



# REVISTA ESPAÑOLA DE PODOLOGÍA

Publicación Oficial del Consejo General de Colegios Oficiales de Podólogos

## Artículo Aceptado para su pre-publicación / Article Accepted for pre-publication

### Título / Title:

Análisis cinemático de la articulación de tobillo y las articulaciones del mediopié en población pediátrica afectada de Osteogénesis Imperfecta. / Kinematic analysis of bisegmental foot model in children with Osteogenesis Imperfecta.

### Autores / Authors:

Ester Sánchez Márquez, Jorge Gómez Triguero, María Teresa Arribas Cordero, Ignacio Martínez Caballero, Sergio Lerma Lara

DOI: [10.20986/revesppod.2021.1603/2021](https://doi.org/10.20986/revesppod.2021.1603/2021)

### Instrucciones de citación para el artículo / Citation instructions for the article:

Sánchez Márquez Ester , Gómez Triguero Jorge, Arribas Cordero María Teresa, Martínez Caballero Ignacio, Lerma Lara Sergio. Análisis cinemático de la articulación de tobillo y las articulaciones del mediopié en población pediátrica afectada de Osteogénesis Imperfecta. / Kinematic analysis of bisegmental foot model in children with Osteogenesis Imperfecta.. Rev. Esp. Pod. 2021. doi: 10.20986/revesppod.2021.1603/2021.



Este es un archivo PDF de un manuscrito inédito que ha sido aceptado para su publicación en la Revista Española de Podología. Como un servicio a nuestros clientes estamos proporcionando esta primera versión del manuscrito en estado de pre-publicación. El manuscrito será sometido a la corrección de estilo final, composición y revisión de la prueba resultante antes de que se publique en su forma final. Tenga en cuenta que durante el proceso de producción se pueden dar errores lo que podría afectar el contenido final.



ORIGINAL

Artículo en español

Rev Esp Podol. 2021;xx(x):x-x

DOI: 10.20986/revesspod.2021.1603/2021

## Análisis cinemático de la articulación de tobillo y las articulaciones del mediopié en población pediátrica afectada de osteogénesis imperfecta

*Kinematic analysis of ankle and midfoot joints in children with osteogenesis imperfecta*

Ester Márquez Sánchez<sup>1</sup>, Jorge Gómez Triguero<sup>2</sup>, María Teresa Arribas Cordero<sup>2</sup>, Ignacio Martínez Caballero<sup>1</sup> y Sergio Lerma Lara<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>Laboratorio de Análisis del Movimiento. Hospital Infantil Universitario Niño Jesús. Madrid, España. <sup>2</sup>Facultad de Ciencias de la Salud. Centro Superior de Estudios Universitarios La Salle. Universidad Autónoma de Madrid, España

### Palabras clave:

Osteogénesis imperfecta, pie plano, biomecánica, marcha, niños.

### Resumen

**Objetivos:** La osteogénesis imperfecta (OI) es una enfermedad de origen genético que afecta a la síntesis del colágeno de tipo I y se caracteriza por la existencia de una fragilidad ósea persistente. El objetivo de este estudio fue evaluar objetivamente la cinemática de la articulación del tobillo y el pie de niños con osteogénesis imperfecta mediante un análisis tridimensional de movimiento.

**Pacientes y métodos:** Se comparó la marcha de diez niños con OI y nueve niños con desarrollo típico. Se realizó un análisis de movimiento tridimensional utilizando el modelo de pie de dos segmentos para cuantificar las diferencias cinemáticas en los planos sagital y transversal del movimiento de la articulación del tobillo y del pie durante la marcha.

**Resultados:** La amplitud de movimiento dinámico en el plano sagital, aunque estadísticamente significativa, no lo fue clínicamente. Sin embargo, la amplitud de movimiento dinámico de la articulación del mediopié (antepié en relación con el retropié) en el plano sagital y transversal mostró hipermovilidad, siendo clínicamente relevantes las variables relacionadas con la alteración de la biomecánica articular del pie y las variables espaciales y temporales de la marcha.

**Conclusiones:** Los niños con osteogénesis imperfecta estudiados presentan alteraciones cinemáticas a nivel del tobillo y el mediopié consistentes en un aumento de la movilidad tanto en el plano sagital como en el plano transversal.

### Keywords:

Osteogenesis imperfecta, flatfoot, biomechanics, gait, children.

### Abstract

**Objectives:** Osteogenesis imperfecta (OI) is a genetic disease affecting the synthesis of type I collagen molecules and is characterized by the existence of persistent bone fragility. The aim of this study was to assess objectively the kinematics of the ankle joint and foot of children with osteogenesis imperfecta by three-dimensional motion analysis.

**Patients and methods:** The gait of ten children with OI and nine typically developing children were compared. Three-dimensional motion analysis was performed using the Multisegment Foot Model to quantify kinematic differences in the sagittal and transverse planes of motion of the ankle joint and foot during walking.

