincinnatichildrens.org/service/j/anderson->
69. Dietz F, Khunsree S. Idiopathic toe walking: to treat or not to treat, that is the question. *Iowa Orthop J* [Internet]. 2012 [cited 2019 Oct 5];32:184–8. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/23576939>
70. Bernhard M, Töpfer M, Vogler L, Merckenschlager A. Prevalence of toe-walking in childhood. *Neuropediatrics* [Internet]. 2005 Apr 14 [cited 2019 Oct 7];36(02):P116. Available from: <http://www.thieme-connect.de/DOI/DOI?10.1055/s-2005-868101>
71. Harris E. An Approach to Toe Walking: Appropriate Decision Making. In: D RJ, editor. *Pediatric Foot and ankle surgery.* 1999. p. 285–303.
72. Caselli MA, Rzonca EC, Lue BY. Habitual toe-walking: evaluation and approach to treatment. *Clin Podiatr Med Surg* [Internet]. 1988 Jul [cited 2019 Oct 6];5(3):547–59. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/3293753>
73. Gourdine-Shaw MC, Lamm BM, Herzenberg JE, Bhave A. Equinus Deformity in the Pediatric Patient: Causes, Evaluation, and Management. *Clin Pod Med Surg* [Internet]. 2010 Jan 1 [cited 2019 Oct 8];27(1):25–42. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/19963168/>
74. Solan MC, Kohls-Gatzoulis J, Stephens MM. Idiopathic Toe Walking and Contractures of the Triceps Surae. *Foot Ankle Clin* [Internet]. 2010 Jun [cited 2019 Oct 6];15(2):297–307. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/20534357>
75. Le Cras S, Bouck J, Brausch S, Taylor-Haas A. Cincinnati Children's Hospital Medical Center: Evidence-based clinical care guideline for management of idiopathic toe walking. Management [Internet]. 2011 [cited 2019 Sep 23]; Guideline: 1–17. Available from: <https://g-i-n.net/library/health-topics-collection/guidelines/ahrq-us/evidence-based-care-guideline-for-management-of-idiopathic-toe-walking-in-children-and-young-adults-ages-2-through-21-years.cincinnati-childrens-hospital-medical-center.ngc-008544>

76. Babb A, Carlson W. Idiopathic toe-walking. *S D Med*. 2008 Mar 1;61:53,55-57.
77. Ustaris LM, Seidman R, Bindra T, Basak R. Toe walking after three: How serious could it be? *BMJ Case Rep*. 2018;2018.
78. Westberry DE, Davids JR, Davis RB, de Morais Filho MC. Idiopathic Toe Walking. *J Pediatr Orthop* [Internet]. 2008 Apr [cited 2019 Oct 6];28(3):352–8. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/18362803>
79. Davies K, Black A, Hunt M, Holsti L. Long-term gait outcomes following conservative management of idiopathic toe walking. *Gait Posture* [Internet]. 2018 May 1 [cited 2019 Oct 5];62:214–9. Available from: idiopathic toe walking
80. Hall JE Salter RB BS. Congenital short tendo calcaneus Report of a family. *Am J Dis Child* [Internet]. 1973;125(6):858–9. Available from: PMID 4708278
81. Eastwood DM, Menelaus MB, Dickens DR, Broughton NS, Cole WG. Idiopathic toe-walking: does treatment alter the natural history? *J Pediatr Orthop B* [Internet]. 2000 Jan [cited 2019 Oct 8];9(1):47–9. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/10647110>
82. Futagi Y, Toribe Y, Ueda H, Suzuki Y. Neurodevelopmental outcome of children with idiopathic toe-walking. *No To Hattatsu*. 2001;33(6):511–6.
83. Alvarez C, De Vera M, Beauchamp R, Ward V, Black A. Classification of idiopathic toe walking based on gait analysis: Development and application of the ITW severity classification. *Gait Posture* [Internet]. 2007 Sep [cited 2019 Oct 13];26(3):428–35. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/17161602>
84. Martín-Casas P, Meneses-Monroy A, Ballestero-Pérez R, Beneit-Montesinos JV, Atín-Arratibel MA, Portellano-Pérez JA. Dynamic pedobarographic classification of idiopathic toe-walkers for therapeutical indication. *Clínica y Salud*. 2017 Feb 17;28(1):17–24.
85. López-Miñarro PÁ. Criterion-related validity of the lumbo-horizontal angle in flexion as a measure of hamstring muscle extensibility in young adults. *Cult Cienc y Deport*. 2010;5(13):25–31.
86. Molund M, Husebye EE, Nilsen F, Hellesnes J, Berdal G, Hvaal KH. Validation of a New Device for Measuring Isolated Gastrocnemius Contracture and Evaluation of the Reliability of the Silfverskiöld Test. *Foot Ankle Int*. 2018 Aug 1;39(8):960–5.
87. Jahn J, Vasavada AN, McMullin ML. Calf muscle-tendon lengths before and after Tendo-Achilles lengthenings and gastrocnemius lengthenings for equinus in cerebral palsy and idiopathic toe walking. *Gait Posture* [Internet]. 2009 Jun [cited 2019 Oct 7];29(4):612–7. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/19200730>
88. Raja SN, Carr DB, Cohen M, Finnerup NB, Flor H, Gibson S, et al. The revised International Association for the Study of Pain definition of pain: concepts, challenges, and compromises. *Pain* [Internet]. 2020 Sep 1 [cited 2021 Apr 11];161(9):1976–82. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/32694387/>
89. Ruzbarsky JJ, Scher D, Dodwell E. Toe walking: Causes, epidemiology, assessment, and treatment [Internet]. Vol. 28, *Current Opinion in Pediatrics*. Lippincott Williams and Wilkins; 2016 [cited 2020 Oct 22]. p. 40–6. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/26709689/>
90. Moore P, Hall R. Botulinum toxin type A in the treatment of lower limb spasticity in cerebral palsy. *Cochrane Database of Systematic Reviews cerebral palsy 2000*. John Wiley & Sons, Ltd (1465-1858). DOI: 10.1002/14651858. CD001408. Available from <https://doi.org/10.1002/14651858.CD001408>

