

Sinóstosis congénita del tarso

J. Minguella, L. Terricabras y M. Cabrera

Servicio de Cirugía Ortopédica Infantil. Hospital Universitari Sant Joan de Déu. Barcelona.
Unidad Malformaciones de las Extremidades. Centro Médico Teknon. Barcelona.

Objetivos. Revisión de 86 casos de sinóstosis del tarso (35 con sinóstosis astrágalo-calcánea y 52 calcáneo-escafoidea), con el objetivo de constatar algunas características de esta malformación.

Material y método. Se estudiaron un total de 121 pies (35 casos eran bilaterales: 40,6%). La edad media al diagnóstico fue de 12 años y 2 meses en los varones y 10 años y 8 meses en las niñas.

Resultados. El resultado del tratamiento quirúrgico fue malo en 5 pies (de 78 pies observados a largo plazo), con una edad media de 9 años y 8 meses. Distinguiendo el resultado de un grupo diagnosticado antes de los 10 años de edad y otro a más de 10 años, los resultados malos constituyen el 25% de los primeros y el 1,6% de los de más de 10 años.

Conclusiones. Se sugieren las siguientes conclusiones: a) el diagnóstico se hace a una edad más precoz en las niñas; b) la presencia de un pie plano contracto y signos radiográficos como signo-C o prominencia dorsal en la cabeza del astrágalo permiten sospechar una sinóstosis, pero no hacer el diagnóstico, y c) los malos resultados del tratamiento quirúrgico se dan con mayor frecuencia en los pacientes que al diagnosticarse tenían menos de 10 años.

Palabras clave: malformaciones del pie, sinóstosis del tarso.

Congenital tarsal synostosis

Aim. Review of 86 cases of tarsal synostosis (35 with talocalcaneal synostosis and 52 with calcaneo-navicular synostosis) to identify some of the characteristics of this malformation.

Materials and methods. A total of 121 feet were studied (35 bilateral cases, 40.6%). The mean age of boys at diagnosis was 12 years 2 months and of girls, 10 years 8 months.

Results. The result of surgical treatment was poor in 5 feet (out of 78 feet observed long term) and the patients had a mean age of 9 years 8 months. In a comparison of the results of children diagnosed before the age of 10 years and children diagnosed after the age of 10 years, results were poor in 25% of the early diagnosis group and in 1.6% of the later diagnosis group.

Conclusions. The following observations are made: a) diagnosis was earlier in girls; b) the presence of flat foot with contracture and radiographic signs such as the C sign or dorsal prominence of the talar head suggest synostosis but are not diagnostic and c) poor results of surgical treatment are more frequent in patients diagnosed before the age of 10 years.

Key words: foot malformations, tarsal synostosis.

Las sinóstosis del tarso constituyen, según una revisión reciente¹, el 12,68% de las malformaciones que aparecen en el pie. Se han descrito en forma de una unión fibrosa, cartilaginosa u ósea. Las sinóstosis más frecuentes se producen entre el astrágalo y el calcáneo (A-C), y entre el calcáneo y

el escafoides (C-E). Para este trabajo se ha hecho una revisión de los casos observados en estas localizaciones, con el objetivo de constatar algunas de las características de este tipo de malformación y ver también si, aparte su ubicación, hay algunos otros factores que las diferencian.

MATERIAL Y MÉTODO

Se han revisado 86 casos de sinóstosis del tarso, con un total de 121 pies estudiados (había 35 casos bilaterales: 40,6%). Eran del sexo masculino 54 de estos casos y del femenino 32. Había 35 casos con sinóstosis A-C y 52 casos con sinóstosis C-E; hay que tener en cuenta que uno de los

Correspondencia:

J. Minguella.
C/ Templo, 24, 2.º.
08911 Badalona. Barcelona.
Correo electrónico: 2809jms@comb.es

Recibido: febrero de 2004.

Aceptado: junio de 2004.

casos, que era bilateral, presentaba en un pie una sinóstosis A-C y en el otro C-E. En la localización A-C, 11 casos eran bilaterales (31,4%) y en la C-E, lo eran 24 casos (46,1%).

