

# Università degli Studi di Padova

CORSO DI LAUREA IN FISIOTERAPIA  
PRESIDENTE: *Ch.ma Prof.ssa Veronica Macchi*

## TESI DI LAUREA

LA PRESA IN CARICO RIABILITATIVA DEL BAMBINO CON DIAGNOSI DI IDIOPATHIC  
TOE WALKING: REVISIONE DELLA LETTERATURA

(Rehabilitation management of children with Idiopathic Toe Walking: a review of literature)

RELATORE: Dott.ssa Ft. Lunardelli Maria Grazia

LAUREANDA: Penna Margherita

Anno Accademico 2021/2022

## INDICE

RIASSUNTO.....	IV
ABSTRACT .....	V
INTRODUZIONE .....	1
CAPITOLO 1: IL TOE WALKING E LE CARATTERISTICHE DEL BAMBINO CON ITW.....	2
1.1.    Il Toe Walking.....	2
1.2.    La diagnosi di Idiopathic Toe Walking (ITW).....	4
1.3.    Prevalenza del cammino in punta idiopatico .....	7
1.4.    Eziologia.....	7
1.4.1.    Accorciamento congenito del tendine calcaneale.....	8
1.4.2.    Predisposizione familiare .....	8
1.4.3.    Complicanze peri- o postnatali .....	9
1.4.4.    Modificazioni a livello muscolare .....	10
1.4.5.    Utilizzo di girelli.....	10
1.4.6.    Alterazione dei processi di integrazione sensoriale.....	10
1.5.    Classificazioni dell’Idiopathic Toe Walking.....	13
1.6.    Le caratteristiche del bambino con cammino in punta idiopatico .....	15
1.6.1.    La postura del piede e le caratteristiche dell’articolazione tibio-tarsica.....	15
1.6.2.    Attività e struttura muscolare, coordinazione ed equilibrio.....	16
1.6.3.    Analisi del cammino.....	17
1.6.4.    Lo sviluppo del linguaggio .....	18
1.7.    Il Toe Walking in età adulta .....	19
1.8.    La conoscenza dell’Idiopathic Toe Walking tra i professionisti sanitari.....	19
1.9.    Il vissuto dei genitori .....	20
CAPITOLO 2: MATERIALI E METODI .....	23
2.1.    Raccolta degli articoli.....	23
2.2.    Selezione degli articoli .....	24
2.3.    Valutazione degli articoli.....	26
CAPITOLO 3: RISULTATI.....	28
3.1.    Valutazione del bambino toe walker .....	28
3.2.    Opzioni di trattamento per il bambino con ITW .....	31
3.3.    Misure di outcome.....	37
CAPITOLO 4: DISCUSSIONE .....	40
4.1.    Valutazione del bambino toe walker .....	40
4.2.    Opzioni di trattamento per il bambino con ITW .....	43
4.3.    Misure di outcome.....	46

4.4. Limiti dello studio e prospettive future .....	47
CAPITOLO 5: CONCLUSIONI .....	48
BIBLIOGRAFIA.....	49
ALLEGATI .....	52

## **RIASSUNTO**

**Introduzione:** Il cammino in punta è un pattern di frequente riscontro tra i bambini durante la fase di acquisizione della deambulazione e viene considerato fisiologico fino all'età di 2-3 anni. La sua persistenza oltre quest'età necessita di ulteriori approfondimenti, essendo un segno della possibile presenza di disturbi neuromuscoloscheletrici e/o neuroevolutivi. Esistono, tuttavia, casi in cui questa modalità di deambulazione non è correlata ad una patologia diagnosticabile, ai quali viene attribuita l'etichetta di "Idiopathic toe walking" (cammino in punta idiopatico), che risulta quindi una diagnosi ad esclusione. Data la particolarità e complessità di tale condizione, non sempre il fisioterapista conosce quali siano gli elementi chiave per la valutazione e il trattamento di questo disturbo.

**Obiettivo:** Data la complessità della condizione, lo scopo di questo elaborato è quello di indagare in letteratura quali siano gli elementi chiave evidence based che possano guidare il fisioterapista nella valutazione e nel trattamento dei bambini Toe Walkers (TW).

**Materiali e metodi:** Al fine di raccogliere gli studi esistenti sull'argomento, da gennaio a giugno 2022 è stata effettuata una ricerca bibliografica nelle banche dati PubMed, Trip Database, Cochrane Library e PEDro. Dopo aver individuato la stringa di ricerca più adatta ed averla inserita nei motori di ricerca, gli articoli risultanti sono stati selezionati tramite l'applicazione dei criteri di inclusione ed esclusione precedentemente individuati e la lettura di titolo, abstract e full text. Sono stati ricavati in totale 18 articoli, poi sottoposti ad una valutazione qualitativa tramite le scale PEDro (studi RCT) e AMSTAR 2 (revisioni sistematiche). Gli articoli inclusi sono stati suddivisi, in base al contenuto, nelle 3 aree di interesse per l'elaborato: strumenti di valutazione, opzioni di trattamento e misure di outcome disponibili per la presa in carico riabilitativa del bambino con idiopathic toe walking (ITW).