**Results:** The dynamic range of motion in the sagittal plane while statistically significant was not clinically relevant. However, the midfoot joint (forefoot relative to hindfoot) dynamic range of motion in the sagittal and transverse plane showed hypermobility, with variables related to altered joint biomechanics of the foot and spatial and temporal variables of gait being clinically relevant.

**Conclusions:** The children with Osteogenesis Imperfecta studied had kinematic alterations at the level of the ankle and midfoot consisting of increased mobility in both the sagittal and transverse planes.

Recibido: 29-04-2021

Aceptado: 17-06-2021



0210-1238 © Los autores. 2021.  
Editorial: INSPIRA NETWORK GROUP S.L.  
Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC Reconocimiento 4.0 Internacional  
([www.creativecommons.org/licenses/by/4.0/](http://www.creativecommons.org/licenses/by/4.0/)).

Correspondencia:

Sergio Lerma Lara  
[Sergio.lerma@lasallecampus.es](mailto:Sergio.lerma@lasallecampus.es)

## INTRODUCCIÓN

La osteogénesis imperfecta (OI) es una enfermedad hereditaria que afecta al tejido conectivo, causada por un defecto cuantitativo o cualitativo en la síntesis del colágeno. En la mayoría de los casos se trata de mutaciones localizadas en los cromosomas 7 y 17, generando defectos en las cadenas alfa 1 y alfa 2 del colágeno tipo I. Al tratarse de una enfermedad considerada rara, la incidencia de la misma se estima entre 1:10000 y 1:15000<sup>1,2</sup>. La principal característica clínica es la fragilidad ósea persistente, que conduce a la aparición de múltiples fracturas y otra serie de características clínicas, tales como baja estatura, deformidad esquelética progresiva, dentinogénesis imperfecta, esclerótica azul, hiperlaxitud articular, hipotonía muscular y sordera en edad adulta<sup>2,3</sup>.

La OI ha presentado un campo de investigación muy amplio sobre las distintas aproximaciones terapéuticas, persistiendo en la actualidad numerosas líneas de investigación abiertas en búsqueda de resultados sobre la evolución de la enfermedad<sup>4,5</sup>. Existe un tratamiento estandarizado que a menudo resulta ser empírico, consistiendo en la fisioterapia, el uso de bifosfonatos y la realineación funcional de las extremidades mediante cirugía ortopédica<sup>6</sup>.

La primera clasificación de la enfermedad fue descrita por Sillence en el año 1979, que prestó especial atención a los aspectos clínicos, radiológicos y genéticos que dividieron la enfermedad en 4 subtipos principales (I-IV). En cambio, Shapiro introdujo un nuevo sistema que relacionó los resultados de la enfermedad en términos de supervivencia y habilidades motoras, además de las fracturas iniciales y la apariencia radiológica de las costillas y huesos largos<sup>1,5</sup>. A través de los avances genéticos y bioquímicos de la fisiopatología de la OI, se han encontrado nuevos tipos que siguen la clasificación numérica descrita por Sillence (V-VIII). La nueva categorización se basa en la histología del hueso y ciertas características clínicas de diferenciación como, por ejemplo, luxación de la cabeza del radio, calcificación de la membrana interósea entre radio y cúbito, formación de callo hiperplásico en el foco de fractura y un patrón irregular de laminación ósea (irregular pattern of bone lamellation)<sup>7,8</sup>. No obstante, este esquema de clasificación puede que cambie en futuras investigaciones de la fisiopatología de la OI<sup>9</sup>.

Los diversos tipos de presentación clínica suponen diferencias entre los sujetos afectados de OI en relación con las alteraciones del aparato locomotor, desde los que caminan de forma autónoma hasta los que solo utilizan silla de ruedas para moverse por el medio. En aquellos que presentan capacidad para deambular, existen alteraciones del movimiento durante la marcha de estos pacientes. El pie plano es una de las características más comunes en este tipo de pacientes, la mayoría de las veces flexible y que depende de la debilidad muscular asociada desde edad temprana, al ser una zona de carga con hiperlaxitud en las articulaciones que forman el arco longitudinal interno y fascia plantar<sup>10,11</sup>.

Los trastornos de la marcha se encuentran descritos en la literatura como algunos de los problemas funcionales de las personas con OI que más relación guardan con la discapacidad<sup>12</sup>. Pese a no encontrar muchos estudios descriptivos de las alteraciones de la marcha de niños con OI, Deschamps y cols. describieron algunas de las alteraciones más relevantes mediante el uso del análisis tridimensional de la marcha en esta población<sup>13</sup>. El análisis tridimensional de movimiento es un método preciso que permite llegar a una conclusión sobre la disfunción del aparato locomotor y que identifica el movimiento de las articulaciones en los 3 planos del espacio<sup>14</sup>.