El diagnóstico se basó en la sospecha por la exploración clínica (dolor o molestias, pie plano contracto o valgo progresivo del talón, y limitación o abolición del movimiento de la articulación subastragalina) y confirmación por la exploración radiográfica o por tomografía axial computarizada (TAC). Era frecuente el antecedente de traumatismo o sobrecarga, no siempre constatado con precisión.

En los casos con sintomatología reciente, el tratamiento consistió en la infiltración del *sinus tarsi* con un corticoide, pasando al tratamiento quirúrgico de persistir los síntomas. En general en la sinóstosis C-E se indicó la resección amplia de la sinóstosis e interposición del músculo pedio. En la sinóstosis A-C se realizó también una resección de la sinóstosis, cubriendo con cera la zona ósea cruenta, e interposición de parte del tendón del flexor propio del dedo gordo (flexor *hallucis longus*), previamente dividido longitudinalmente. En los casos de pacientes ya mayores (15 años o más), dado que se consideró ya un pie adulto y con pocas posibilidades de adaptarse a una cierta movilidad, se procedió directamente a una triple artrodesis, y también ante una recidiva del dolor, o en un caso en que la sinóstosis A-C era tan extensa que no pareció oportuna su simple resección.

El resultado del tratamiento se consideró *bueno* cuando no se reprodujo el dolor o había sólo alguna molestia esporádica ante esfuerzos extraordinarios, había ganado movilidad la articulación subastragalina, aunque no tuviera una amplitud normal y se había corregido la posición anormal del pie; *regular* cuando, aun habiendo ganado una cierta movilidad en la articulación subastragalina, referían molestias con el cansancio o esfuerzo habitual; y se consideró el resultado *malo* cuando persistía el dolor y la limitación del movimiento.

RESULTADOS

El promedio de edad al diagnóstico de la sinóstosis queda expresado en la tabla 1. En la sinóstosis A-C la edad media en el sexo femenino era de 11 años y 3 meses, pero habría que constatar que una de las 11 niñas, vista por primera vez a los 15 años, desde hacía varios presentaba sintomatología y

Tabla 1. Promedio de edad al diagnóstico

	Tarso	A-C	C-E
Global	11 a 7 m	11 a 9 m	11 a 6 m
Sexo masculino	12 a 2 m	12 a 2 m	12 a 3 m
Sexo femenino	10 a 8 m	*11 a 3 m	10 a 5 m

* una de estas niñas, vista a los 15 años, hacía varios que tenía dolor pero no se había diagnosticado. De suprimir este caso, la media sería 10 a 9 m.

A-C: astrágalo-calcánea; C-E: calcáneo-escafoidea; a: años; m: meses.

no había sido diagnosticada; si se suprimiera este caso, la edad media en el sexo femenino quedaría en 10 años y 9 meses, que correspondería mejor a la edad media femenina, tanto del conjunto del tarso como de las sinóstosis C-E.

Como síntomas más característicos que motivaron la consulta hay que destacar el pie plano contracto, por contractura de la musculatura peronea, que llevaba el pie en valgo a veces irreductible; se observó en 32 casos (37,2%), 22 (42,3%) presentaban una sinóstosis C-E y 10 casos (28,5%) sinóstosis A-C. La presencia de sinóstosis con un pie en varo se observó en 2 casos, ambos bilaterales y con sinóstosis A-C; los demás presentaban un pie plano-valgo más o menos rígido. Otro síntoma fue la presencia de dolor, especialmente con el cansancio, que manifestaron 26 pacientes (50%) con sinóstosis C-E y 20 (57,1%) con sinóstosis A-C. En todos los casos la exploración clínica ponía de manifiesto una limitación o abolición del movimiento de la articulación subastragalina.

En la mayoría de las sinóstosis C-E se llegó al diagnóstico mediante una radiografía del pie en proyección oblicua (proyección de Sloman) (fig. 1) y pocas veces se precisó de una TAC. Por el contrario, la exploración radiográfica de las sinóstosis A-C sólo permitió, en algunos casos, sospechar una sinóstosis ante la poca definición de la articulación media astrágalo-calcánea, la presencia de un pico dorsal en la cabeza del astrágalo, o la aparición de una imagen en C, pero para concretar el diagnóstico se precisó siempre de una exploración por TAC (fig. 2).