91. Leyva Carmona M, Torres Luna R, Ortiz San Román L, Marsinyach Ros I, Navarro Marchena L, Belén Mangudo Paredes A. Documento de posicionamiento del Grupo Español para el Estudio del Dolor Pediátrico (GEEDP) de la Asociación Española de Pediatría sobre el registro del dolor como quinta constante. *An Pediatr* [Internet]. 2019 [cited 2021 Apr 11];91(1):58–9. Available from: www.analesdepediatria.org
92. Sivaramakrishnan S, Seal A. Fifteen-minute consultation: A child with toe walking. *Arch Dis Child Educ Pract Ed* [Internet]. 2015 [cited 2020 Oct 22];100(5):238–41. Available from: <http://ep.bmj.com/>
93. Williams ACDC, Craig KD. Updating the definition of pain. Vol. 157, *Pain*. Lippincott Williams and Wilkins; 2016. p. 2420–3.
94. Wager J, Barth F, Stahlschmidt L, Zernikow B. Testing the validity of telephone interviews to assess chronic pain in children and adolescents: A randomized cross-over trial. *Eur J Pain (United Kingdom)* [Internet]. 2017 Nov 1 [cited 2021 Mar 20];21(10):1707–16. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/28758312/>
95. Von Baeyer CL. Children's self-report of pain intensity: What we know, where we are headed. Vol. 14, *Pain Research and Management*. Hindawi Limited; 2009. p. 39–45.
96. von Baeyer CL, Spagrud LJ. Systematic review of observational (behavioral) measures of pain for children and adolescents aged 3 to 18 years. *Pain* [Internet]. 2007 Jan [cited 2021 Apr 11];127(1–2):140–50. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/16996689/>
97. Williams CM, Pacey V, de Bakker PB, Caserta AJ, Gray K, Engelbert RH. Interventions for idiopathic toe walking. *Cochrane Database Syst Rev* [Internet]. 2016 Oct 3 [cited 2019 Sep 9];(10). Available from: <http://doi.wiley.com/10.1002/14651858.CD012363>
98. Reinker KA. Does Idiopathic Toe-Walking Spontaneously Correct? *J Bone Jt Surg [Internet]*. 2018 Apr [cited 2019 Oct 5];100(8):e53. Available from: <http://insights.ovid.com/cross-ref?an=00004623-201804180-00014>
99. Pomarino D, Ramírez-Llamas J, Martin S, Pomarino A. The 3-Step Pyramid Insole Treatment Concept for Idiopathic Toe Walking. Vol. 9, *Foot and Ankle Specialist*. 2016.
100. Eiff MP, Steiner E, Judkins DZ, Winkler-Prins V. Clinical inquiries. What is the appropriate evaluation and treatment of children who are “toe walkers”? *J Fam Pract* [Internet]. 2006 May [cited 2019 Oct 15];55(5):447, 450. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/16670043>
101. Foley G, Aubin CE, Labelle H, Sanders J, d'Astous J, Johnston C, et al. The Rib Vertebra Angle Difference and its Measurement in 3D for the evaluation of early onset scoliosis. *Stud Health Technol Inform* [Internet]. 2012 [cited 2019 Sep 30];176:238–41. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/22744499>
102. Rawicki B, Sheean G, Fung VSC, Goldsmith S, Morgan C, Novak I. Botulinum toxin assessment, intervention and aftercare for paediatric and adult niche indications including pain: International consensus statement [Internet]. Vol. 17, *European Journal of Neurology*. John Wiley & Sons, Ltd (10.1111); 2010 [cited 2019 Sep 24]. p. 122–34. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1111/j.1468-1331.2010.03132.x>
103. Ruzbarsky JJ, Scher D, Dodwell E. Toe walking. *Curr Opin Pediatr* [Internet]. 2016 Feb [cited 2019 Oct 5];28(1):40–6. Available from: <http://content.wkhealth.com/linkback/openurl?sid=WKPTLP:landingpage&an=00008480-201602000-00008>

104. Somogyi E, Kapitány E, Kenyeres K, Donauer N, Fagard J, Kónya A. Visual feedback increases postural stability in children with autism spectrum disorder. *Res Autism Spectr Disord*. 2016;29–30.
105. Gámez-Iruela J, Sedeño-Vidal A, Fernández-Herrera D. Efectividad del tratamiento en el abordaje de la marcha de puntillas idiopática. Revisión sistemática. *Fisioterapia* [Internet]. 2015 Jan 1 [cited 2019 Oct 10];37(1):35–40. Available from: <https://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S0211563814000686?via%3Dihub>
106. Moll I, Vles JSH, Soudant DLHM, Witlox AMA, Staal HM, Speth LAW, et al. Functional electrical stimulation of the ankle dorsiflexors during walking in spastic cerebral palsy: a systematic review. *Dev Med Child Neurol* [Internet]. 2017 Dec [cited 2019 Oct 15];59(12):1230–6. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/28815571>
107. Brunt D, Woo R, Kim HD, Ko MS, Senesac C, Li S. Effect of botulinum toxin type A on gait of children who are idiopathic toe-walkers. *J Surg Orthop Adv* [Internet]. 2004 [cited 2019 Oct 7];13(3):149–55. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/15559690>
108. Servicio Madrileño de Salud. Contrato Programa 2019 del Servicio Madrileño de Salud con la Gerencia Asistencial de Atención Primaria [Internet]. Comunidad de Madrid. 2019. 1–26 p. Available from: http://www.comunidad.madrid/sites/default/files/doc/sanidad/gest/contrato_programa_2019_gaap.pdf
109. Harvey LA, Katalinic OM, Herbert RD, Moseley AM, Lannin NA, Schurr K. Stretch for the treatment and prevention of contractures [Internet]. Vol. 2017, *Cochrane Database of Systematic Reviews*. 2017 [cited 2019 Oct 15]. p. CD007455. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/28146605>
110. Radford JA, Burns J, Buchbinder R, Landorf KB, Cook C. Does stretching increase ankle dorsiflexion range of motion? A systematic review. *Br J Sports Med* [Internet]. 2006 Oct [cited 2019 Oct 13];40(10):870–5; discussion 875. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/16926259>
111. Gray K, Pacey V, Gibbons P, Little D, Frost C, Burns J. Interventions for congenital talipes equinovarus (clubfoot). In: Gray K, editor. *Cochrane Database of Systematic Reviews* [Internet]. Chichester, UK: John Wiley & Sons, Ltd; 2012 [cited 2019 Oct 15]. p. CD008602. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/22513960>
112. Chilibeck PD, Vatanparast H, Cornish SM, Abeysekera S, Charlesworth S. Evidence-based risk assessment and recommendations for physical activity: arthritis, osteoporosis, and low back pain¹ This paper is one of a selection of papers published in the Special Issue entitled Evidence-based risk assessment and recomme. *Appl Physiol Nutr Metab* [Internet]. 2011 Jul [cited 2019 Sep 24];36(S1):S49–79. Available from: <http://www.nrcresearchpress.com/doi/10.1139/h11-037>
113. Caserta AJ, Pacey V, Fahey M, Gray K, Engelbert RHH, Williams CM. Interventions for idiopathic toe walking [Internet]. Vol. 2019, *Cochrane Database of Systematic Reviews*. John Wiley and Sons Ltd; 2019 [cited 2021 Apr 4]. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31587271/>
114. Zapata KA, Wang-Price SS, Sucato DJ. Six-month follow-up of supervised spinal stabilization exercises for low back pain in adolescent idiopathic scoliosis. *Pediatr Phys Ther*. 2017;29(1).
115. van der Heijden RA, Lankhorst NE, van Linschoten R, Bierma-Zeinstra SM, van Middelkoop M. Exercise for treating patellofemoral pain syndrome [Internet]. *Cochrane Database of Systematic Reviews* John Wiley and Sons Ltd; Jan 20, 2015. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1002/14651858.CD010387.pub2>