**Risultati:** La valutazione del bambino TW deve essere mirata sia alla definizione del grado di severità della condizione sia all'identificazione di segni che indicano la presenza di patologia. Un'adeguata valutazione è poi necessaria al clinico anche per individuare la strategia di intervento ottimale per quel determinato bambino, essendo presenti diverse opzioni per il trattamento dell'ITW, sia conservative (cue verbali, fisioterapia, ortesi, stretching, casting) sia chirurgiche. Nessuna di queste opzioni, tuttavia, risulta migliore delle altre. Le misure di outcome riportate in letteratura riguardano prevalentemente il ROM della tibio-tarsica e l'analisi del cammino.

**Conclusioni:** Data la mancanza di evidenze certe riguardo l'eziologia dell'ITW, risulta complesso individuare quale sia l'approccio riabilitativo più corretto. Gli studi sull'efficacia dei singoli trattamenti e sul confronto tra di essi sono limitati in quantità e qualità, tuttavia dimostrano la possibilità di miglioramento della condizione. Infine, l'approccio a questa condizione deve essere globale, poiché sono numerosi gli aspetti coinvolti oltre a quello muscoloscheletrico, come l'ambito relazionale, cognitivo, comportamentale e percettivo.

## **ABSTRACT**

**Background:** Toe walking, commonly seen in children during the acquisition phase of deambulation, is considered a normal stage in gait development until 2-3 years of age. When it persists over this age, further investigations for underlying neuromusculoskeletal or neurodevelopmental disorders are required; whether toe walking is not related to a pathological condition, the exclusionary diagnosis of Idiopathic toe walking (ITW) is attributed. Given the complexity of this condition, physiotherapists do not always know what the key elements are for the assessment and treatment of this disorder.

**Aim:** The aim of this study is to identify the evidence-based informations that can guide the physical therapist in the assessment and treatment of children who toe walk.

**Materials and Methods:** A bibliographic research has been carried out, from January to June 2022, in the online databases of PubMed, Trip Database, Cochrane Library and PEDro with the aim of gathering the existing studies on the subject. After identifying the search terms, the resulting articles were selected by applying the previously identified inclusion and exclusion criteria and by reading Title, Abstract and Full text. A total of 18 articles were obtained and then assessed using the PEDro and AMSTAR 2 scales. The included articles were grouped into the 3 areas of interest: assessment tools, treatment options and outcome measures available for the rehabilitation care of the child with Idiopathic Toe Walking (ITW).

**Results:** The assessment of toe walkers must be aimed both at defining the degree of severity and at identifying signs that indicate the presence of a pathological condition. Adequate assessment is also necessary for the clinician to identify the optimal intervention strategy for that child, as there are several options for treating ITW, both conservative (verbal cues, physical therapy, orthotics, stretching, casting) and surgical. None of these options, however, is more effective than the others. The outcome measures reported in the studies mainly concern ankle ROM and gait analysis.

**Conclusions:** Given the lack of conclusive evidence regarding the aetiology of ITW, it is complex to identify the most correct rehabilitation approach. Studies on the effectiveness of individual treatments and comparisons between them are limited in number and quality, but they do demonstrate the chance of improving the condition. Finally, a global approach to this disorder must be used, as there are large aspects involved, such as the musculoskeletal, relational, cognitive, behavioural and perceptive ones.

## INTRODUZIONE

Il movimento in generale e, in particolare, il cammino sono delle funzioni fondamentali per l'uomo, sono ciò che gli permette di entrare in relazione con il mondo e, dall'interazione con esso, creare la propria identità sociale. I primi passi di un bambino sono, infatti, sempre attesi con tanta trepidazione dai genitori e vissuti come un momento importante dello sviluppo del proprio figlio. La deambulazione è un meccanismo complesso, in cui entrano in gioco diverse componenti, ognuna delle quali è fondamentale alla sua realizzazione ed efficienza: il sistema muscoloscheletrico, il sistema nervoso centrale e periferico, la coordinazione, lo stato emotivo, il sistema sensoriale e percettivo e la condizione psichica. Un'alterazione del pattern del cammino può quindi essere il risultato di un'anomalia a livello di una o più di queste componenti o dei meccanismi di integrazione di esse.

Il cammino in punta idiopatico è una condizione molto diffusa sia nella popolazione infantile sia negli adolescenti e adulti, e può creare un senso importante di frustrazione nei bambini ma anche nei loro genitori. Ma qual è, dunque, la causa di questa alterazione? Quale delle tante componenti sopracitate è la sede dell'alterazione che determina la modifica del pattern di cammino? Queste sono domande a cui ad oggi non c'è ancora una risposta certa. Tuttavia, la condizione di ITW è di frequente riscontro nella pratica clinica del fisioterapista, dunque è necessario che egli abbia a disposizione, nella propria cassetta degli attrezzi, gli strumenti adatti per la presa in carico riabilitativa del paziente.