En la hipótesis planteada se propone que los niños con OI presentan alteraciones cinemáticas específicas durante la marcha, tanto a nivel del tobillo como a nivel del mediopié. El objetivo del presente estudio trata de describir el comportamiento cinemático del complejo articular tobillo y del mediopié en el plano sagital y el plano transversal en niños deambulantes con osteogénesis imperfecta frente a un grupo de niños sin patología ortopédica, a través del análisis tridimensional del movimiento.

## PACIENTES Y MÉTODOS

### *Tipo de diseño*

Estudio descriptivo comparativo de tipo transversal respecto de la población normal.

### *Población de estudio*

Todos los pacientes fueron reclutados de la base de datos de afectados de OI de las asociaciones AHUCE y AMOI, mediante una llamada telefónica en la que se informaba de la realización de un estudio, así como los criterios de inclusión en el mismo. La hoja de información del estudio se envió por correo electrónico y en la primera visita se entregó el consentimiento informado para la participación del mismo. Tanto el estudio como todos los documentos contaron con la conformidad del comité de ética del Centro Superior de Estudios Universitarios La Salle, CSEULS-PI-168/2017, conforme a la declaración de Helsinki para las investigaciones médicas con seres humanos. La recogida de datos del estudio se realizó durante 2018 en el Laboratorio de Análisis del Movimiento del Hospital Infantil Universitario Niño Jesús de Madrid.

Se estudiaron 10 niños con diagnóstico de osteogénesis imperfecta con capacidad para realizar deambulación independiente de al menos 50 metros con una edad media de  $10.7 \pm 3.8$  años. Se comparó con un grupo control de 9 niños sanos con una edad media de  $9.2 \pm 3.15$  años.

Se incluyeron todos aquellos niños que tuvieran un diagnóstico de osteogénesis imperfecta con una edad comprendida entre los 3 y los 18 años, con capacidad para realizar deambulación independiente, buen nivel cognitivo y que fueran colaboradores y sin fracturas previas en el último año. Se aceptó el uso de ayudas técnicas (andador, muletas, basto-



**Figura 1.** Colocación de marcadores en el pie del modelo bisegmental empleado en el estudio.

nes). Los niños que se incluyeron debían presentar una longitud del pie de, al menos, 16 cm para poder realizar el análisis tridimensional de movimiento con el protocolo de modelo de pie de dos segmentos<sup>12,13</sup>.

#### Recogida de datos

El procedimiento de recogida de información clínica consistió en la realización de una exploración física de ambos miembros inferiores y la realización de un análisis tridimensional de la marcha utilizando el modelo bisegmental de pie propuesto por Davis<sup>14</sup>. Se colocaron 23 marcadores pasivos reflectantes de 1.5 cm de diámetro en los siguientes puntos anatómicos de ambos lados del cuerpo: espinas ilíacas antero-superiores y espina iliaca postero-superior, cóndilo medial y lateral del fémur, maléolo tibial y peroneal, cabeza del 5.º metatarsiano, cabeza y base del primer metatarsiano, borde lateral y medial del calcáneo y cara posterior del calcáneo (Figura 1).

La trayectoria de estos marcadores se recogió a partir de 8 cámaras optoelectrónicas a 250 Hz (BTS Bioengineering, Milán, Italia) con una resolución de 0,3 Mpixel y se reconstruyó el movimiento tridimensional de los distintos segmentos anatómicos del pie mediante el software del programa Smart-Capture dentro del programa informático Smart Analyzer. Un sistema de recogida de imágenes de vídeo actuó de manera sincronizada con la adquisición cinemática.

#### Variables

Se escogieron para el estudio comparativo, rangos de movimiento y valores cinemáticos de dorsiflexión del complejo articular tobillo y el mediopié en el plano sagital y transversal en el contacto inicial y el pico máximo de dorsiflexión en la fase media del apoyo, así como el rango dinámico de movimiento en el plano sagital de ambos complejos articulares. Esta medida se calcula estableciendo los valores máximos y mínimos durante el ciclo de marcha y estableciendo el rango

de movimiento descrito (Figura 2). Para calcular estas variables se empleó el programa de análisis cinemático Smart-Analyzer (BTS Bioengineering, Milán, Italia), describiéndose manualmente el momento de contacto inicial y el despegue y, una vez procesado el ciclo de marcha, se procedieron a calcular el resto de valores anteriormente descritos.

Los niños debían caminar descalzos a lo largo de una pasarela de 7 metros a su velocidad habitual. Al menos 10 paseos fueron recogidos en cada sujeto para asegurar la consistencia de los datos, realizado los mismos en un laboratorio de 10 metros de longitud a una velocidad libre. Se seleccionaron 3 paseos de cada niño para calcular los parámetros cinemáticos de ambos miembros inferiores durante la marcha, expresados estos como media y desviación estándar de los ciclos de paso incluidos.