116. Demetrios M, Khan F, Turner-Stokes L, Brand C, Mcsweeney S. Multidisciplinary rehabilitation following botulinum toxin and other focal intramuscular treatment for post-stroke spasticity [Internet]. Vol. 2013, Cochrane Database of Systematic Reviews. John Wiley and Sons Ltd; 2013 [cited 2021 Apr 18]. Available from: <https://www.cochranelibrary.com/cdsr/doi/10.1002/14651858.CD009689.pub2/full>
117. Boletín Oficial del Estado. Disposición 13647 del BOE núm. 310 de 2013. Jef del Estado [Internet]. 2013 [cited 2022 Jun 19];27:105296–311. Available from: https://www.boe.es/diario_boe/txt.php?id=BOE-A-2013-13647
118. web de la consejería de Salud de la comunidad de Madrid Sección de Rehabilitación | Hospital Universitario Infanta Sofía [Internet]. IMSALUD madrid.org. [cited 2021 Apr 18]. Available from: <https://www.comunidad.madrid/hospital/infantasofia/profesionales/servicios-centrales/seccion-rehabilitacio>
119. Jacks LK, Michels DM, Smith BP, Koman LA, Shilt J. Clinical usefulness of botulinum toxin in the lower extremity. *Foot Ankle Clin* [Internet]. 2004 Jun [cited 2019 Oct 13];9(2):339–48. Available from: <https://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S108375150400004X>
120. Michalitsis J, Murphy AT, Rawicki B, Haines TP, Williams C. Full length foot orthoses have an immediate treatment effect and modify gait of children with idiopathic toe walking. *Gait Posture* [Internet]. 2019 Feb 1 [cited 2019 Oct 16];68:227–31. Available from: <https://www.sciencedirect.com/science/article/abs/pii/S0966636218318526>
121. Fanchiang HD, Geil MD, Wu J, Ajisafe T, Chen YP. The Effects of Walking Surface on the Gait Pattern of Children with Idiopathic Toe Walking. *J Child Neurol* [Internet]. 2016 Jun 5 [cited 2019 Oct 15];31(7):858–63. Available from: <http://journals.sagepub.com/doi/10.1177/0883073815624760>
122. Koman LA, Mooney JF, Smith B, Goodman A, Mulvaney T. Management of cerebral palsy with botulinum-A toxin: preliminary investigation. *J Pediatr Orthop* [Internet]. 1993 Jul [cited 2019 Oct 7];13(4):489–95. Available from: <https://insights.ovid.com/cross-ref?an=01241398-199307000-00013>
123. Zhao CM, Yu RG, Liao W. Botulinum toxin type A in the treatment of lower limb spasticity in cerebral palsy. *Chinese J Clin Rehabil* [Internet]. 2002 Jan 24 [cited 2019 Oct 7];6(19):CD001408. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/10796784>
124. Engström P, Bartonek A, Tedroff K, Orefelt C, Haglund-Akerlind Y, Gutierrez-Farewik EM. Botulinum toxin a does not improve the results of cast treatment for idiopathic toe-walking a randomized controlled trial. *J Bone Jt Surg - Ser A*. 2013 Mar 6;95(5):400–7.
125. Santamato A, Panza F, Intiso D, Baricich A, Picelli A, Smania N, et al. Long-term safety of repeated high doses of incobotulinumtoxinA injections for the treatment of upper and lower limb spasticity after stroke. *J Neurol Sci* [Internet]. 2017 Jul 15 [cited 2019 Oct 21];378:182–6. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/28566161>
126. Frevert J. Pharmaceutical, Biological, and Clinical Properties of Botulinum Neurotoxin Type A Products. *Drugs R D* [Internet]. 2015 Mar [cited 2019 Oct 21];15(1):1–9. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/25559581>
127. Carraro E, Trevisi E, Martinuzzi A. Safety profile of incobotulinum toxin A [Xeomin®] in gastrocnemius muscles injections in children with cerebral palsy: Randomized double-blind clinical trial. *Eur J Paediatr Neurol* [Internet]. 2016 Jul 1 [cited 2019 Oct 7];20(4):532–7. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/27177451>

128. IncobotulinumtoxinA [Internet]. Drugs and Lactation Database (LactMed). 2006 [cited 2019 Oct 21]. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/31260234>
129. Field M, Splevins A, Picaut P, van der Schans M, Langenberg J, Noort D, et al. AbobotulinumtoxinA (Dysport®), onabotulinumtoxinA (botox®), and incobotulinumtoxinA (xeomin®) neurotoxin content and potential implications for duration of response in patients. *Toxins (Basel)*. 2018;10(12):1–14.
130. Trompetto C, Marinelli L, Mori L, Puce L, Pelosin E, Serrati C, et al. Do flexible inter-injection intervals improve the effects of botulinum toxin A treatment in reducing impairment and disability in patients with spasticity? *Med Hypotheses* [Internet]. 2017 May [cited 2019 Oct 21];102:28–32. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/28478825>
131. Jost WH, Kohl A. Botulinum toxin: evidence-based medicine criteria in rare indications. *J Neurol* [Internet]. 2001 Apr 10 [cited 2019 Oct 7];248(S1):139–44. Available from: <http://link.springer.com/10.1007/PL00007819>
132. Boletín Oficial del Estado. Ley 41/2002, de 14 de noviembre, básica reguladora de la autonomía del paciente y de derechos y obligaciones en materia de información y documentación clínica. BOE-A-2002-22188-consolidado. 2002;1–14.
133. Datta Gupta A, Edwards S, Smith J, Snow J, Visvanathan R, Tucker G, et al. A Systematic Review and Meta-Analysis of Efficacy of Botulinum Toxin A for Neuropathic Pain. *Toxins (Basel)* [Internet]. 2022 Jan 1 [cited 2022 Feb 10];14(1). Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/35051013/>
134. Alvarez CM, Devera M, Lau V. PAPER 049: Early effect of botulinum toxin type a on ankle range of motion in children diagnosed with severe idiopathic toe walking. In: *Orthopaedic Proceedings* [Internet]. The British Editorial Society of Bone & Joint Surgery; 2010 [cited 2019 Oct 21]. p. 11. Available from: https://online.boneandjoint.org.uk/doi/abs/10.1302/0301-620X.92BSUP-P_1.0920011
135. Kogan M, Smith J. Simplified approach to idiopathic toe-walking. *J Pediatr Orthop* [Internet]. [cited 2019 Oct 15];21(6):790–1. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11675556>
136. Stott, N. Susan MB, ChB, PhD, FRACS*; Walt, Sharon E. PhD+; Lobb, Glenis A. BA*; Reynolds, Nicola MSc+; Nicol, Richard O. FRCS(Edin) F. Treatment for Idiopathic Toe-Walking: Results at Skeletal Maturity. *Journal of Pediatric Orthopaedics*, Número: Volume 24(1), January/February 2004 pp 63-69, Copyright: (C) 2004 Lippincott Williams & Wilkins I, Tipo de publicación: [Gait Analysis], ISSN: 0271-6798, Registro: 01241398-200401000-00012, editors. *J Pediatr Orthop Pediatr Orthop Soc North Am Eur Paediatr Orthop Soc* [Internet]. 2004 [cited 2019 Oct 13];24(1 (january-february)):63–9. Available from: <http://ovidsp-dc2-ovid-com.bvscsm.a17.csi-net.es/sp-4.02.1a/ovidweb.cgi?T=JS&PAGE=fulltext&D=ovft&AN=01241398-200401000-00012&NEWS=N&CSC=Y&CHANNEL=PubMed>
137. Moreau MJ, Lake DM. Outpatient Percutaneous Heel Cord Lengthening in Children. *J Pediatr Orthop* [Internet]. 1987 May [cited 2019 Oct 15];7(3):253–5. Available from: <https://insights.ovid.com/crossref?an=01241398-198705000-00001>
138. McMulkin ML, Baird GO, Caskey PM, Ferguson RL. Comprehensive Outcomes of Surgically Treated Idiopathic Toe Walkers. 2006 Sep [cited 2019 Sep 21];26(5). Available from: <https://insights.ovid.com/crossref?an=01241398-200609000-00009>
139. Yngve DA, Chambers C. Vulpius and Z-lengthening. *J Pediatr Orthop* [Internet]. 1996 Nov [cited 2019 Oct 13];16(6):759–64. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/8906648>