Lo scopo di questa tesi è dunque quello di portare alla luce quelle che sono le più recenti evidenze presenti in letteratura riguardo gli strumenti di valutazione, le opzioni di trattamento e le misure di outcome disponibili per la presa in carico riabilitativa del bambino con diagnosi di Idiopathic Toe Walking (ITW). Nella prima sezione dell'elaborato saranno presentate le nozioni generiche utili alla comprensione di questa condizione, in particolare quelle che, dagli studi condotti a riguardo, sono le alterazioni principali nel bambino Toe Walker (TW); dopodichè, saranno indicate le modalità di ricerca e selezione degli articoli utili allo scopo e infine saranno presentati e confrontati i principali risultati ricavati da questi, suddividendoli, in base ai contenuti, nelle aree di valutazione, trattamento e misure di outcome.

## CAPITOLO 1: IL TOE WALKING E LE CARATTERISTICHE DEL BAMBINO CON ITW

### 1.1. Il Toe Walking

Il termine “Toe Walking” definisce un pattern di cammino nel quale è assente o limitato il contatto al suolo con il calcagno (heel strike) durante la fase di appoggio del ciclo del passo [1].

Durante la fase di acquisizione e sviluppo del cammino indipendente i bambini attraversano numerosi stadi: al termine del terzo trimestre di vita cominciano le prime esperienze di carico in stazione eretta con sostegno; durante il quarto trimestre inizialmente il bambino sta in piedi reggendosi ai mobili, dopodiché sviluppa come modalità di spostamento in stazione eretta la marcia costiera, andando poi progressivamente a ridurre gli appoggi fino ad acquisire, solitamente tra i 9 e i 17 mesi, un cammino autonomo. [2] Quest’ultimo è inizialmente caratterizzato da una base d’appoggio allargata e dalla cosiddetta “guardia alta” (arti abdotti e ruotati esternamente a livello della spalla e flessi al gomito), al fine di aumentare la stabilità. La base d’appoggio viene poi progressivamente ridotta, si sviluppa il pendolarismo degli arti superiori e vengono raggiunte le caratteristiche tipiche del cammino. Burnett e colleghi hanno definito “maturo” un cammino in cui la base d’appoggio si mantiene all’interno dei limiti laterali del tronco e gli arti superiori oscillano in modo sincrono rispetto alla fase del passo [2].

Come per le altre caratteristiche, anche l’approccio al terreno di calcagno ha uno sviluppo graduale: inizialmente, infatti, il bambino approccia al suolo di tutta pianta e il piede spesso si presenta flesso plantarmente durante l’ultima fase di swing. Dopodiché, durante questa fase, comincia a manifestarsi l’estensione delle dita del piede e, di conseguenza, occasionalmente l’approccio al suolo avviene di tallone; questo diventa poi sempre più frequente in relazione a un aumento della flessione dorsale dell’articolazione tibio-tarsica durante l’oscillazione dell’arto.

Secondo lo studio di Burnett e colleghi, condotto su una popolazione di 28 bambini sani, il range di età entro il quale si manifesta l’heel strike è compreso tra i 10,8 e i 29 mesi, con una media di 18,5 mesi. Oetgen e Peden [3] affermano che il pattern di spostamento del carico a partire dal tallone (durante l’approccio al terreno) fino alle dita del piede (nella fase di stacco) risulta solidamente sviluppato in media 22,5 settimane dopo l’acquisizione del cammino indipendente, oppure all’età di 24 mesi. Morozova e colleghi [4] riportano come range un’età compresa tra i 24 e i 42 mesi; ancora, Westberry e colleghi indicano come cut off i 5 anni [5], mentre Kalen e colleghi anche fino a 7 anni di età [6].

In letteratura viene più frequentemente definita come “fisiologica” la presenza di un approccio al terreno in punta fino all’età di 2 (o al massimo 3) anni. La sua permanenza oltre quest’età, invece, necessita di ulteriori approfondimenti, essendo il cammino in punta un segno clinico di frequente

riscontro in alcune problematiche muscoloscheletriche, neurologiche e/o neuroevolutive, elencate nella Tabella 1, la quale riporta le condizioni emerse da alcune revisioni della letteratura. [3] [7] [8]

