

Caso clínico

Doble coalición astragalocalcánea y calcaneoescaloidea bilateral en un paciente de 15 años: tratamiento y resultados

Pino L,* Mascarell A,** Minués MF,*** Sentamans S****

Hospital Clínico Universitario de Valencia, España

RESUMEN. *Antecedentes:* Se presenta el caso de un paciente varón de 15 años, sin antecedentes patológicos previos, con una doble coalición astrágalo-calcánea y calcáneo-escaloidea, presente en ambos pies, que es intervenido quirúrgicamente del pie izquierdo por inicio de sintomatología refractaria al tratamiento conservador. *Resultados:* Se realizó una resección de ambas coaliciones y se interpuso el músculo pedio a nivel de la articulación calcáneo-escaloidea y una endortesis en el seno del tarso. Tras la cirugía, el paciente se encuentra completamente asintomático. *Conclusiones:* Las coaliciones tarsianas múltiples y de localización bilateral, es decir, en ambos pies son muy poco frecuentes, excepto cuando se asocian con cuadros sindrómicos o patologías tales como la hemimelia peronea, con síndrome de Apert, síndrome de Nievegert-Pearlman, con sinóstitosis múltiple o el sinfalangismo hereditario. El tratamiento debe ser individualizado en función de la localización de la sinóstitosis.

Palabras clave: tobillo, herida, calcáneo, astrágalo, escaloideos, sinóstitosis.

ABSTRACT. *Background:* We report the case of a male, 15 year-old patient without any remarkable pathologic history, with double talocalcaneal and calcaneonavicular coalition in both feet. He underwent surgery of the left foot due to onset of refractory symptoms after conservative treatment. *Results:* Both coalitions were resected and pedal muscle was interposed at the level of the calcaneonavicular joint as well as an endorthesis in the tarsal sinus. The patient became totally asymptomatic after surgery. *Conclusions:* Multiple bilateral tarsal coalitions, i.e., present in both feet, are very infrequent, except when they are associated with syndromic pictures or conditions such as fibular hemimelus, Apert syndrome, Nievegert-Pearlman syndrome, multiple synostosis or hereditary symphalangism. Treatment should be individualized based on the location of the synostosis.

Key words: ankle, wound and injuries, calcaneous, astragalus, scaphoid bone, synostosis.

* Servicio de Cirugía Ortopédica y Traumatología. Hospital Clínico Universitario de Valencia, España.

** Servicio de Cirugía Ortopédica y Traumatología Hospital La Nueva Fe, España.

*** Servicio de Cirugía Ortopédica y Traumatología. Hospital Clínico Universitario de Valencia. Departamento de Cirugía. Facultad de Medicina. Universidad de Valencia, España.

**** Universidad Católica de Valencia, España.

Dirección para correspondencia:

Dra. L. Pino Almero

Servicio COT Hospital Clínico Universitario de Valencia

Av. Blasco Ibáñez núm. 17, 46010, Valencia, España

Tel. 963862600, E-mail: laupialm@yahoo.es

Este artículo puede ser consultado en versión completa en <http://www.medigraphic.com/actaortopedica>

Introducción

Las coaliciones tarsianas, fusiones anormales entre dos o más huesos del pie, pueden estar presentes desde el nacimiento. Sin embargo, generalmente se manifiestan de forma tardía, hacia los 12 o 16 años, debido al proceso de osificación de la coalición, que limita la movilidad de la articulación afectada. La mayoría de las coaliciones son congénitas, como consecuencia de una herencia autosómica dominante, pero también pueden ser adquiridas, secundarias a una enfermedad degenerativa articular, una artritis inflamatoria, una infección y a deformidades propias del pie zambo. Se ha descrito una incidencia aproximada de 2-6%,¹ aunque la incidencia real es desconocida ya que usualmente sólo las coaliciones sintomáticas son identificadas.

Los síntomas más frecuentes son dolor, localizado por lo común en el seno del tarso, que se exagera con actividades deportivas vigorosas y limitación de la movilidad del retropié y mediopié, que provoca un espasmo del músculo peroneo, por lo que también recibe el nombre de «pie plano peroneo espástico». También se suele manifestar por una clínica de esguinces de repetición.