140. de Oliveira VGC, Arrebola LS, de Oliveira PR, De Sá C dos S, Yi LC. Effect of Plantar Flexor Muscle Strengthening on the Gait of Children with Idiopathic Toe Walking: A Study Protocol. *Pediatr Phys Ther* [Internet]. 2019 Oct 1 [cited 2020 Feb 21];31(4):373–8. Available from: <http://insights.ovid.com/crossref?an=00001577-201910000-00018>
141. Lai DTH, Begg RK, Palaniswami M. Computational intelligence in gait research: A perspective on current applications and future challenges. *IEEE Trans Inf Technol Biomed* [Internet]. 2009 [cited 2021 Apr 11];13(5):687–702. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/19447724/>
142. Bronstein, A., & Brandt, T. (2004). *Clinical disorders of balance, posture and gait*. London. CRC Press 2004 Oct; ch4-6: 63–98. available in: <https://books.google.es/books?hl=es&lr=&id=OUFZDwAAQBAJ&oi=fnd&pg=PP1&dq=149.+Bronstein,+Adolfo+M.+Clinical+Disorders+of+Balance,+Posture+and+Gait.&ots=WTt6pAt282&sig=IcZHjvMCovfQaMD-DRdr9OgVg8bl#v=onepage&q=149.%20Bronstein%2C%20Adolfo%20M.%20Clinical%20Disorders%20of%20Balance%2C%20Posture%20and%20Gait.&f=false>
143. Bridenbaugh, Stephanie A, Kressig RW. Motor cognitive dual tasking: early detection of gait impairment, fall risk and cognitive decline. [Internet]. *Z Gerontol Geriatr*; 48(1). 2015 [cited 2021 Apr 11]. p. 15–21. Available from: <https://link-springer-com.bvcscm.a17.csinet.es/content/pdf/10.1007/s00391-014-0845-0.pdf>
144. Morris ME, Huxham F, McGinley J, Dodd K, Iansek R. The biomechanics and motor control of gait in Parkinson disease [Internet]. Vol. 16, *Clinical Biomechanics*. Elsevier; 2001 [cited 2021 Apr 11]. p. 459–70. Available from: <https://www.sciencedirect-com.bvcscm.a17.csinet.es/science/article/pii/S0268003301000353>
145. Evangelopoulou E, Twiste M, Buckley JG. Restricting ankle motion via orthotic bracing reduces toe clearance when walking over obstacles. *Gait Posture*. 2016;43.
146. Pulido-Valdeolivas I, Gómez-Andrés D, Martín-Gonzalo JA, Rodríguez-Andonaegui I, López-López J, Pascual-Pascual SI, et al. Gait phenotypes in paediatric hereditary spastic paraplegia revealed by dynamic time warping analysis and random forests. *PLoS One*. 2018 Mar 1;13(3).
147. James R Gage, Michael H Schwartz, Steven E Koop. The identification and treatment of gait problems in cerebral palsy (Libro, 2014) [WorldCat.org] [Internet]. Editorial: London : Mac Keith Press, *Clinics in Developmental Medicine*, no 180-181. 2014 [cited 2021 Apr 11]. Available from: <https://www.worldcat.org/title/identification-and-treatment-of-gait-problems-in-cerebral-palsy/oclc/909968268?referer=di&ht=edition>
148. Dobson F, Morris ME, Baker R, Kerr Graham H. Gait classification in children with cerebral palsy: A systematic review. *Gait Posture* [Internet]. 2007 [cited 2021 Apr 11];25:140–52. Available from: www.elsevier.com/locate/gaitpost
149. Booth ATC, Buizer AI, Meyns P, Oude Lansink ILB, Steenbrink F, van der Krogt MM. The efficacy of functional gait training in children and young adults with cerebral palsy: a systematic review and meta-analysis [Internet]. Vol. 60, *Developmental Medicine and Child Neurology*. Blackwell Publishing Ltd; 2018 [cited 2021 Apr 11]. p. 866–83. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/29512110/>
150. Moreau NG, Bodkin AW, Bjornson K, Hobbs A, Soileau M, Lahasky K. Effectiveness of rehabilitation interventions to improve gait speed in children with cerebral palsy: Systematic review and Meta-Analysis [Internet]. Vol. 96, *Physical Therapy*. American Physical Therapy Association; 2016 [cited 2021 Apr 11]. p. 1938–54. Available from: pmc/articles/PMC5131187/
151. Chang FM, Rhodes JT, Flynn KM, Carollo JJ. The Role of Gait Analysis in Treating Gait Abnormalities in Cerebral Palsy. *Orthop Clin NA*. 2010;41:489–506.

152. Schutte LM, Narayanan U, Stout JL, Selber P, Gage JR, Schwartz MH. An index for quantifying deviations from normal gait. *Gait Posture*. 2000 Feb 1;11(1):25–31.
153. Pulido-Valdeolivas I, Gomez-Andres D, Martin JA, Lopez J, Gómez-Barrena E, Rausell E. P6.15 The basiogram: a plot representation of gait. *Clin Neurophysiol* [Internet]. 2011 Jun 1 [cited 2017 Sep 24];122:S87. Available from: <http://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S1388245711603040>
154. Westberry DE, Davids JR, Davis RB, De Morais Filho MC. Idiopathic toe walking: A kinematic and kinetic profile. *J Pediatr Orthop*. 2008 Apr;28(3):352–8.
155. Armand S, Watelain E, Roux E, Mercier M, Lepoutre FX. Linking clinical measurements and kinematic gait patterns of toe-walking using fuzzy decision trees. *Gait Posture* [Internet]. 2007 Mar [cited 2019 Oct 23];25(3):475–84. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/16837198>
156. Papariello SG, Skinner SR. Dynamic electromyography analysis of habitual toe-walkers. *J Pediatr Orthop* [Internet]. [cited 2019 Oct 13];5(2):171–5. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/3988918>
157. Crenna P, Fedrizzi E, Andreucci E, Frigo C, Bono R. The heel-contact gait pattern of habitual toe walkers. *Gait Posture* [Internet]. 2005 Apr 1 [cited 2019 Oct 13];21(3):311–7. Available from: <https://www.sciencedirect-com.bvscm.a17.csinet.es/science/article/abs/pii/S0966636204000529>
158. Perry J BJ. *Gait Analysis: Normal and Pathological Function* [Internet]. Perry J. 2010 [cited 2021 Apr 11]. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3761742/>
159. Caserta AJ, Morgan P, Williams C. Identifying methods for quantifying lower limb changes in children with idiopathic toe walking: A systematic review. *Gait Posture* [Internet]. 2019 Jan 1 [cited 2019 Oct 15];67(May 2018):181–6. Available from: <https://www.sciencedirect.com/science/article/abs/pii/S0966636218305733>
160. Hicks JH. The mechanics of the foot. II. The plantar aponeurosis and the arch. *J Anat* [Internet]. 1954 Jan [cited 2019 Oct 13];88(1):25–30. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/13129168>
161. Williams CM, Tinley P, Curtin M. The Toe Walking Tool: A novel method for assessing idiopathic toe walking children. *Gait Posture* [Internet]. 2010 [cited 2020 Oct 22];32(4):508–11. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.gaitpost.2010.07.011>
162. Williams CM, Tinley P, Curtin M. Corrigendum to “The Toe Walking Tool: A novel method for assessing idiopathic toe walking children” [*Gait Posture* 32 (2010) 508–511]. Vol. 34, *Gait and Posture*. 2011. p. 442.
163. López-Bustos de las Heras R, Cano de la Cuerda R, de la Llave Rincón AI, Guerrero Blázquez A, Plaza Manzano G, Martín Casas P. Traducción y adaptación transcultural de la Toe Walking Tool : herramienta para el cribado de la marcha de puntillas. *Rev Neurol* [Internet]. 2019 Aug 1 [cited 2019 Oct 9];69(03):99. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/31309999>
164. Williams C, Tinley P, Curtin M. The “Toe Walking Tool”: a novel method of assessing toe walking children. *J Foot Ankle Res*. 2011 Dec;4(S1):1–2.
165. Bart O, Raz S, Dan O. Reliability and Validity of the Online Continuous Performance Test Among Children. *Assessment* [Internet]. 2014 Oct 21 [cited 2019 Oct 12];21(5):637–43. Available from: <http://journals.sagepub.com/doi/10.1177/1073191114530777>