Sólo 4 (4,6%) de nuestros casos, todos con sinóstosis C-E, referían antecedentes familiares de malformación, que hacía sospechar su carga genética.

De un total de 121 pies observados, sólo se constata el resultado del tratamiento de 78 pies. No se trataron quirúrgicamente 19 pies, ya que los pacientes no volvieron después de establecerse el diagnóstico, ya sea porque con el tratamiento ortopédico mejoró la sintomatología, o porque no deseaban pasar por un tratamiento quirúrgico. De los pacientes con afectación bilateral, en 14 casos se operó un solo pie, ya que el otro permanecía asintomático. En el trata-



Figura 1. Proyección radiográfica oblicua de un pie con una sinóstosis calcáneo-escafoidea, que muestra una zona intermedia cartilaginosa.



Figura 2. Corte de tomografía axial computerizada (TAC) en el que aparece una sinóstosis astrágalo-calcánea, muy evidente en el lado izquierdo (derecho de la figura).

miento quirúrgico de 10 pies no se constata el resultado, porque había un seguimiento que se consideró insuficiente (menos de un año): o eran casos recientes o, tratándose de pacientes de fuera de la región, no volvieron a la consulta del hospital después de un seguimiento de 3-4 meses. Distinguiremos el resultado de 78 pies según la localización de la sinóstosis (tabla 2).

En el resultado del conjunto de las sinóstosis, cabe destacar que la edad media de los 62 casos calificados de *buenos* era de 11 años y 7 meses; en los 11 casos considerados *regulares*, de 11 años y 4 meses; y entre los 5 casos *malos*, la edad media era de 9 años y 8 meses. Habría que señalar que estos 5 casos con resultado malo correspondían a 4 varones y una niña.

De los 78 casos tratados, 16 tenían menos de 10 años y 62 más de 10. Desglosamos el resultado obtenido en relación a la edad en la tabla 3, y en la tabla 4 el resultado de los casos de menos de 10 años, separando las sinóstosis A-C de las C-E.

DISCUSIÓN

Un primer aspecto que llama la atención en esta revisión es la distinta edad en que se estableció el diagnóstico, dependiendo de si se trataba de pacientes del sexo masculino

Tabla 2. Resultados del tratamiento		
	Sinóstosis A-C: 26 casos	Sinóstosis C-E: 52 casos
Bueno	22 casos (84,6%)	40 casos (76,9%)
Regular	1 caso	10 casos (19,2%)
Malo	3 casos (11,5%)	2 casos (3,8%)

A-C: astrágalo-calcánea; C-E: calcáneo-escafoidea.

Tabla 3. Resultados según edad		
	16 casos de < 10 años	62 casos de > 10 años
Bueno	11 casos (68,7%)	51 casos (82,2%)
Regular	1 caso (6,2%)	10 casos (16,1%)
Malo	4 casos (25%)	1 caso (1,6%)

Tabla 4. Resultado de los casos de menos de 10 años, según tipo de sinóstosis		
	A-C (8 casos)	C-E (8 casos)
Bueno	6	5
Regular		1
Malo	2	2

A-C: astrágalo-calcánea; C-E: calcáneo-escafoidea.

no o femenino, y ello se constata tanto en la valoración global, como distinguiendo entre sinóstosis A-C y C-E. Es evidente que, si bien las sinóstosis son una lesión presente ya en el nacimiento, no suelen manifestarse hasta la adolescencia, y ello se ha explicado porque en la adolescencia suele aumentar la actividad física de los niños y, al aumentar la sobrecarga, puede poner de manifiesto la limitación en el movimiento del pie que comporta una sinóstosis, apareciendo la sintomatología. Pero también podría ser un motivo el que inicialmente la sinóstosis sea cartilaginosa² y sólo dé sintomatología al osificarse y aumentar la rigidez³, circunstancia que ocurriría en la adolescencia, al terminar el crecimiento óseo. Ello podría explicar la menor edad media al diagnóstico observada en el sexo femenino, que termina antes el proceso de osificación, al presentar una pubertad más precoz. Si bien se ha dicho³ que la sinóstosis C-E se osifica antes que la A-C, en nuestros casos no se ha apreciado una significativa diferencia en el promedio de edad al diagnóstico entre las sinóstosis C-E (11 a 6 m de edad media) y las A-C (11 a 9 m).