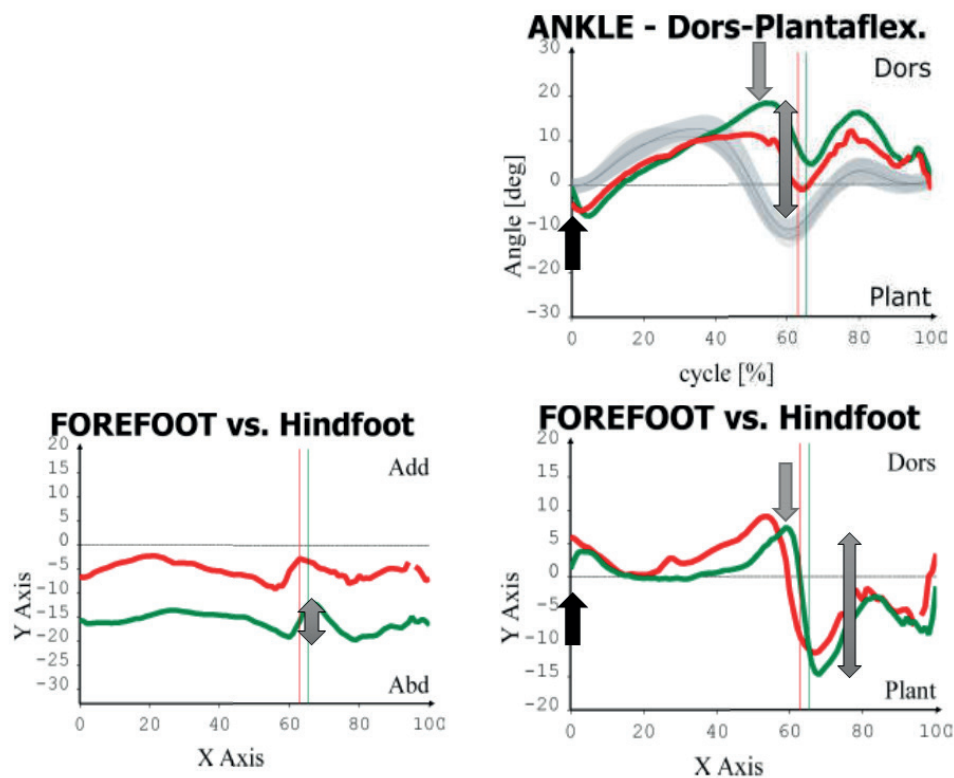
#### Análisis estadístico

El análisis estadístico realizado en el presente estudio descriptivo fue a través del programa informático SPSS 27.0 de IBM Corp. 2020. Armonk, NY. Se recogieron todas las variables cinemáticas a analizar, tanto del grupo de OI como del grupo control, para establecer valores estadísticos del promedio y desviación estándar.

Se analizó la homogeneidad de ambos grupos mediante el test Shapiro-Wilk. Los valores estadísticos obtenidos de cada variable cinemática se compararon entre ambos grupos para adquirir el valor *p* a través de la prueba *t* de Student. También se obtuvo la diferencia de promedio entre ambos grupos. Por último, se calculó la *d* de Cohen para estimar los tamaños del efecto.

## RESULTADOS

Se reclutaron 19 participantes (10 niños con OI, 9 sujetos sanos) y a todos se les realizó análisis de movimiento según el protocolo bisegmental del pie propuesto por R. Davis. Los



**Figura 2.** Gráficas cinemáticas tipo de un niño afectado de OI. Las flechas negras marcan el valor cinemático de dorsiflexión en el plano sagital. Las flechas grises marcan el valor cinemático de máxima dorsiflexión en fase media del apoyo. Las flechas con doble puntero marcan el rango dinámico de movimiento en los distintos planos: FOREFOOT = antepié; Hindfoot = retropié.

datos demográficos y cinemáticos descriptivos de los participantes se muestran en la Tabla I. La relación existente entre ambos grupos en cuanto a los datos demográficos no presentó diferencias estadísticamente significativas en la prueba Shapiro-Wilk, salvo que la mayoría de los participantes sometidos al estudio fueron varones.

Los 10 niños de OI presentaron un análisis cinemático característico de pie plano mientras que en 2 niños del grupo control se apreció una discreta prolongación del 2.º rocker en la fase de apoyo en el plano sagital (Figura 2).

Los valores cinemáticos analizados en el grupo de OI revelaron un aumento del pico de la dorsiflexión de tobillo en el momento del contacto inicial, comparado con el grupo control, concretamente 2.1 grados más de dorsiflexión que el grupo de sujetos sanos, sin significación estadística en la prueba *t* de Student. El tamaño del efecto pequeño (*d* de Cohen = 0.537) (Tabla II).

El valor máximo de dorsiflexión del tobillo en apoyo no demostró una diferencia estadísticamente significativa entre ambos grupos ( $p = 0.45$ ) y un tamaño del efecto muy pequeño (*d* de Cohen de 0.25). En el rango dinámico de movimiento del tobillo tampoco se evidenció una diferencia estadísticamente significativa, aunque sí se mostró un tamaño del efecto pequeño (*d* de Cohen de 0.5).