166. Williams CM, Tinley P, Curtin M, Nielsen S. Hand preference in children with an idiopathic toe walking gait. *Acta Paediatr Int J Paediatr*. 2012 Mar; 101(3).
167. Santonja F, Andújar P, Martínez I. Ángulo lumbo-horizontal y valoración de repercusiones del Síndrome de Isquiosurales Cortos. *Apunt Educ Fis y Deport [Internet]*. 1994 [cited 2020 Feb 18];(31):103–11. Available from: <https://www.apunts.org/en-pdf-X0213371794054493>
168. Russell DJ, Avery LM, Walter SD, Hanna SE, Bartlett DJ, Rosenbaum PL, et al. Development and validation of item sets to improve efficiency of administration of the 66-item Gross Motor Function Measure in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol*. 2010 Feb; 52(2).
169. Eliasson AC, Krumlinde-Sundholm L, Rösblad B, Beckung E, Arner M, Öhrvall AM, et al. The Manual Ability Classification System (MACS) for children with cerebral palsy: Scale development and evidence of validity and reliability [Internet]. Vol. 48, *Developmental Medicine and Child Neurology*. 2006 [cited 2019 Oct 21]. p. 549–54. Available from: <https://www.macs.nu/download-content.php>
170. Koman LA, Brashear A, Rosenfeld S, Chambers H, Russman B, Rang M, et al. Botulinum toxin type A neuromuscular blockade in the treatment of equinus foot deformity in cerebral palsy: A multicenter, open-label clinical trial. *Pediatrics*. 2001; 108(5):1062–71.
171. López-Valverde Argüeso M et al. Grupo de sistemas de información y salud digital. Consejería de Sanidad. Sistemas de Información de atención hospitalaria y del centro de imagen médica, del Servicio Madrileño de Salud. Available from: <https://www.comunidad.madrid/transparencia/unidad-organizativa-responsable/d-g-sistemas-informacion-y-salud-digital>.
172. Boletín Oficial del Estado-Jefatura de Estado. Ley Orgánica 3/2018, de 5 de diciembre, de Protección de Datos Personales y garantía de los derechos digitales. BOE [Internet]. 2018 [cited 2019 Oct 27]; 119778–857. Available from: <https://www.boe.es/buscar/act.php?id=BOE-A-2018-16673>
173. López-López, J; Gómez-Andrés D. Rehabilitación Infantil. Ch 6: 41-48; Marcha infantil normal y patológica. Ed. Médica Panamericana; Madrid, 2012. ISBN: 978-84-9835344-0 Available: <https://dialnet.unirioja.es/servlet/libro?codigo=684984>
174. Karel G. B. Maathuis, Cees P. van der Schans, Andries van Iperen, Hans S. Rietman, Jan H. B. Geertzen. Gait in children with cerebral palsy: observer reliability of Physician Rating Scale and Edinburgh Visual Gait Analysis Interval Testing scale. *J Pediatr Orthop [Internet]*. 2005 [cited 2022 May 29]; 25(3):268–72. Available from: https://www.researchgate.net/publication/7905276_Gait_in_children_with_cerebral_palsy_observer_reliability_of_Physician_Rating_Scale_and_Edinburgh_Visual_Gait_Analysis_Interval_Testing_scale
175. de Kleijn A, Magnus R. Beiträge zum Problem der Körperstellung. *Pflüger's Arch für die gesamte Physiol des Menschen und der Tiere* 1920 1801 [Internet]. 1920 Dec [cited 2022 May 29]; 180(1):291–7. Available from: <https://link.springer.com/article/10.1007/BF01755093>
176. Barrett KE, Ganong WF. Ganong's review of medical physiology. 2012 [cited 2022 May 29]; 752. Available from: https://books.google.com/books/about/Ganong_s_Review_of_Medical_Physiology.html?hl=es&id=jGdsMgEACAAJ
177. Freeman FN, Sherrington S. The Integrative Action of the Nervous System. New York Charles Scribner's sons, editor. *J Philos Psychol Sci Methods [Internet]*. 1st ed. 1907 Oct [cited 2022 May 29]; 4(11):301. Available from: <https://archive.org/details/integrativeacti01shergoog>
178. Gómez-Andrés D. Nuevas herramientas para el análisis de marcha en parálisis cerebral infantil [Internet]. Facultad de medicina, Universidad Autónoma de Madrid; 2017. Available from: <http://hdl.handle.net/10486/678520>