La presencia de un pie plano contracto, que presentaban 32 de nuestros casos (37,2%), es un factor significativo que hará sospechar la presencia de una sinóstosis, pero en modo alguno es un síntoma patognomónico, ya que esta contractura puede ser la respuesta a otro tipo de estímulo, y no siempre una sinóstosis da lugar a esta reacción³. En nuestros casos, el pie plano contracto se ha observado en una mayor proporción en las sinóstosis C-E, pero no parece que ello sea significativo y poderlo considerar un síntoma clínico que permita definir una determinada localización de la sinóstosis.

Cabría también señalar la escasa presencia de un pie varo o cavo-varo en las sinóstosis del tarso, que se ha observado en sólo 2 casos con sinóstosis A-C, poca frecuencia que se constata también en otros trabajos⁴; lo habitual es presentarse con un pie plano valgo.

La constatación de sólo 4 casos (4,6%) con antecedentes familiares de malformación no refleja la realidad de la

carga genética que presentan las sinóstosis del tarso, ya que es difícil la observación de casos familiares semejantes, dada la frecuencia de casos asintomáticos. Así, Leonard (1974)⁵ investigó 98 familiares directos de los 31 pacientes con sinóstosis del tarso que revisó, y en ellos encontró 38 (39%) que presentaban una sinóstosis del tarso que nunca había dado sintomatología.

La posibilidad de sinóstosis del tarso asintomáticas queda también evidente en nuestra revisión, en la que 14 pacientes con afectación bilateral sólo aceptaron el tratamiento de un pie, ya que el otro permanecía asintomático, y se había diagnosticado gracias a la exploración bilateral radiográfica o por TAC.

En algunos trabajos recientes⁶⁻⁸ se habla del valor diagnóstico del llamado signo en C, que aparece en alguna radiografía del pie en proyección lateral; creemos que este signo muestra más bien una posición en valgo del talón que una sinóstosis A-C, por lo que su observación puede sugerir la presencia de una sinóstosis y justificar una exploración más exhaustiva, pero en modo alguno su ausencia puede descartar una sinóstosis.

También se ha dado valor a la presencia de una prominencia dorsal, a modo de pico, en la cabeza del astrágalo, que podría sugerir la existencia de una sinóstosis, y que Wilde et al (1994)⁹ ha encontrado en 11 (57%) de los 19 pies observados con sinóstosis A-C. Probablemente es un signo de aparición más bien tardía, producido al quedar sobrecargada la articulación astrágalo escafoidea debido a la escasa o nula movilidad de la subastragalina. En nuestra revisión no nos ha parecido un signo significativo para el diagnóstico, aunque su presencia ha justificado una más profunda exploración.

Los resultados obtenidos con el tratamiento quirúrgico son semejantes a los observados en otros trabajos^{4,10-12}. Los malos resultados aparecen en un mayor porcentaje en las sinóstosis A-C (11,5%), que en las C-E (3,8%).

Si reunimos las sinóstosis A-C y C-E se obtienen en conjunto 5 malos resultados en pacientes cuya edad media era de 9 años y 8 meses, muy por debajo de la edad media global en que se ha hecho el diagnóstico (11 años y 7 meses) y más aún de la media global masculina (12 años y 2 meses); hay que tener en cuenta que 4 de estos casos eran varones. Esto hace pensar que en la aparición precoz de sintomatología podrían haber influido otras causas; quizá la coexistencia de otras sinóstosis, cartilaginosas o fibrosas, que habrían pasado desapercibidas a la exploración, pero influirían en la aparición precoz de síntomas; el abordaje quirúrgico se habría limitado a la localización diagnosticada, dejando los otros aspectos por resolver. Así, Coperman et al (2001)¹³ sugieren que en el caso de las sinóstosis C-E, la anatomía patológica no es uniforme y puede también envolver la articulación subastragalina, y contribuiría a la presentación de casos insatisfactorios. Ello podría aplicarse también a las sinóstosis A-C, en que además de la afectación

más habitual, en la articulación intermedia, podría haber lesiones que afectaran la faceta posterior que hubieran pasado desapercibidas. Al ser un trabajo retrospectivo, y al haberse resuelto el mal resultado de estos 5 casos con una triple artrodesis, nos impide comprobar si había en el tarso de estos pacientes otras lesiones no diagnosticadas.