Condizioni muscoloscheletriche	Condizioni neurologiche/neuromuscolari	Altro
<ul style="list-style-type: none"> <li>• Piede equino congenito</li> <li>• Spondilite anchilosante</li> <li>• Eterometria degli arti inferiori congenita, post traumatica o derivante da displasia congenita unilaterale dell'anca / lussazione unilaterale</li> <li>• Cicatrici da incidenti o ustioni</li> <li>• Contrattura / retrazione a livello dei gastrocnemi o del tendine d'Achille</li> <li>• Traumi (es. fratture) a livello della pianta del piede</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Paralisi cerebrale infantile</li> <li>• Charcot-Marie-Tooth / Neuropatia ereditaria sensitivo-motoria di tipo 1A</li> <li>• Neuropatia periferica</li> <li>• Paraplegia spastica ereditaria</li> <li>• Distrofie muscolari</li> <li>• Spina bifida</li> <li>• Tethered Cord Syndrome</li> <li>• Distonia focale transitoria ai muscoli della gamba</li> <li>• Nail patella syndrome</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Sindrome di Angelman</li> <li>• Disturbi dello Spettro Autistico (ASD)</li> <li>• Disturbo dello sviluppo della coordinazione motoria (DCD)</li> <li>• Ritardo globale dello sviluppo</li> <li>• Disturbo da deficit dell'attenzione/iperattività (ADHD)</li> <li>• Punture di insetti</li> <li>• Schizofrenia</li> <li>• Neoplasia all'interno del ventre muscolare dei gastrocnemi</li> <li>• Malformazione venosa a carico dei gastrocnemi</li> <li>• Virus</li> </ul>

Tabella 1 - Condizioni patologiche che causano o sono associate al cammino in punta.

Esistono, infine, dei casi in cui il cammino in punta non risulta essere segno di una condizione patologica diagnosticabile; questi vengono dunque identificati come "Idiopathic Toe Walking" (cammino in punta idiopatico).

Il cammino in punta è per i pediatri, neurologi, podologi e chirurghi ortopedici pediatrici un frequente motivo di richiesta di consulenza, con un'incidenza dell'1% tra le prime visite condotte dagli ortopedici pediatrici [9]. In un centro pediatrico del Texas è stata condotta nel 2018 un'indagine retrospettiva [10] con lo scopo di determinare l'incidenza di un'eziologia neurologica in una popolazione di 174 pazienti che sono stati inviati a consulto alla clinica neurologica da parte di chirurghi ortopedici per la presenza di Toe Walking. Di questi, 66 (38%) sono stati definiti idiopatici a causa della mancanza di segni neurologici; tra i 108 rimanenti (62%), sono state effettuate le seguenti diagnosi:

- Paralisi cerebrale infantile: 40 pazienti, 37%;
- Neuropatia periferica: 18 pazienti, 16,7%;
- Disturbo dello Spettro Autistico: 17 pazienti, 15,7%;
- Paraplegia spastica ereditaria: 15 pazienti, 13,9%;
- Disturbo da deficit di attenzione/iperattività: 9 pazienti, 8,3%;

- Sindromici: 6 pazienti, 5,6%;
- Disturbi a livello del midollo spinale: 3 pazienti, 2,8%.

Sono solitamente i familiari che, di fronte alla comparsa di questo segno clinico (toe walking), dimostrano preoccupazione e decidono quindi di chiedere una consulenza medica in alcuni casi per l'impatto estetico e la differenza rispetto ai coetanei dei propri figli; in altri casi, invece, la stessa preoccupazione può essere accompagnata anche da un dolore riferito dal bambino a livello del piede e/o della caviglia, un aumento della spesa energetica dovuta alla presenza di strategie compensatorie durante la deambulazione, un aumento del numero di cadute e di conseguenza del rischio di traumi e/o un importante stress psicologico per il bambino e/o i familiari. Esistono, però, anche casi in cui questo segno non viene identificato nell'immediato dai caregivers o dalle figure vicine al bambino; essendo tuttavia frequentemente presente un'eziologia neurologica alla base del cammino in punta, si può dedurre come sia importante invece una sua identificazione precoce, allo scopo di indirizzare quanto prima ad una presa in carico medica. Con l'intento di implementare la possibilità di identificazione precoce, Speedtsberg e colleghi [11] hanno sviluppato e poi testato una procedura di screening (QAS – Quasi-Automated Screening Procedure) da applicare a bambini in età prescolare e che fosse di facile utilizzo anche in ampie coorti ma comunque efficace. La procedura comprende tre step che includono: 1) osservazione da parte dei familiari, ai quali è stato sottoposto un questionario a risposta multipla in cui veniva chiesto se il bambino cammina sulle punte dei piedi e, in caso di risposta affermativa, per quanto tempo (in percentuale); 2) analisi di alcuni parametri obiettivi del cammino quali l'approccio al suolo (se di calcagno, a tutta pianta o sulle dita dei piedi), il distacco del tallone (heel lift) e la fase di toe off, ottenuti tramite gait analysis da video; 3) conferma visiva del pattern di deambulazione da parte di ricercatori clinici con esperienza. Dall'analisi dei dati è emerso come ci sia una discrepanza tra quanto riferito dai genitori e la presenza effettiva di un pattern di cammino in punta; questo indica che il disturbo può non essere identificato da subito dai caregivers e quindi come la presenza degli step di screening successivi (2 e 3) sia effettivamente necessaria. Considerati dunque la percentuale finale di riscontro di segni di Toe Walking (5,5%) e la fattibilità in termini di costi e tempistiche di questa procedura di screening, si può affermare che la procedura QAS sia effettivamente utile nell'identificazione precoce di cammino in punta in bambini in età prescolare, allo scopo di facilitare un precoce intervento in termini di diagnosi e trattamento.