179. Pulido-Valdeolivas I. Patrones de marcha de la paraparesia espástica hereditaria en edad pediátrica [Internet]. Facultad de medicina, Universidad Autónoma de Madrid; 2016. Available from: <http://hdl.handle.net/10486/671725>
180. Zion D, Gillam L, Loff B. The Declaration of Helsinki, CIOMS and the ethics of research on vulnerable populations. Vol. 6, Nature Medicine. 2000. p. 615–7.
181. Jiménez S. Código Protección de Datos de Carácter Personal [Internet]. Boletín Oficial del Estado. 2019. Available from: <https://www.boe.es/legislacion/codigos/codigo.php?id=55&modo=1¬a=0>
182. Herring John. Tachdjian's Pediatric Orthopaedics: From the Texas Scottish Rite Hospital for Children, 6ª edición - 6ª edición [Internet]. [cited 2022 May 23]. Available from: <https://www.elsevier.com/books/tachdjians-pediatric-orthopaedics-from-the-texas-scottish-rite-hospital-for-children-6th-edition/herring/978-0-323-56769-5>
183. Chang RF, Mubarak SJ. Pathomechanics of Gowers' Sign: A Video Analysis of a Spectrum of Gowers' Maneuvers. Clin Orthop Relat Res [Internet]. 2012 Jul;470(7):1987–91. Available from: <https://journals.lww.com/00003086-201207000-00023>
184. Smith BW, McCarthy JC, Dawley CA. Suspect myopathy? Take this approach to the work-up. J Fam Pract [Internet]. 2014 Nov;63(11):631–8. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/25362491>
185. Kaňovský P, Bareš M, Severa S, Richardson A, Kraus J, Severa S, et al. Long-term efficacy and tolerability of 4-monthly versus yearly botulinum toxin type A treatment for lower-limb spasticity in children with cerebral palsy. Dev Med Child Neurol. 2009;51(6):436–45.
186. Rodriguez Hernandez HV. Pediatría Integral. 2009; Available from: www.sdqinfo.com.
187. Farré Riba Juan Narbona García A. Escalas Para La Evaluación Del Trastorno Por Déficit De Atención Con Hiperactividad Manual. Madrid 2013. 1998.
188. Sierra JC, Haynes SN, Eysenck MW, Buela-Casal G, Morales-Hidalgo P, Hernández-Martínez C, et al. Directores Asociados / Associate Editors: Psychometric Properties of the Conners-3 and Conners Early Childhood indexes in a Spanish school population. Int J Clin Heal Psychol Int J Clin Heal Psychol Mayo [Internet]. 2016 [cited 2020 Nov 16];16:85–96. Available from: www.elsevier.es/ijchp
189. Cartera de servicios estandarizados en atención primaria. Atención a la salud infantil en los centros de atención primaria de la comunidad de Madrid. Documento de consenso. Dirección general de atención primaria. Ed: 6. Mayo 2020. Pg: 1-224 (23-26). Available from: https://www.comunidad.madrid/sites/default/files/doc/sanidad/prim/2018_cartera_de_servicios_estandarizados_ap.pdf
190. Engstrom P, Tedroff K. The Prevalence and Course of Idiopathic Toe-Walking in 5-Year-Old Children. Pediatrics. 2012 Jul 24;130(2):279–84.
191. Martin-Gonzalo JA. Estudio y Clasificación Funcional de la Marcha de Pacientes Diagnosticados de Deterioro Cognitivo Leve y Enfermedad de Alzheimer Leve. [Internet]. Vol. 1. [Madrid]: Universidad Autónoma de Madrid. Facultad de medicina.; 2020 [cited 2022 May 21]. Available from: <http://hdl.handle.net/10486/692042>
192. National Institutes of Health. Informe Belmont. Principios y guías éticos para la protección los sujetos humanos Investig Com Nac para la protección los sujetos humanos Investig biomédica y del Comport [Internet]. 1979;4–6. Available from: <http://www.salesianos-cadiz.com/Descargas/Escolar/ESO-Bachillerato/Bachillerato/2do Bachillerato/2do A/InformeBelmont.pdf>

193. Convenio de Oviedo y sus Protocolos [Internet]. [cited 2020 Dec 10]. Available from: <https://www.coe.int/en/web/bioethics/oviedo-convention>
194. Boletín Oficial del Estado. Real Decreto 1720/2007, de 21 de diciembre, por el que se aprueba el Reglamento de desarrollo de la Ley Orgánica 15/1999, de 13 de diciembre, de protección de datos de carácter personal. 2008;4103–36.
195. Engström P. Idiopathic toe-walking in children: prevalence, neuropsychiatric symptoms and the effect of botulinum toxin A treatment [Internet]. Karolinska Institutet; 2012 [cited 2019 Oct 6]. Available from: https://openarchive.ki.se/xmlui/bitstream/handle/10616/41078/Thesis_Pahr_Engstrom.pdf?sequence=2
196. Symeonidis P. The Silfverskiöld test. Vol. 35, Foot and Ankle International. SAGE Publications Inc.; 2014. p. 838.
197. Singh D. Nils silfverskiöld (1888-1957) and gastrocnemius contracture. Foot Ankle Surg. 2013;19(2):135–8.
198. Darrah J, Wiart L, Gorter JW, Law M. Stability of Serial Range-of-Motion Measurements of the Lower Extremities in Children With Cerebral Palsy: Can We Do Better? Phys Ther [Internet]. 2014 Jul 1 [cited 2019 Nov 4];94(7):987–95. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/24557653>
199. Powden CJ, Hoch JM, Hoch MC. Reliability and minimal detectable change of the weight-bearing lunge test: A systematic review [Internet]. Vol. 20, Manual Therapy. Churchill Livingstone; 2015 [cited 2019 Nov 10]. p. 524–32. Available from: https://www-clinicalkey-com.bvcscom.a17.csinet.es/service/content/pdf/watermarked/1-s2.0-S1356689X15000065.pdf?locale=es_ES&searchIndex=
200. Hall EA, Docherty CL. Validity of clinical outcome measures to evaluate ankle range of motion during the weight-bearing lunge test. J Sci Med Sport [Internet]. 2017 Jul 1 [cited 2019 Nov 10];20(7):618–21. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/28108266/>
201. Katz K, Rosenthal A, Yosipovitch Z. Normal ranges of popliteal angle in children. J Pediatr Orthop [Internet]. 1992 [cited 2019 Nov 3];12(2):229–31. Available from: <https://journals.lww.com/pedorthopaedics/pages/articleviewer.aspx?year=1992&issue=03000&article=00014&type=abstract>
202. Reade E, Hom L, Hallum A, Lopopolo R. Changes in popliteal angle measurement in infants up to one year of age. Dev Med Child Neurol. 1984;26(6):774–80.
203. Barton GJ, Hawken MB, Scott MA, Schwartz MH. Movement Deviation Profile: A measure of distance from normality using a self-organizing neural network. Hum Mov Sci [Internet]. 2012 Apr [cited 2019 Oct 21];31(2):284–94. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/20728953>
204. Cho CY, Kamen G. Detecting balance deficits in frequent fallers using clinical and quantitative evaluation tools. J Am Geriatr Soc [Internet]. 1998 [cited 2021 Apr 15];46(4):426–30. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/9560063/>
205. Valagussa G, Balatti V, Trenti L, Grossi E. Poster Tip-Toe Behavior (TTB) presentation pattern and Achilles's tendon shortening: are they related in ASD children? [Internet]. IMFAR 2016 Baltimore (USA). [cited 2020 Oct 21]. DOI: 10.13140/RG.2.1.3402.0242 Available from: https://www.researchgate.net/publication/301291925_Tip-Toe_Behavior_TTB_presentation_pattern_and_Achilles's_tendon_shorteningare_they_related_in_ASD_children.