La localización más frecuente es en la articulación talocalcánea y la talonavicular, pero pueden existir distintas combinaciones de fusiones entre los huesos tarsianos. En muchas ocasiones, existen coaliciones asintomáticas en el pie contralateral, de manera que del 50 al 60% de las coaliciones son bilaterales. El otro pie puede permanecer asintomático o puede volverse doloroso y rígido más tarde. Existen muy pocos casos descritos en la literatura de coexistencia de varias coaliciones en el mismo pie, excepto en cuadros sindrómicos como la hemimelia peronea, el síndrome de Apert, el síndrome de Nievegert-Pearlman, la sinostosis múltiple o el sinfalangismo hereditario.

La intervención inicial debe consistir en un tratamiento conservador en la forma de apoyo o inmovilización del pie afectado, cambio en las actividades del paciente y medicamentos antiinflamatorios no esteroideos. El tratamiento quirúrgico, consistente en la resección de la coalición debe reservarse para aquellos pacientes en los que el tratamiento conservador ha fracasado.² La resección de dichas barras permite obtener resultados clínicos y radiográficos variables. Finalmente, la artrodesis subastragalina o la triple artrodesis deben reservarse para aquellos pacientes en los que los otros tratamientos han fracasado.

En este estudio se presenta el caso de un adolescente afectado de una coalición doble y bilateral a nivel de las articulaciones astragalocalcánea y calcaneoescafoidea, sin antecedente de ningún cuadro sindrómico ni anomalía congénita, y los resultados obtenidos mediante su tratamiento quirúrgico.

Caso clínico

Se presenta el caso de un paciente varón que actualmente tiene 15 años de edad, tratado desde los 4 años de edad por pies planos valgus bilaterales mediante plantillas California (plantillas UCBL).

A los 14 años comienza con una clínica de dolor en el pie izquierdo, exacerbado mediante actividades deportivas como correr.

A la exploración física se aprecia que el pie izquierdo es doloroso y que presenta un bloqueo de la movilidad subastragalina; las pruebas de Jack y Fonseca son negativas, es decir, retropié valgo no flexible (clínica de «pie plano peroneo espástico»), mientras que el pie derecho presenta una huella de pie plano pero flexible.

Se realizan entonces pruebas de imagen. En la radiografía simple (Figuras 1a, b, c) se aprecia una coalición tarsiana calcaneoescafoidea en ambos pies y en la tomografía computarizada (Figura 2), además, una fusión calcaneoastragalina en el pie izquierdo.

Se decide entonces realizar una resección quirúrgica de las barras tarsianas en el pie izquierdo, clínicamente sintomático. Los pasos de la cirugía fueron los que se detallan a continuación. En primer lugar, se realiza un alargamiento intermuscular de los peroneos por una pequeña incisión de unos 3-4 cm por encima del maléolo externo. Posteriormente, se realiza una segunda incisión sobre el seno del tarso prolongada hacia el escafoides. Se desinserta el vientre muscular del pedio, que se deja referenciado mediante 2 puntos de sutura de Ethibond y se reseca la fusión ósea calcaneoescafoidea. Después se aborda por el lado interno mediante incisión por debajo del maléolo interno de 1 cm. Se localizan los tendones del tibial posterior, flexor común y del *hallux*, que se rechazan. Se accede al *sustentaculum tali* y se realiza una resección de hueso hasta llegar a la subastragalina posterior y, posteriormente, hacia anterior, para localizar el resto de la articulación subastragalina. Una vez separadas las carillas articulares fusionadas, se interpone el músculo pedio desde el lado externo en la calcaneoescafoidea, anudándolo en el borde interno, y se interpone en el seno de tarso una endortosis de pie plano tipo Káliz para evitar el contacto entre las articulaciones calcaneoastragalinas liberadas. Finalmente, se inmoviliza con un botín de yeso.



Figura 1a, 1b, 1c.