Observando los resultados obtenidos, según la edad en que se estableció el diagnóstico, puede constatar que si bien una edad inferior a los 10 años no asegura un mal pronóstico, si que a esta edad el riesgo de obtener malos resultados (25%) es muy superior, no dependiendo del tipo de sinóstosis del tarso que presenten.

En conclusión, las sinóstosis del tarso (tanto A-C, como C-E) se diagnostican a una edad inferior en las niñas que en los varones. La carga genética expresada por la presencia de antecedentes familiares es escasa, pero probablemente superior a la que se constata, dada la frecuencia de sinóstosis asintomáticas no diagnosticadas. Los síntomas clínicos no permiten diferenciar la sinóstosis A-C de la C-E. La presencia de un pie plano contracto es significativa, pero no asegura la existencia de una sinóstosis. En la exploración radiográfica, tanto el signo en C como la presencia de una prominencia dorsal en la cabeza del astrágalo son signos que pueden sugerir una sinóstosis, pero no asegurar su diagnóstico. La aparición de los síntomas antes de los 10 años de edad representa un mayor riesgo de obtener un mal resultado.

BIBLIOGRAFÍA

1. Minguella J. Malformaciones del pie. Barcelona: Masson SA; 2003.
2. Kawashima T, Uthoff HK. Prenatal development around the sustentaculum tali and its relation to talocalcaneal coalitions. *J Pediatr Orthop.* 1990;10:238-43.
3. Mosier KM, Asher M. Tarsal coalitions and peroneal spastic flat foot. *J Bone Joint Surg Am.* 1984;66A:976-84.
4. Confort TK, Johnson LO. Resection for symptomatic talocalcaneal coalition. *J Pediatr Orthop.* 1998;18:283-8.
5. Leonard MA. The inheritance of tarsal coalition and its relationship to spastic flat foot. *J Bone Joint Surg Br.* 1974;56B:520-6.
6. Sakellariou A, Sallomi D, Janzen DL, Munk PL, Claridge RJ, Kiri VA. Talocalcaneal coalition. Diagnosis with the C-sign on lateral radiographs of the ankle. *J Bone Joint Surg Br.* 2000;82B:574-8.
7. Brown RR, Rosenberg ZS, Thornhill BA. The C sign: more specific for flatfoot deformity than subtalar coalition. *Skeletal Radiol.* 2001;30:84-7.
8. Taniguchi A, Tanaka Y, Kadono K, Takakura Y, Kurumatani N. C sign for diagnosis of talocalcaneal coalition. *Radiology.* 2003;228:501-2.
9. Wilde PH, Torode IP, Dickens DR, Gole WG. Resection for symptomatic talocalcaneal coalition. *J Bone Joint Surg Br.* 1994;76B:797-801.
10. Raikin S, Cooperman DR, Thompson GH. Interposition of the split flexor hallucis longus tendon after resection of a coa-

- lition of the middle facet of the talocalcaneal joint. J Bone Joint Surg Am. 1999;81A:11-9.
11. González P, Kumar SJ. Calcaneonavicular coalition treated by resection and interposition of the extensor digitorum brevis muscle. J Bone Joint Surg Am. 1990;72A:71-7.
 12. Moyes ST, Crawford ESP, Aishroth PM. The interposition of extensor digitorum brevis in the resection of calcaneo navicular bars. J Pediatr Orthop. 1994;14:387-8.
 13. Cooperman DR, Janke BE, Gilmore A, Latimer BM, Brinker MR, Thompson GH. A three-dimensional study of calcaneo-navicular tarsal coalitions. J Pediatr Orthop. 2001;21:648-51.

Conflicto de intereses. Los autores no hemos recibido ayuda económica alguna para la realización de este trabajo. Tampoco hemos firmado ningún acuerdo por el que vayamos a recibir beneficios u honorarios por parte de alguna entidad comercial. Por otra parte, ninguna entidad comercial ha pagado ni pagará a fundaciones, instituciones educativas u otras organizaciones sin ánimo de lucro a las que estemos afiliados.