206. Williams CM, Gray K, Davies N, Barkocyc M, Fahey M, Simmonds J, et al. Exploring health professionals' understanding of evidence-based treatment for idiopathic toe walking. *Child Care Health Dev* [Internet]. 2020 May 1 [cited 2021 Apr 15];46(3):310–9. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31957909/>
207. Barrow WJ, Jaworski M, Accardo PJ. Persistent Toe Walking in Autism. *J Child Neurol* [Internet]. 2011 May 31 [cited 2019 Sep 21];26(5):619–21. Available from: <http://journals.sagepub.com/doi/10.1177/0883073810385344>
208. Leyden J, Fung L, Frick S. Autism and toe walking: are they related? Trends and treatment patterns between 2005 and 2016. *J Child Orthop* [Internet]. 2019 [cited 2019 Sep 23];13:340–5. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC6701446/pdf/jco-13-340.pdf>
209. Engström P, Van't Hooft I, Tedroff K. Neuropsychiatric symptoms and problems among children with idiopathic toe-walking. *J Pediatr Orthop* [Internet]. 2012 Dec [cited 2021 Apr 15];32(8):848–52. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/23147630/>
210. McMulkin ML, Gordon AB, Tompkins BJ, Caskey PM, Baird GO. Long term gait outcomes of surgically treated idiopathic toe walkers. 2016 Feb 1 [cited 2019 Oct 15];44:216–20. Available from: <https://www.sciencedirect.com/science/article/abs/pii/S0966636215009819>
211. Rider LG, Aggarwal R, Pistorio A, Bayat N, Erman B, Feldman BM, et al. 2016 ACR/EULAR Criteria for Minimal, Moderate, and Major Clinical Response in Adult Dermatomyositis and Polymyositis and Juvenile Dermatomyositis. *Arthritis Rheumatol (Hoboken, NJ)* [Internet]. 2017 [cited 2019 Nov 4];69(5):911–23. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/28382778>
212. Samper MB. Ley orgánica 3/2018, de 5 de diciembre, de protección de datos personales y garantía de los derechos digitales. In: protección de datos personales [internet]. 2020 [cited 2021 Apr 13]. p. 145–252. Available from: <https://www.boe.es/buscar/pdf/2018/BOE-A-2018-16673-consolidado.pdf>
213. Andrews E.B., Arellano F.M. et al, International society of pharmacoepidemiology. Guidelines for Good Pharmacoepidemiology Practices (GPP) - International Society for Pharmacoepidemiology [Internet]. ISPE GUIDELINES. 2015 [cited 2022 May 13]. Available from: <https://www.pharmacoepi.org/resources/policies/guidelines-08027/>
214. Agency for Healthcare Research and Quality (AHRQ). Registries for Evaluating Patient Outcomes: A User's Guide. Third edition. Two volumes. AHRQ Publ [Internet]. 2014 Apr [cited 2022 May 13];1:669. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/24945055/>
215. Vigotsky AD, Lehman GJ, Beardsley C, Contreras B, Chung B, Feser EH. The modified Thomas test is not a valid measure of hip extension unless pelvic tilt is controlled. *PeerJ* [Internet]. 2016 [cited 2021 Apr 7];2016(8). Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/27602291/>
216. Simmons RW, Taggart TC, Thomas JD, Mattson SN, Riley EP. Gait control in children with attention-deficit/hyperactivity disorder. *Hum Mov Sci* [Internet]. 2020 Apr 1 [cited 2021 Apr 15];70. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/32217203/>
217. Morales-Hidalgo P, Hernández-Martínez C, Vera M, Voltas N, Canals J. Psychometric properties of the Conners-3 and Conners Early Childhood Indexes in a Spanish school population. *Int J Clin Heal Psychol* [Internet]. 2017 Jan 1 [cited 2020 Nov 16];17(1):85–96. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/30487884/>
218. Servera M, Llabrés J. CSAT-R. Tarea de Atención Sostenida en la Infancia - Revisada [Internet]. Madrid: TEA ediciones; 2015 [cited 2021 Apr 18]. Available from: <http://web.teaediciones.com/CSAT-TAREA-DE-ATENCION-SOSTENIDA-EN-LA-INFANCIA.aspx>

218. von Baeyer CL. Children's self-reports of pain intensity: Scale selection, limitations and interpretation. *Pain Res Manag* [Internet]. 2006 [cited 2021 Apr 11];11(3):157–62. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/16960632/>
219. Quiles M, Hofstadt C van-der, Quiles Y, van-der Hofstadt C, Quiles Y. Instrumentos de evaluación del dolor en pacientes pediátricos: una revisión (2ª parte). *Rev Soc Esp Dolor* [Internet]. 2003 [cited 2020 Feb 18];11(2):94–105. Available from: http://scielo.isciii.es/scielo.php?pid=S1134-80462004000600005&script=sci_arttext&lng=en
220. Quiles Sebastian MJ, Van-Der Hofstadt CJ, Quiles Y. Instrumentos de evaluación del dolor en pacientes pediátricos: Una revision (2a parte). *Rev la Soc Esp del Dolor*. 2004 Aug;11(6):360–9.
221. Thapar A, Cooper M, Jefferies R, Stergiakouli E. What causes attention deficit hyperactivity disorder? *Arch Dis Child* [Internet]. 2012 Mar 1 [cited 2021 Apr 12];97(3):260 LP – 265. Available from: <http://adc.bmj.com/content/97/3/260.abstract>
222. Solan MC, Carne A, Davies MS. Gastrocnemius shortening and heel pain. *Foot Ankle Clin*. 2014 Dec;19(4):719–38.
223. López-López J, Pulido-Valdeolivas I, Martín-Gonzalo JA, de Gorostegui A, Pérez-Villena A, Abenza-Albidua M], et al. [Pain and Achilles tendon shortening in patients with idiopathic toe walking]. *Rev Neurol* [Internet]. 2021 Nov 1 [cited 2022 Feb 10];73(9):307–14. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/34676528>
224. Honig EL, Haeberle HS, Kehoe CM, Dodwell ER. Pediatric orthopedic mythbusters: the truth about flexible flatfeet, tibial and femoral torsion, W-sitting, and idiopathic toe-walking. *Curr Opin Pediatr* [Internet]. 2021 Feb 1 [cited 2021 Apr 16];33(1):105–13. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/33315688/>
225. Kuijk A, Kosters R, Vugts M, Geurts A. Treatment for idiopathic toe walking: A systematic review of the literature. *J Rehabil Med* [Internet]. 2014 [cited 2019 Oct 10];46(10):945–57. Available from: <http://www.medicaljournals.se/jrm/content/?doi=10.2340/16501977-1881>
226. Sätilä H, Beilmann A, Olsén P, Helander H, Eskelinen M, Huhtala H. Does Botulinum Toxin A Treatment Enhance the Walking Pattern in Idiopathic Toe-Walking? *Neuropediatrics* [Internet]. 2016 Jun 18 [cited 2019 Oct 7];47(3):162–8. Available from: <http://www.thieme-connect.de/DOI/DOI?10.1055/s-0036-1582138>
227. Faigenbaum AD, Milliken LA, Westcott WL. Maximal strength testing in healthy children. *J Strength Cond Res* [Internet]. 2003 Feb [cited 2021 Apr 18];17(1):162–6. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/12580672/>
228. Xu K shou, Yan T bin, Mai J ning. Effects of botulinum toxin guided by electric stimulation on spasticity in ankle plantar flexor of children with cerebral palsy: a randomized trial. *Zhonghua Er Ke Za Zhi* [Internet]. 2006 [cited 2021 Apr 18];44(12):913–7. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/17254459/>
229. Avendaño-Coy J, Gómez-Soriano J, Valencia M, Estrada J, Leal F, Ruiz-Campa R. Botulinum toxin type A and myofascial pain syndrome: a retrospective study of 301 patients. *J Back Musculoskelet Rehabil* [Internet]. 2014;27(4):485–92. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/24867895>
230. Radovic P. Treatment of “plantar fasciitis”/Plantar Heel Pain Syndrome with botulinum toxin - A novel injection paradigm pilot study. *Foot (Edinb)* [Internet]. 2020 Dec;45:101711. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/33038660>