Radiografías simples donde se aprecia una coalición tarsiana calcaneoescafoidea bilateral.

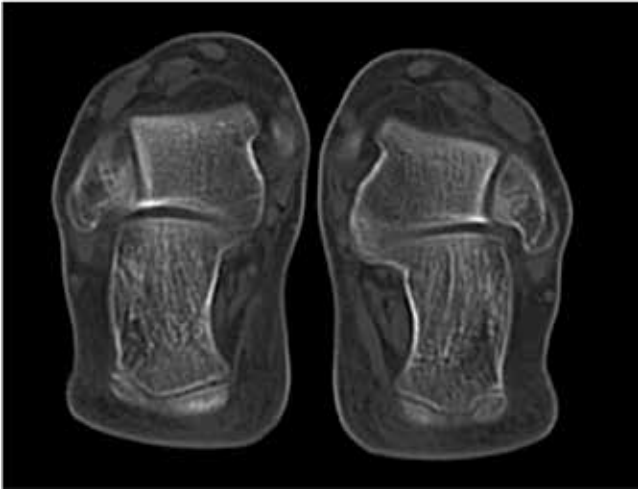


Figura 2. Tomografía axial donde se observa la fusión calcaneoastragalina del pie izquierdo.



Figura 4. Radiografías de control posoperatorio al año de evolución.

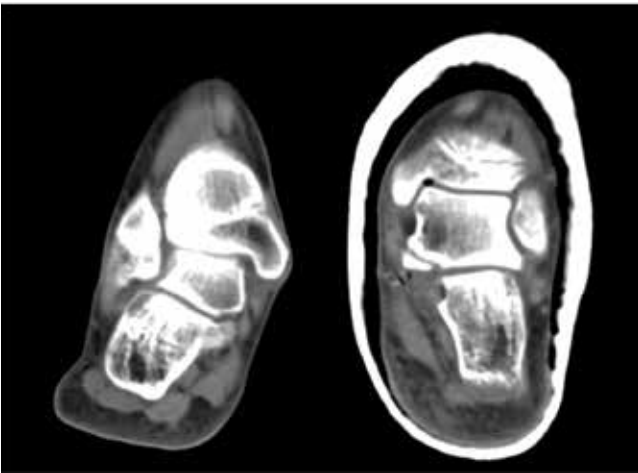


Figura 3. Tomografía axial de control donde se aprecia la liberación de las articulaciones.

Se realiza una tomografía computarizada postoperatoria de control (*Figura 3*) en la que se aprecian perfectamente liberadas las articulaciones. A los 16 días de la cirugía, comienza a movilizar en descarga. Al mes inicia la marcha asistida con bastones. Al año de la cirugía, el paciente se encuentra asintomático (*Figura 4*); se realiza una segunda intervención en el pie izquierdo para retirar la prótesis y en el pie derecho se alargan los peroneos y se reseca la fusión calcaneoescafoidea asociada a interposición del pedio (*Figura 5*). Se realiza movilización precoz a las 3 semanas y comienza a cargar en unas semanas. En la última revisión, el paciente se encuentra asintomático, con una movilidad subastragalina normal y realizando ejercicio sin dolor (*Figura 6*).

Discusión

Según la literatura, las coaliciones tarsianas pueden ser bilaterales en un 60% de los pacientes con barras calcaneoesca-

foideas y en un 50% de las coaliciones astragalocalcáneas.³ Sin embargo, la incidencia verdadera de pacientes con fusiones asociadas en el mismo pie no es bien conocida. La presencia de coaliciones múltiples asociadas es muy poco frecuente en pacientes que no presentan un cuadro sindrómico asociado. Kendrick describió los primeros dos casos en 1960.⁴ Wheeler⁵ presenta, en su artículo de 1982, el caso de un chico de 15 años con barras óseas calcaneonaviculares y talocalcáneas bilaterales dobles que requirió una triple artrodesis, con lo que se consiguió una buena resolución de los síntomas. Wheeler⁵ indica que una inversión restringida del pie con espasmo de los peroneos, abducción del antepié o pronación del mismo debe alertar al examinador de que puede existir una coalición tarsiana. En estos casos, se deben realizar radiografías apropiadas, incluyendo oblicuas de 45° del pie.