## **1.2. La diagnosi di Idiopathic Toe Walking (ITW)**

Il primo articolo che descrisse la condizione dei bambini che camminano in punta senza presentare una causa patologica fu pubblicato da Hall e colleghi nel 1967 [12]; essi definirono questa condizione come un "accorciamento congenito del tendine calcaneale" (congenital short tendo

calcaneus), che sarebbe quindi secondo questa ipotesi la causa dell'alterazione del pattern del cammino. Questa definizione fu poi modificata in "habitual toe walking" (cammino in punta abituale) da Griffin nel 1977 [13] e, infine, il termine "idiopathic toe walking" fu introdotto per la prima volta da Conrad nel 1980 [14].

Il cammino in punta viene considerato "idiopatico" nel momento in cui questo pattern di cammino persiste oltre i limiti di tempo entro cui può essere considerato fisiologico (2 anni) e non viene identificata, dopo un'accurata valutazione, una causa patologica specifica (neurologica, muscoloscheletrica o neuroevolutiva).

Essendo quindi l'idiopathic toe walking una diagnosi ad esclusione, ne consegue l'importanza di eseguire una puntuale e dettagliata valutazione del quadro medico neurologico, muscoloscheletrico e neuroevolutivo. Allo scopo di assistere i professionisti sanitari e/o medici nell'identificare i casi di toe walkers che necessitano di referral ad ulteriori medici specialisti è stato dunque sviluppato nel 2010 da Williams e colleghi un questionario online chiamato *Toe Walking Tool* [15]. Quest'ultimo è composto da una serie di domande chiuse poste in successione; in base alla risposta che viene data a ciascuna, il questionario permette di continuare con la successiva oppure suggerisce al clinico il rinvio ad uno specialista per indagini più approfondite. Questa modalità permette quindi di distinguere un cammino in punta causato da patologie specifiche da un cammino in punta idiopatico. Le domande del questionario sono state individuate sulla base di quattro aree, emerse a loro volta dalla letteratura riguardante il cammino in punta:

- 1) Dati demografici;
- 2) Indicatori di trauma;
- 3) Indicatori di influenze neuromuscolari;
- 4) Indicatori di influenze neurogenetiche.

Question	Theme
Name	Demographics
Date of birth	Demographics
Gender	Demographics
Does the child toe walk	Demographics
Does the child have a condition that you have sought medical assistance for and/or been diagnosed with a condition causing toe walking?	Demographics
Does the child have a diagnosis of autism spectrum disorder?	Neurogenic
Does the child have a diagnosis of cerebral palsy?	Neuromuscular
Does the child have a diagnosis of muscular dystrophy?	Neuromuscular
Does the child's family have a history of muscular dystrophy?	Neuromuscular
Does the child have a diagnosis of global developmental delay?	Neurogenic
When the child was born, was their birth weight over 2500g?	Neuromuscular
When the child was born were they over 37 weeks of gestation?	Neuromuscular
Was the child admitted to special needs nursery/neonatal intensive care after birth?	Neuromuscular
Did the child independently walk prior to 20 months of age?	Neuromuscular/Neurogenic
Does the child have a family member that toe walks with no other medical condition?	Demographic
Does the child toe walk on one foot only?	Traumatic
Is the child toe walking in response to pain?	Traumatic
Did the child previously walk flat footed and only recently start to toe walk?	Traumatic/Neuromuscular
When you ask the child to walk on their heels are they able to?	Traumatic/Neuromuscular
On testing the ankle or hamstring range of motion is there a clonus and/or catch?	Neuromuscular
When asking the child to get up from the floor is there a positive Gower's sign?	Neuromuscular
Is there a normal knee jerk reflex?	Neuromuscular
Is there a normal babinski reflex?	Neuromuscular
a. Are the hip flexors tight for the child's age (Thomas test)?	Neuromuscular
b. Are the hamstrings tight for the child's age (Popliteal Angle)?	Neuromuscular
c. Is the gastrocnemius and soleus tight for the child's age (Lunge Test)?	Neuromuscular
Does the child have more than 2 significant delayed developmental milestones?	Neurogenic
Does the child have limited eye contact, have strict rituals or ritual related behaviors, i.e., lining up toys, rocking or spinning	Neurogenic

Figura 1 - Il *Toe Walking Tool*: domande e ordine di successione.