Se observó un mayor rango de movilidad del mediopié en el grupo de OI comparados con el grupo control, encontrando datos clínicamente relevantes, concretamente 6.8 grados ( $p = 0.00002$ ) y un tamaño del efecto grande (*d* de Cohen de 0.96). Estos datos demuestran que existe alteración de la biomecánica articular del pie.

Los valores cinemáticos del mediopié en el plano transversal demostraron tener un mayor rango dinámico de movimiento en el grupo de OI frente grupo control, concretamente 4.73 grados más de movilidad del mediopié con un valor  $p = 0.01$  y un tamaño del efecto grande (*d* de Cohen de 0.87), que demuestra datos clínicamente significativos y que también comprometen la biomecánica articular durante la marcha.

## DISCUSIÓN

El objetivo del presente estudio trata de describir el comportamiento cinemático del complejo articular tobillo-pie en pacientes deambulantes con osteogénesis imperfecta, a través del análisis tridimensional del movimiento.

El complejo articular del pie humano es una estructura compleja, siendo indispensable saber diferenciar entre el pie

**Tabla I. Valores sociodemográficos y cinemáticos descriptivos.**

Grupo		Media	Desviación estándar
Control (9 sujetos)	Talla	143.32	16.61
	Peso	39.21	16.95
	Edad	10.22	3.15
	FD Tobillo Contacto	0.70	2.80
	FD Tobillo Apoyo Medio	12.97	3.41
	Rango Tobillo plano sagital	18.67	2.95
	Rango Mediopié plano sagital	17.99	3.70
	Rango Mediopié plano transverso	7.21	2.08
Osteogénesis imperfecta (10 sujetos)	Talla	142.84	19.42
	Peso	41.95	20.41
	Edad	12.00	3.80
	FD Tobillo Contacto	2.91	4.70
	FD Tobillo Apoyo Medio	13.89	3.94
	Rango Tobillo plano sagital	20.15	3.00
	Rango Mediopié plano sagital	24.80	6.54
	Rango Mediopié plano transverso	11.95	7.19

Talla expresada en cm, peso en kg, edad en años y el resto de valores en grados. FD: flexión dorsal.

**Tabla II. Valores del estudio comparativo. Diferencia de medias, significación estadística de la prueba t de Student y tamaño del efecto (valor de la d de Cohen).**

	Diferencia de medias	Valor p	d de Cohen
FD Tobillo Contacto	-2.105	0.11	0.54
FD Tobillo Apoyo Medio	-0.91278	0.45	0.25
Rango Tobillo plano sagital	-1.47278	0.14	0.50
Rango Mediopié plano sagital	-6.80556	> 0.001	0.96
Rango Mediopié plano transverso	-4.73389	0.01	0.87

plano flexible y el pie plano rígido, ya que ambas deformidades presentan tratamientos diferentes<sup>15-17</sup>. Si bien se encuentran pocas referencias acerca del pie plano en OI, a través del análisis de movimiento según el protocolo bisegmental del pie, en este estudio se aprecian alteraciones cinemáticas específicas para este grupo de niños, con un aumento de la movilidad en el plano sagital y el plano transversal.

Las diferencias cinemáticas encontradas a nivel de mediopié en el grupo de OI pueden ser debidas a la existencia de laxitud articular y ligamentosa, debilidad muscular y una fascia plantar débil. Esto es debido a la alteración en la síntesis de colágeno que provocan que no exista equilibrio entre la estabilidad estática y dinámica del pie, y puede generar la caída del arco longitudinal interno<sup>18</sup>. Por otro lado, Root y cols.<sup>16</sup> describen que la falta de estabilidad muscular en el pie genera también una alteración en la transmisión de la fuerza de reacción del suelo, por lo que aparecerá un estrés anormal y excesivo en las estructuras ligamentosas que comprometen la integridad del arco longitudinal interno.

En la descripción cinemática realizada del tobillo y el mediopié, se pone de manifiesto la presencia de una alteración por exceso de movilidad del mediopié en los planos sagital y transversal, mientras que la articulación talo-crural presenta un comportamiento completamente normal. Dicho hallazgo hace proponer a los autores que el pie plano presente en los niños con OI puede ser el componente inicial de una disfunción del brazo de palanca osteoarticular. Como consecuencia se pueden generar alteraciones del movimiento en otras articulaciones y contribuir de forma negativa al desarrollo de la marcha, y en la edad adulta generar fenómenos degenerativos precoces a nivel articular (osteoartritis o deformidades esqueléticas)<sup>12,19</sup>.