Por otro lado, Wiles⁶ sugiere la evaluación preoperatoria cuidadosa, dado que la presencia de una barra asociada no detectada puede suponer un fracaso de la cirugía. Así, describe el caso de un fracaso de resección de una barra calcaneonavicular doble por una coalición talocalcánea concurrente no detectada. Clarke⁷ detecta en una serie de 30 pacientes, seis casos con múltiples coaliciones asociadas en el mismo pie. Cinco de ellos presentaban una asociación de coaliciones subtalar y calcaneonavicular sin otra anomalía congénita, síndrome o historia médica significativa de un proceso adquirido. Cuatro casos fueron tratados quirúrgicamente y uno de forma conservadora, con resultados variables. Sugiere que las coaliciones múltiples en el mismo pie son más comunes de lo que se piensa, por lo que recomienda realizar siempre una evaluación computarizada de los dos pies en el plano axial y coronal en estos pacientes.

Bhalaik⁸ presenta un caso de un chico de 17 años con barras coexistentes bilaterales calcaneonavicular y talonavicular. El paciente fue tratado de forma conservadora con escayola de carga por debajo de la rodilla seguida de una ortesis y estuvo libre de dolor durante 2 años de seguimiento.

Goldcher³ describió el caso de una mujer de 52 años con una sinostosis triple, talocalcánea, talonavicular y calcaneonavicular, bilateral de diagnóstico tardío. La paciente fue tratada de forma conservadora con buenos resultados a los 18 meses de seguimiento.

Masquijo,⁹ tras revisar 133 pacientes con coaliciones tarsianas, solamente encontró tres casos de niños con coaliciones tarsianas dobles en el mismo pie. El primero de ellos se trataba de un paciente varón de 12 años con coaliciones calcaneoescafoidea y talocalcánea en el pie izquierdo, dolorosas, que se trató mediante una resección de ambas coaliciones; a los 18 meses de la cirugía el paciente se encontraba asintomático. El segundo, un niño de 13 años con un pie plano progresivo y doloroso, con coaliciones fibrosas calcaneoescafoidea y talocalcánea ósea, en el que se realizó cirugía de resección de ambas coaliciones. A los ocho años de seguimiento, tenía dolor recurrente y se consideró una triple artrodesis. El tercer caso se trataba de un niño de 12 años con diagnóstico de pie plano rígido bilateral que presentaba una coalición calcaneoescafoidea en ambos pies y una barra astragalocalcánea adicional en el derecho. Se le realizó una resección de ambas coaliciones en el pie derecho y observación en el izquierdo; a los siete años de la cirugía, el paciente se encontraba asintomático del pie izquierdo y tenía ocasionalmente dolor en el derecho. En todos los casos utilizó un abordaje lateral del pie con resección de la coalición calcaneoescafoidea e interposición del extensor corto digital y una incisión medial para resección del puente óseo subtalar, con interposición de cera de hueso en los márgenes óseos. Tras la cirugía, se utilizó un yeso por debajo de la rodilla sin carga durante tres semanas.

En cuanto al tratamiento quirúrgico, Mubarak¹⁰ prefiere la utilización de tejido graso como tejido de interposición. Tras una incisión oblicua modificada de Ollier sobre el sitio de la coalición, distal al seno del tarso, realiza una osteotomía recta de Lambotte para separar la coalición, a cada lado de la línea cartilaginosa, permitiendo retirar un puente intacto de hueso.