Vengono utilizzate in totale 28 domande, il cui contenuto e ordine sono presentati nella *Figura 1*. Nello studio sopraindicato è stata di conseguenza valutata l'affidabilità del Toe Walking Tool. Al fine di esaminare il contenuto, il linguaggio e l'ordine delle domande, è stato utilizzato il metodo Delphi, che è stato sottoposto a un totale di 6 professionisti: un neurologo pediatrico, un fisiatra pediatrico, due fisioterapisti di età evolutiva specializzati uno in disturbi neuromuscolari e l'altro in ambito ortopedico, un terapeuta occupazionale e un ortopedico. Questi hanno suggerito l'aggiunta di definizioni, cut off di riferimento e link a video esplicativi per rendere più semplice l'utilizzo di questo strumento e aumentarne la standardizzazione. Una volta reclutati 12 bambini di età compresa tra 4 e 8 anni, sono stati suddivisi in tre gruppi:

- Gruppo 1: bambini che non camminano in punta di piedi;
- Gruppo 2: bambini che camminano in punta a causa di una patologia specifica;
- Gruppo 3: bambini che sono stati precedentemente identificati come "idiopathic toe walkers".

I dati relativi l'anamnesi, la nascita e le tappe dello sviluppo sono stati raccolti tramite un questionario standardizzato rivolto ai genitori. È stato poi filmato il processo di valutazione che comprendeva un esame dell'arto inferiore (lunghezza muscolare di flessori d'anca, ischio-crurali, gastrocnemio e soleo) e un esame neurologico generale; infine, i bambini sono stati registrati mentre camminavano. I video contenevano tutte le informazioni necessarie ai clinici per l'utilizzo del Toe Walking Tool. Dall'analisi dei risultati il dato principale emerso è stato che nell'applicazione delle domande con nessun bambino toe walker con diagnosi specifica si è arrivati al termine del questionario. Ciò implica che le domande sono sufficientemente sensibili nell'identificare i casi che necessitano di rinvio ad uno specialista. Gli autori concludono quindi affermando che il Toe Walking Tool è uno strumento valido ed affidabile nella valutazione dei bambini toe walkers, poiché assiste il clinico nel decidere se sia necessario o meno rinviare il paziente ad altro specialista per degli approfondimenti diagnostici.

Per quanto riguarda i test diagnostici di laboratorio o di imaging utili a differenziare il cammino in punta idiopatico da quello causato da una patologia specifica, in letteratura vengono maggiormente riportati il livello di creatinfosfochinasi (CPK) e la biopsia muscolare in caso di sospetta distrofia muscolare o miopatia. La radiografia al piede e alla caviglia è utile invece per escludere la presenza di deformità/alterazioni a livello osseo. La RMI a livello cerebrale e/o spinale viene maggiormente utilizzata nel caso in cui vengano riscontrati segni neurologici. La Gait Analysis e l'elettromiografia, infine, sono efficaci nella differenziazione tra ITW e paralisi cerebrale.

### **1.3. Prevalenza del cammino in punta idiopatico**

I dati in letteratura riguardo la prevalenza del disturbo sono esigui e non sempre concordi, probabilmente a causa sia del ridotto numero di studi sull'argomento sia della complessità del processo di diagnosi di idiopathic toe walking.

Uno studio condotto da Accardo e colleghi [16] nel 1990 riguardo la relazione tra il cammino in punta e lo sviluppo del linguaggio ha trovato una percentuale di toe walkers senza condizioni patologiche pari al 24% in una coorte di 163 bambini di età compresa tra 0 e 10 anni.

Nel 2011, Engelbert e colleghi [17] hanno riscontrato, all'interno di uno studio condotto su 348 bambini "sani", una prevalenza di ITW associato a riduzione del ROM dell'articolazione tibio-tarsica del 9% (n° 31) e un 3% (n° 9) di bambini con ITW senza limitazione del ROM della caviglia; per un totale, quindi, di un 12% di bambini con cammino in punta idiopatico.

Infine, nel 2012, è stata condotta da Engström e Tedroff [18] un'indagine sulla prevalenza del disturbo tra i bambini svedesi che normalmente, all'età di 5,5 anni, eseguono degli screening medici approfonditi. Dei 1436 bambini esaminati, 30 (2,1%, di cui 20 maschi e 10 femmine) presentavano in quel momento un pattern di cammino in punta. Altri 40 bambini (2,8%), invece, di cui 22 maschi e 18 femmine, sono stati classificati come "toe walkers inattivi" in quanto hanno manifestato in passato un cammino in punta, che tuttavia si è poi interrotto spontaneamente. In totale, quindi, è stata registrata una prevalenza del 4,9% di toe walkers.