El comportamiento del mediopié presenta la falta de un brazo de palanca bien orientado en el plano transversal y el aumento de la movilidad en las fases media y final del apoyo. Esto compromete la función de propulsión de los gemelos en el tobillo de forma similar a lo descrito en otras poblaciones pediátricas con alteraciones ortopédicas, como el mielomeningocele

o la parálisis cerebral. Por lo tanto, esa disfunción tendrá que ser sustituida a nivel proximal por una mayor actividad en la cadera, músculo psoas y en la movilidad del tronco con el consiguiente aumento de estrés mecánico en la zona<sup>20,21</sup>.

Al no existir diferencias en la dorsiflexión del tobillo durante la fase media del apoyo, parece que la disfunción biomecánica no parece afectar la misión del músculo sóleo en la sujeción de la verticalidad de la tibia en el apoyo monopodal.

El aumento de dorsiflexión del tobillo en el contacto inicial puede ser debido a la consecuencia de las desviaciones de la normalidad en el plano transversal del mediopié. Esto condiciona la articulación proximal en un intento compensatorio del paciente para despegar el pie del suelo, ante un déficit de propulsión del tobillo o estar relacionada con una mayor actividad del músculo tibial anterior y eversores del pie. Futuros estudios cinemáticos, cinéticos y de EMG dinámica de superficie podrán esclarecer estas cuestiones abiertas.

La existencia de hiperlaxitud a nivel de la articulación talo-navicular y de la fascia plantar, es otra característica que podría guardar relación con el colapso del arco longitudinal del pie. Este hecho, unido a que las fuerzas excesivas de peso sobre un esqueleto frágil se evitan, genera alteraciones sobre los parámetros espacio-temporales, cinemáticos y cinéticos durante la marcha. Entre las alteraciones que se producen se encuentran el aumento del porcentaje de doble apoyo, la disminución del 3.<sup>er</sup> rocker, el retraso en la fase de empuje, el aumento de la absorción de potencia durante el apoyo terminal y la disminución de la generación de potencia durante el apoyo terminal<sup>12,22</sup>. El mal alineamiento del brazo de palanca a nivel distal es, por tanto, uno de los mecanismos que va a producir alteraciones en la propulsión del pie durante la fase de empuje y despegue, además de la debilidad muscular existente en los flexores plantares del tobillo, tal y como describen Caudill y cols.<sup>19</sup>.

Dentro de las posibilidades terapéuticas que existen hoy en día para el tratamiento del pie plano, cabe destacar el uso de técnicas quirúrgicas principalmente en el pie plano rígido, el empleo de tratamientos de fisioterapia y podología. En concreto, la podología ofrece el uso de ortesis y plantillas ortopédicas que pueden ayudar a mejorar la adaptación de la carga de peso durante la marcha; se ha evidenciado que el uso de ortesis plantares a largo plazo generan cambios en la cinética y cinemática en la marcha en niños con pie plano flexible<sup>23,24</sup>. Además, el uso de ejercicios de fortalecimiento muscular dirigidos a los músculos tibial posterior, abductor del primer dedo y flexor largo del primer dedo<sup>25,26</sup> puede llegar a mejorar la disposición del arco longitudinal del pie en condiciones dinámicas de carga de peso<sup>25,27</sup>. Por otro lado, se ha evidenciado que el fortalecimiento de la musculatura intrínseca del pie puede generar cambios en la posición del arco longitudinal interno y prevenir la aparición de patología por hiperpronación<sup>28,29</sup>.

El análisis del movimiento ha demostrado numerosas aplicaciones en la planificación de tratamientos en parálisis cerebral infantil<sup>30</sup>. Si bien la etiología es completamente

diferente, las complicaciones ortopédicas que presentan los pacientes con OI pueden beneficiarse de sistemas que ayuden a la descripción objetiva del comportamiento dinámico de las alteraciones ortopédicas, y posiblemente a planificar de forma adecuada el abordaje terapéutico. Sería posible realizar estudios comparativos de las distintas opciones terapéuticas disponibles en el manejo de las alteraciones de la marcha en niños con OI y la repercusión de dichos tratamientos en la marcha del adulto. El protocolo bisegmental del pie ha supuesto una fuente importante de información que permite medir el movimiento que ocurre en todo el complejo articular del pie durante la marcha. Estas medidas de análisis son cruciales para seguir avanzando en el tratamiento ortopédico y fisioterapéutico del pie y tobillo.

Este estudio descriptivo transversal presenta, de manera implícita, varias limitaciones. Primero el reducido tamaño muestral debido a la baja prevalencia de la enfermedad. Por otra parte, otras variables relacionadas con la evolución de la enfermedad (como los antecedentes de fracturas, intervenciones quirúrgicas o la presencia de dolor) podrían ser interesante para incluir en futuros estudios. Por último, el análisis se realizó en un entorno controlado, no natural, y los sujetos caminaron descalzos, pudiendo influir en su patrón de marcha.