Coloca tejido graso autólogo en el *gap* obtenido y el *extensor digitorum brevis* (EDB) es suturado en su lecho para restaurar el contorno normal del pie dorsal. Se inmoviliza con una escayola durante 2 a 3 semanas y a las 6 semanas pueden volver a sus actividades completas. El éxito de la cirugía está claramente relacionado con la capacidad de escindir por completo la coalición para evitar la recidiva, que se estima de un 13%, al mismo tiempo que se limita el daño a las articulaciones y estructuras adyacentes. Según Mubarak, la interposición del EDB resulta en una apariencia desagradable de la herida y del borde lateral del pie por la presencia de un defecto proximal y una prominencia ósea subcutánea en el sitio de la interposición y concluye que el EDB no es lo suficientemente largo para interponerlo en la profundidad de la escisión para rellenar el espacio, por lo que prefiere el tejido graso.

Por otro lado, Kernbach¹¹ considera que, aunque la resección de la coalición elimina la restricción del movimiento óseo y el dolor, este procedimiento no corrige el pie plano valgo concomitante. Este autor aboga por la combinación de la resección de la coalición con la reconstrucción concomitante del pie plano en una operación de una sola etapa. Presenta una serie de 6 pies en tres pacientes de una edad promedio de 13.6 años, que presentaban coaliciones bilaterales talocalcáneas. Todos ellos fueron sometidos a una resección bilateral junto con la reconstrucción del pie plano. Los pies presentaron una mejoría tanto clínica, en cuanto a un mejor movimiento subastragalino sin dolor, como radiográfica.

En cuanto al diagnóstico, una historia sugestiva y unas radiografías simples en las que se aprecie el denominado «signo del oso hormiguero»,¹² suponen el diagnóstico de la mayoría de las coaliciones del tarso. En los últimos años se recomienda realizar siempre una tomografía computarizada, puesto que proporciona detalles anatómicos precisos y evita que pasen desapercibidas otras coaliciones asociadas, de manera que permite la evaluación del número de coaliciones, su localización y la presencia de cambios degenerativos. Se requieren tanto vistas axiales como coronales del to-

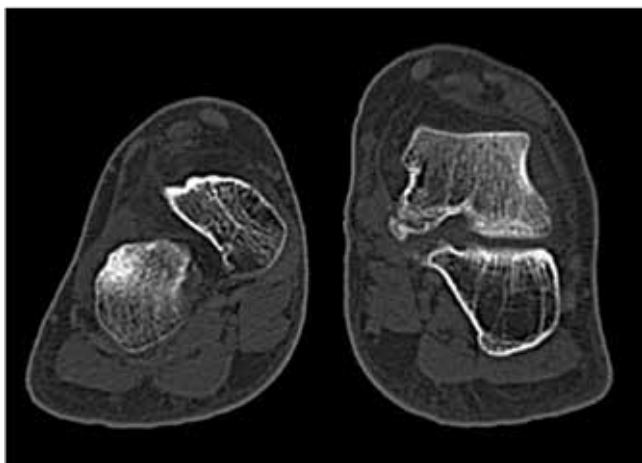


Figura 5. Resultados tomográficos de la segunda intervención después de un año.



Figura 6. Resultados clínicos al final del seguimiento.

billo y el pie, con cortes finos menores o iguales a 3 mm. En aquellos casos en los que se sospeche una coalición fibrosa o cartilaginosa, la resonancia magnética puede ser útil.

Por último, resulta interesante la serie presentada por Rouvreau¹³ de 47 niños (68 pies en total) de 11.5 años de edad media con una o más coaliciones tarsianas idiopáticas. De éstos, en 28 casos se realizó un tratamiento conservador. El tratamiento quirúrgico se realizó en 40 pies y consistió en la resección de las coaliciones calcaneonavicular (24 pies), en la resección de las coaliciones talocalcáneas (tres pies), artrodesis subastragalina y mediotarsal (ocho pies), resección de la coalición calcaneonavicular combinada con el «Cavalier» (tres pies) y osteotomía del calcáneo (dos pies). La ubicación fue calcaneonavicular en 57 casos, talocalcánea en 16, talonavicular en ocho, calcaneocuboidea en siete y naviculocuneiforme en cuatro. En el grupo conservador, dos pacientes empeoraron clínicamente. En el grupo quirúrgico, todos excepto dos pacientes tuvieron buenos resultados clínicos y funcionales.