Per quanto riguarda la distribuzione del disturbo tra sesso maschile e femminile, si nota dai dati sopracitati dello studio svedese come la frequenza sia maggiore tra i bambini maschi. Lo stesso risultato è stato riscontrato da Pomarino e colleghi [19] in uno studio condotto nel 2016. La coorte presa in esame è composta da un totale di 836 bambini con diagnosi di idiopathic toe walking di età compresa tra 2 e 13 anni ed è stata suddivisa, sulla base dei dati familiari raccolti, in due gruppi: uno composto da bambini con una storia familiare positiva per ITW e l'altro composto da bambini con storia familiare negativa per ITW. In entrambi i gruppi è stata riscontrata una prevalenza nettamente maggiore di maschi: nel primo gruppo i bambini di sesso maschile erano il 69%, nel secondo il 60,7%. Nel totale degli 837 partecipanti, il 64,2% erano maschi, contro un 35,8% di femmine.

### **1.4. Eziologia**

L'eziologia del cammino in punta idiopatico è ancora incerta e tutt'ora ampiamente dibattuta tra gli esperti. Negli anni sono state avanzate numerose ipotesi, tra le quali la presenza di un accorciamento congenito del tendine d'Achille, l'utilizzo di girelli nella prima infanzia, la presenza di un pattern di ereditarietà, eventuali problematiche sopraggiunte durante il parto oppure ancora,

negli ultimi anni, la presenza di un'alterazione dei processi di elaborazione sensoriale. Nessuna di queste, tuttavia, ha trovato un consenso tale da poter essere considerata con certezza la causa.

#### **1.4.1. Accorciamento congenito del tendine calcaneale**

Lo studio di Hall [12] fu tra i primi ad avanzare un'ipotesi riguardo l'eziologia del cammino in punta idiopatico. In un gruppo di 20 bambini tra i 5 e i 10 anni di età che camminavano in punta senza che ci fosse alcuna causa patologica, l'ortopedico e i suoi colleghi hanno riscontrato come unici segni clinici all'esame fisico una rigidità del tendine calcaneale e una deformità in equino della tibio-tarsica di grado compreso tra i 30° e i 60°: questo li ha portati ad affermare che la causa del pattern del cammino fosse un accorciamento congenito del tendine. Anche altri studi [6] [20] hanno riportato come anomalie all'esame fisico solamente il cammino in punta e una riduzione del ROM in dorsiflessione dell'articolazione tibio-tarsica. Tuttavia, sia dallo studio stesso di Hicks [20] sia da altri, è emerso come non tutti i bambini toe walkers presentassero una riduzione dell'articolazione della caviglia; questo implica che non sia sempre presente una retrazione calcaneale strutturata. Inoltre, prendendo in considerazione i risultati di Hall e colleghi, essendo la popolazione in esame di età compresa tra i 5 e i 10 anni, è impossibile stabilire se la contrattura tendinea sia effettivamente congenita oppure secondaria alla persistenza per molti anni di un cammino sulle punte.

#### **1.4.2. Predisposizione familiare**

Nel 1973, Levine [21] per primo descrisse il caso di una famiglia composta da 5 persone, ognuna delle quali presentava una "retrazione congenita del tendine calcaneale"; avendo notato che anche nello studio di Hall [12] vi erano tre esempi di una certa forma di ricorrenza familiare, egli avanza l'ipotesi della presenza di un qualche pattern di ereditarietà della condizione descritta dal collega di retrazione congenita del tendine. Levine presenta quindi il caso di una famiglia composta dai due genitori e tre figli: il secondogenito, di 9 anni, che ha iniziato a camminare a 1 anno e da subito ha presentato un pattern di cammino sulle punte; all'età di 5 anni è stato sottoposto all'intervento chirurgico di allungamento del tendine calcaneale bilateralmente poiché era presente un'importante deformità in equino; l'esame neurologico era nella norma, come anche l'attività muscolare. Il primogenito, di 12 anni, anch'egli come il fratello nato senza complicanze perinatali, ha manifestato dalla prima infanzia il toe walking che lo ha condotto a una riduzione del ROM della caviglia e quindi a un intervento chirurgico a livello dei gastrocnemi bilateralmente; la sua condizione era stata interpretata dai medici come una paralisi cerebrale nonostante l'esame neurologico fosse "fisiologico". Infine, nella storia della sorella di 4 anni, l'unico evento da segnalare è stato l'utilizzo di ingessature per correggere il metatarso addotto bilaterale; all'esame fisico presentava, tuttavia, una

riduzione del ROM in flessione dorsale della caviglia maggiore a sinistra. La madre era in grado di dorsiflettere la tibio-tarsica bilateralmente fino a 30°. Il padre fin da bambino ha dimostrato una difficoltà nella flessione dorsale del piede, presentando infatti all'esame fisico solamente 8° di ROM bilateralmente. La sorella del padre riferisce di avere una certa "rigidità tendinea" a livello di entrambi i piedi. Levine conclude quindi ipotizzando la presenza di un pattern di ereditarietà a carattere prevalentemente autosomico dominante; tuttavia, il fatto che esistano anche dei casi isolati, in cui non è presente una predisposizione all'interno del gruppo dei familiari, induce a pensare che l'eziologia possa essere eterogenea.