Sería necesario establecer las relaciones biomecánicas existentes entre los hallazgos encontrados en el pie de los niños con OI y el patrón característico de otras articulaciones (rodilla, cadera) para valorar el impacto del pie plano sobre la marcha en OI. Además de añadir información cinética, completaría los hallazgos obtenidos planteando la comprensión de la historia natural de la deformidad del pie y, por lo tanto, aprender a planificar la terapia.

A modo de conclusión, el análisis de movimiento se presenta como una herramienta de gran interés a la hora de determinar el impacto funcional de las distintas alteraciones ortopédicas en niños con OI para permitir planificar intervenciones terapéuticas más eficaces, ya sean quirúrgicas, fisioterápicas u ortopodológicas. El protocolo bisegmental del pie permite estudiar a fondo las características cinemáticas en los tres planos del espacio de todo el complejo articular de la pierna y del pie durante la marcha. Los resultados obtenidos plantean que la articulación del tobillo presenta un comportamiento cinemático durante la marcha similar al del grupo de niños control. Existen dos comportamientos cinemáticos diferentes con respecto a la normalidad a nivel del mediopié. En el plano sagital se apreció una mayor movilidad del mediopié en la fase media del apoyo, y en el plano transversal se documentó un comportamiento diferente del mediopié con un mayor rango dinámico de movimiento. Ambas características plantean la importancia de estudiar y valorar el posible impacto de la excesiva movilidad encontrada sobre el resto de articulaciones de la extremidad inferior durante la marcha. Nuevos estudios que incluyan la descripción de los componentes que pueden verse implicados en este tipo de aumento de la movilidad durante la marcha son necesarios.

**CONFLICTO DE INTERESES**

Ninguno.

**FINANCIACIÓN**

Ninguna.