Tras revisar la literatura podemos concluir que las coaliciones tarsianas múltiples asociadas son poco frecuentes y todavía son más raras las múltiples y de localización bilateral, como en el caso del niño que se describe en el presente artículo.

Se debe sospechar la existencia de una coalición tarsiana ante un niño, generalmente en edad adolescente, que presenta un pie plano doloroso que se exacerba con actividades deportivas vigorosas y con limitación de la movilidad del retropié y mediopié.

En cuanto al tratamiento, un pie plano espástico peroneo que cause dolor y que se haya instaurado recientemente tras una actividad física extenuante se maneja mejor mediante inmovilización con una bota de yeso durante 3 o 4 semanas. En aquellos casos en los que la clínica no mejore, se debe considerar el tratamiento quirúrgico, puesto que la resección da buenos resultados en los casos de coaliciones calcaneonavicular y talocalcánea seleccionados. En el adolescente mayor y en el adulto con dolor en las articulaciones talonavicular y subtalar y deformidad en valgo fijo se debe considerar la triple artrodesis. El tratamiento de la sinostosis

talonavicular debe ser individualizado. Se recomienda la resección y la interposición de grasa en la sinostosis de la faceta medial sintomática. Como las sinostosis talocalcáneas completas no pueden ser escindidas de forma exitosa, es preferible tratarlas con corrección de la deformidad y fusión de la articulación subtalar si no hay cambios degenerativos en la articulación talonavicular. En este caso, sería mejor efectuar una triple artrodesis. Por eso, también es muy útil realizar una resonancia magnética, para seleccionar aquellos pacientes candidatos a una resección o a una artrodesis.

Bibliografía

1. Harris R, Beath T: Etiology of peroneal spastic flatfoot. *J Bone Joint Surg Br.* 1948; 30: 624.
2. Bohne WH: Tarsal coalition. *Curr Opin Pediatr.* 2001; 13: 29-35.
3. Goldcher A: Triple bilateral tarsal synostosis involving the navicular bone. A case report. *Med Chir Pied.* 2008; 24: 73-7.
4. Kendrick JJ: Treatment of calcaneonavicular bar. *JAMA.* 1960; 172: 1242-4.
5. Wheeler R, Guevera A, Bleck EE: Tarsal coalitions: review of the literature and case report of bilateral dual calcaneonavicular and talocalcaneal coalitions. *Clin Orthop Relat Res.* 1981; 156: 175-7.
6. Wiles S, Palladino SJ, Stavosky JW: Concurrent calcaneonavicular and talocalcaneal coalitions. *J Foot Surg.* 1989; 28: 449-53.
7. Clarke DM: Multiple tarsal coalitions in the same foot. *J Pediatr Orthop.* 1997; 17: 777-80.
8. Bhalai V, Chhabra S, Walsh HP: Bilateral coexistent calcaneonavicular and talocalcaneal tarsal coalition: a case report. *J Foot Ankle Surg.* 2002; 42: 129-34.
9. Masquijo JJ, Jarvis J: Associated talocalcaneal and calcaneonavicular coalitions in the same foot. *J Pediatric Orthop B.* 2010; 6: 507-10.
10. Mubarak SJ, Patel PN, Upasani VV, Moor MA, Wenger DR: Calcaneonavicular coalition: treatment by excision and fat graft. *J Pediatr Orthop.* 2009; 29: 418-26.
11. Kernbach KJ, Blitz NM, Rush SM: Bilateral single-stage middle facet talocalcaneal coalition resection combined with flatfoot reconstruction: a report of 3 cases and review of the literature. Investigations involving middle facet coalitions--part 1. *J Foot Ankle Surg.* 2008; 47: 180-90.
12. Bohne WH: Tarsal coalition. *Curr Opin Pediatr.* 2001; 13: 29-35.
13. Rouvreau P, Pouliquen JC, Langlais J, Glorion C, de Cerqueira Daltro G: Synostosis and tarsal coalitions in children. A study of 68 cases in 47 patients. *Rev Chir Orthop Reparatrice Appar Mot.* 1994; 80: 252-60.