231. Harkness-Armstrong C, Maganaris C, Walton R, Wright DM, Bass A, Baltzopoulos V, et al. Muscle architecture and passive lengthening properties of the gastrocnemius medialis and Achilles tendon in children who idiopathically toe-walk. *J Anat* [Internet]. 2021;239(4):839–46. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/34109625>
232. Thieme E-Journals - Revista para ortopedia y sus áreas fronterizas / Resumen [Internet]. [cited 2021 Apr 18]. Available from: <https://www.thieme-connect.de/products/ejournals/abstract/10.1055/s-2008-1044567>
233. Freeman MA, Dean MR, Hanham IW. The etiology and prevention of functional instability of the foot. *J Bone Joint Surg Br* [Internet]. 1965 Nov 1 [cited 2021 Apr 18];47(4):678–85. Available from: <https://online.boneandjoint.org.uk/doi/abs/10.1302/0301-620X.47B4.678>
234. Vellas BJ, Wayne SJ, Romero L, Baumgartner RN, Rubenstein LZ, Garry PJ. One-leg balance is an important predictor of injurious falls in older persons. *J Am Geriatr Soc* [Internet]. 1997 [cited 2021 Apr 18];45(6):735–8. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/9180669/>
235. Springer BA, Marin R, Cyhan T, Roberts H, Gill NW. Normative values for the unipedal stance test with eyes open and closed. *J Geriatr Phys Ther*. 2007;30(1):8–15.
236. Hutchinson AB, Yao P, Hutchinson MR. Single-leg balance and core motor control in children: when does the risk for ACL injury occur? *BMJ Open Sport Exerc Med* [Internet]. 2016 Jun 1 [cited 2021 Apr 18];2(1):e000135. Available from: <http://dx.doi.org/10.1136/bmjsem-2016-000135>
237. Ford KR, Van Den Bogert J, Myer GD, Shapiro R, Hewett TE. The effects of age and skill level on knee musculature co-contraction during functional activities: A systematic review [Internet]. Vol. 42, *British Journal of Sports Medicine*. British Association of Sport and Exercise Medicine; 2008 [cited 2021 Apr 18]. p. 561–6. Available from: <http://bjsm.bmj.com/>
238. Kowalski IM, Van Dam F, Zarzycki D, Rymarczyk A, Sebastianowicz P. Short-duration electrostimulation in the treatment of idiopathic scoliosis. *Ortop Traumatol Rehabil* [Internet]. 2004 [cited 2021 Apr 18];6(1):82–9. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/17676012/>
239. Lorentzen J, Willerslev-Olsen M, Hüche Larsen H, Svane C, Forman C, Frisk R, et al. Feedforward neural control of toe walking in humans. *J Physiol*. 2018 Jun 1;596(11):2159–72.
240. Trojan TH, McKeag DB. Single leg balance test to identify risk of ankle sprains. *Br J Sports Med* [Internet]. 2006 Jul [cited 2021 Apr 18];40(7):610–3. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/16687483/>
241. Zumbunn T, MacWilliams BA, Johnson BA. Evaluation of a single leg stance balance test in children. *Gait Posture* [Internet]. 2011 Jun [cited 2021 Apr 18];34(2):174–7. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/21550805/>
242. Mine K, Lei D, Nakayama T. Is pre-performance massage effective to improve maximal muscle strength and functional performance? A systematic review. *Int J Sports Phys Ther* [Internet]. 2018 Aug 1 [cited 2021 Apr 18];13(5):789–99. Available from: <https://europepmc.org/articles/PMC6159489>
243. Auld ML, Johnston LM. Strong and steady: A community-based strength and balance exercise group for children with cerebral palsy. *Disabil Rehabil* [Internet]. 2014 Dec 1 [cited 2021 Apr 20];36(24):2065–71. Available from: <https://www.tandfonline.com/doi/abs/10.3109/09638288.2014.891054>

244. Messing S, Rütten A, Abu-Omar K, Ungerer-Röhrich U, Goodwin L, Burlacu I, et al. How can physical activity be promoted among children and adolescents? A systematic review of reviews across settings [Internet]. Vol. 7, *Frontiers in Public Health*. Frontiers Media S.A.; 2019 [cited 2021 Apr 20]. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/30941342/>
245. Le Cras S, Bouck J, Brausch S, Taylor-Haas A. Management of idiopathic toe walking in children and young adults ages 2 through 21 years. *Cincinnati Child Hosp Med Cent*. 2011;1–17.
246. Myers AM, Beam NW, Fakhoury JD. Resistance training for children and adolescents [Internet]. Vol. 6, *Translational Pediatrics*. AME Publishing Company; 2017 [cited 2021 Apr 18]. p. 137–43. Available from: [/pmc/articles/PMC5532191/](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/30941342/)
247. Westberry DE, Carpenter AM, Brandt A, Barre A, Hilton SB, Saraswat P, et al. Surgical Outcomes for Severe Idiopathic Toe Walkers. *J Pediatr Orthop*. 2021;41(2).
248. Khodadadi M, Minoonejad H, Moghadas Tabrizi Y. Comparison of the Effect of Corrective Exercises With and Without Suit Therapy on Gait Kinematic and Balance in Autism Children With Toe Walking. *Sci J Rehabil Med*. 2021 Jul 1;10(3):532–45.
249. Hirsch G, Wagner B, G H, BW, Hirsch G, Wagner B. The natural history of idiopathic toe-walking: a long-term follow-up of fourteen conservatively treated children. *Acta Paediatr Int J Paediatr* [Internet]. 2004 Feb 1 [cited 2019 Oct 5];93(2):196–9. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/15046273/>
250. De Oliveira V, Arrebola L, De Oliveira P, Yi L. Investigation of Muscle Strength, Motor Coordination and Balance in Children with Idiopathic Toe Walking: A Case-control Study. <https://doi.org/10.1080/17518423.2021.1899326> [Internet]. 2021 [cited 2022 Feb 1];24(8):540–6. Available from: <https://www.tandfonline.com/doi/abs/10.1080/17518423.2021.1899326>
251. Kim S, Soangra R, Grant-Beuttler M, Aminian A. Wearable sensor-based gait classification in idiopathic toe walking adolescents. *Biomed Sci Instrum* [Internet]. 2019 Apr;55(2):178–85. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/32214530>
252. Brown VA. An Introduction to Linear Mixed-Effects Modeling in R. *Adv Methods Pract Psychol Sci*. 2021;4(1).
253. Müller S, Scealy JL, Welsh AH. Model Selection in Linear Mixed Models. <https://doi.org/10.1214/12-STS410> [Internet]. 2013 May 1 [cited 2022 Jun 14];28(2):135–67. Available from: <https://projecteuclid.org/journals/statistical-science/volume-28/issue-2/Model-Selection-in-Linear-Mixed-Models/10.1214/12-STS410.full>
254. Hadfield JD. MCMC Methods for Multi-Response Generalized Linear Mixed Models: The MCMCglmm R Package. *J Stat Softw* [Internet]. 2010 Feb 2 [cited 2022 Jun 14];33(2):1–22. Available from: <https://www.jstatsoft.org/index.php/jss/article/view/v033i02>
255. Gabriela Jorquera Rojas. Familias en Riesgo en España. Análisis de la situación de pobreza en los hogares con hijos e hijas en España. con familias en riesgo de pobreza en España. [Internet]. Madrid; 2020 Jan [cited 2022 Jun 26]. Available from: https://www.savethechildren.es/sites/default/files/imce/familias_en_riesgo_feb2020.pdf
256. Gil, P. Grané, A. Romera, R. Cruz roja española departamento de estudios e innovación social. Informe de Vulnerabilidad social. Bol 13. Sept 2016. Madrid La situación de la infancia. Lo que dicen los niños. Available in: <http://www.cruzroja.es/principal/documents/449219/1697460/RESUMEN+EJECUTIVO+vs+final.pdf/6c48e9c0-5e82-40e0-9f26-6040a270c73b>



UNIVERSIDAD AUTÓNOMA DE MADRID
FACULTAD DE MEDICINA
DEPARTAMENTO DE ANATOMÍA, HISTOLOGÍA Y NEUROCIENCIA