**BIBLIOGRAFÍA**

- Antianazzi F, Mottes M, Fraschini P, Brunelli PC, Tató L. Osteogenesis imperfecta. Practical treatment guideline. *Paediatr Drugs*. 2000;2(6):465-88.
- Monti E, Mottes M, Fraschini P, Brunelli PC, Forlino A, Venturi G, et al. Current and emerging treatments for the management of osteogenesis imperfecta. *Ther Clin Risk Manag*. 2010;6:367-81.
- Sillence D. Osteogenesis imperfecta: an expanding panorama of variants. *Clin Orthop*. 1981;(159):11-25.
- Jeanne M, Suken A, Wallace MJ, Kruse RW. Osteogenesis Imperfecta A Pediatric Orthopedic Perspective. *Orthop Clin North Am*. 2019;5(2):193-209.
- Marini JC, Forlino A, Bächinger HP, Bishop NJ, Byers PH, Paepe A, et al. Osteogenesis imperfecta. *Nat Rev Dis Primers*. 2017;3:17052. DOI: 10.1038/nrdp.2017.52.
- Brownstein CA, Wicks P. The potential research impact of patient reported outcomes on osteogenesis imperfecta. *Clin Orthop Relat Res*. 2010;468(10):2581-5. DOI: 10.1007/s11999-010-1373-x.
- Shapiro JR. Osteogenesis imperfecta and other defects of bone development as occasional causes of adult osteoporosis. In: Marcus R, Feldman D, Nelson D, Rosen CR, eds. *Osteoporosis*. San Diego: Elsevier Academic Press; 2007. p. 1267-304.
- Basel D, Steiner RD. Osteogenesis imperfecta: Recent findings shed new light on this once well-understood condition. *Genet Med*. 2009;11(6):375-85. DOI: 10.1097/GIM.0b013e3181a1ff7b.
- Hill C, Hampshire D, Silverwood B, Bishop NJ. Recent advances in the management of osteogenesis imperfecta. *Current Paediatrics*. 2003;13(2):151-7. DOI: 10.1054/cupe.2002.0430.
- Cheung MS, Glorieux FH. Osteogenesis imperfecta: Update on presentation and management. *Rev Endocr Metab Disord*. 2008;9(2):153-60. DOI: 10.1007/s11154-008-9074-4.
- Bauze RJ, Smith R, Francis MJ. A new look at osteogenesis imperfecta. A clinical, radiological and biochemical study of forty-two patients. *J Bone Joint Surg Br*. 1975;57(1):2-12. DOI: 10.1302/0301-620X.57B1.2.
- Engelbert RH, Beemer FA, Van Der Graaf Y, Helders P. Osteogenesis imperfecta in childhood: impairment and disability: a follow-up study. *Arch Phys Med Rehabil*. 1999;80(8):896-903. DOI: 10.1016/S0003-9993(99)90080-1.
- Deschamps K, Staes F, Roosen P, Nobels F, Desloovere K, Bruyninckx H, Matricali GA. Body of evidence supporting the clinical use of 3D multisegment foot models: A systematic review. *Gait Posture*. 2011;33(3):338-49. DOI: 10.1016/j.gaitpost.2010.12.018.
- Davis RB, Jameson EG, Davids JR, Christopher LM, Rogozinski BM, Anderson JP. The design, development, and initial evaluation of a multi-segment foot model for routine clinical gait analysis. In: Harris GF, Smith PA, Marks RM, eds. *Foot and Ankle Motion Analysis. Clinical Treatment and Technology*. United States of America: Taylor and Francis Group; 2008. p. 425-45.
- Madjarevic M, Kolundzic R, Trkulja V, Mirkovic M, Pecina M. Biomechanical analysis of functional adaptation of metatarsal bones in statically deformed feet. *Int Orthop*. 2009;33(1):157-63. DOI: 10.1007/s00264-008-0622-z.
- Root ML. Planovalgus foot deformity revisited. *J Am Podiatr Med Assoc*. 1999;89(5):268-9. DOI: 10.7547/87507315-89-5-268.
- Whitman R. A study of the weak foot, with reference to its causes, its diagnosis, and its cure; with an analysis of a thousand cases of so-called flat-foot. *Clin Orthop Relat Res*. 2010;468(4):925-39. DOI: 10.1007/s11999-009-1130-1.
- Madjarevic M, Kolundzic R, Trkulja V, Mirkovic M, Pecina M. Biomechanical analysis of functional adaptation of metatarsal bones in statically deformed feet. *Int Orthop*. 2009;33(1):157-63. DOI: 10.1007/s00264-008-0622-z.
- Caudill A, Flanagan A, Hassani S, Graf A, Bajorunaite R, Harris G, et al. Ankle strength and functional limitations in children and adolescents with type I Osteogenesis Imperfecta. *Pediatr Phys Ther*. 2010;22(3):288-95. DOI: 10.1097/PEP.0b013e3181ea8b8d.
- Theologis T. Lever arm dysfunction in cerebral palsy gait. *J Child Orthop*. 2013;7(5):379-82. DOI: 10.1007/s11832-013-0510-y.
- Martínez Caballero I, Lerma Lara S, Ferullo M, Ramírez Barragán A, Castillo Sanz A. Cirugía multinivel para las alteraciones de la deambulación en parálisis cerebral infantil. Evaluación cuantitativa, funcional y de s. Trauma. 2013;24(4):224-9.
- Graf A, Hassani S, Krzak J, Caudill A, Flanagan A, Bajorunaite R, et al. Gait characteristics and functional assessment of children with type I osteogenesis imperfecta. *J Orthop Res*. 2009;27(9):1182-90. DOI: 10.1002/jor.20871.
- Jafarnejadgero A, Madadi-Shad M, Alavi-Mehr SM, Granacher U. The long-term use of foot orthoses affects walking kinematics and kinetics of children with flexible flat feet: A randomized controlled trial. *PLoS One*. 2018;13(10):e0205187. DOI: 10.1371/journal.pone.0205187.
- Galafate D, Pournajaf S, Condoluci C, Goffredo M, Di Girolamo G, Manzia CM, et al. Bilateral Foot Orthoses Elicit Changes in Gait Kinematics of Adolescents with Down Syndrome with Flatfoot. *Int J Environ Res Public Health*. 2020;17(14):4994. DOI: 10.3390/ijerph17144994.
- Kulcu DG, Yavuzer G, Sarmer S, Ergin S. Immediate effects of silicone insoles on gait pattern in patients with flexible flat foot. *Foot Ankle Int*. 2007;28(10):1053-6. DOI: 10.3113/FAI.2007.1053.
- Kulig K, Reischl SF, Pomrantz AB, Burnfield JM, Mais-Requejo S, Thordarson DB, et al. Nonsurgical management of posterior tibial tendon dysfunction with orthoses and resistive exercise: A randomized controlled trial. *Phys Ther*. 2009;89(1):26-37. DOI: 10.2522/ptj.20070242.
- Kamiya T, Uchiyama E, Watanabe K, Suzuki D, Fujimiya M, Yamashita T. Dynamic effect of the tibialis posterior muscle on the arch of the foot during cyclic axial loading. *Clin Biomech (Bristol, Avon)*. 2012;27(9):962-6. DOI: 10.1016/j.clinbiomech.2012.06.006.
- Lee DR, Choi YE. Effects of a 6-week intrinsic foot muscle exercise program on the functions of intrinsic foot muscle and dynamic balance in patients with chronic ankle instability. *J Exerc Rehabil*. 2019;15(5):709-14. DOI: 10.12965/jer.1938488.244.
- Lynn SK, Padilla RA, Tsang KKW. Differences in Static-and Dynamic-Balance Task Performance After 4 Weeks of Intrinsic-Foot-Muscle Training: The Short-Foot Exercise Versus the Towel-Curl Exercise. *J Sport Rehabil*. 2012;21(4):327-33. DOI: 10.1123/jsr.21.4.327.
- Sussman MD, J. R. Gage, M. H. Schwartz, S. E. Koop, T. F. Novacheck (eds): The identification and treatment of gait problems in cerebral palsy. *J Child Orthop*. 2010;42(2):177-8.