Sulla scia di questa nuova ipotesi, Katz e Mubarak [22] hanno indagato, all'interno del loro studio su una coorte di 7 bambini con ITW, la presenza di una storia familiare positiva per il cammino in punta: tutti e 7 i pazienti dimostravano infatti la presenza di una ricorrenza del disturbo all'interno delle due precedenti generazioni di familiari. Essi affermano inoltre che i dati dello studio supportano l'ipotesi di Levine riguardo un pattern di ereditarietà a carattere autosomico dominante (con variabilità di espressione), essendo maggiore la frequenza di presentazione tra i maschi.

Gli studi sopracitati, tuttavia, presentano come limite un esiguo numero di partecipanti. Per questo motivo, nel 2016, Pomarino e colleghi [19] hanno invece indagato una coorte composta da un maggior numero di individui, ovvero 836 toe walkers. Di questi, il 57,9% aveva una storia familiare negativa per ITW, mentre il 42,1% una storia familiare positiva. Tra questi ultimi, per la maggior parte (59,5%) la familiarità proveniva dal ramo paterno, con una differenza significativa rispetto a quelli per i quali la familiarità era materna (differenza del 19%). La tendenza che emerge dai dati dello studio è quella di un passaggio più frequente del cammino in punta tra padre e figlio, piuttosto che tra padre e figlia. Poiché comunque la maggior parte dei componenti del campione non ha riportato una storia familiare positiva, gli autori hanno affermato che, oltre alla presenza di un possibile fattore di ereditarietà a carattere autosomico dominante, probabilmente anche altri fattori contribuiscono all'insorgenza del toe walking.

Infine, i medesimi autori, in un altro studio [23], hanno riscontrato che i bambini con una storia familiare positiva presentavano una condizione più "severa" dai risultati dei test utilizzati come valutazione.

### **1.4.3. Complicanze peri- o postnatali**

I 95 bambini con diagnosi di idiopathic toe walking coinvolti nello studio di Baber e colleghi [24] presentavano più alti tassi di prematurità e di accesso alla terapia intensiva neonatale o a "special care nursery" e in media un minor peso alla nascita rispetto ai dati della storia perinatale della popolazione generale nazionale (Australia). Lo studio ha quindi indicato la presenza di

un'associazione tra cammino in punta idiopatico e complicanze peri- e postnatali che potrebbero aver esposto i neonati a un maggior rischio di insulto a livello neurologico che a sua volta si sarebbe manifestato come toe walking. Il danno potrebbe quindi essere talmente lieve da non poter essere identificato attraverso l'esame neurologico standard.

In uno studio descrittivo [25] condotto su 13 bambini con diagnosi di ITW è stata riportata, inoltre, un'elevata presenza di partecipanti con una storia di esposizione prenatale a sostanze teratogene (alcol, cocaina, crack ed eroina). Tuttavia, questo risultato non è statisticamente rilevante, essendo il campione composto da un numero esiguo di partecipanti.

#### **1.4.4. Modificazioni a livello muscolare**

Eastwood e colleghi [26] ipotizzano come causa del cammino in punta un'alterazione a livello delle fibre muscolari dei gastrocnemi. Infatti, analizzando attraverso biopsia i muscoli gastrocnemio mediale (20 pazienti), vasto laterale (2 pazienti), soleo (1 paziente) o tibiale anteriore (2 pazienti) di una coorte di 25 bambini con diagnosi di ITW, gli autori hanno riscontrato un aumento della proporzione di fibre muscolari di tipo I. In media, queste fibre erano presenti in una percentuale del 63%, mentre normalmente, in soggetti adulti, dovrebbe attenersi intorno al 50%. Tuttavia, anche gli autori stessi sottolineano come non vi sia un parametro di riferimento adeguato, mancando dati in letteratura riguardo la composizione di fibre muscolari nei bambini. Affermano infine che, alla luce dei dati emersi dal loro studio, potrebbe esistere un processo neuropatico alla base della presenza del cammino in punta.

#### **1.4.5. Utilizzo di girelli**

Nel 1999 Engelbert e colleghi [27] hanno affermato che l'utilizzo di girelli per più di 1 ora al giorno andrebbe disincentivato in quanto determina alterazioni a livello muscoloscheletrico quali lo sviluppo di contratture, un aumento del tono muscolare e una postura alterata degli arti inferiori, come ad esempio un aumento della flessione plantare del piede che poi permarrebbe anche nel momento in cui il bambino comincia a fare i primi passi in autonomia.

#### **1.4.6. Alterazione dei processi di integrazione sensoriale**

Mentre in precedenza gli studi sull'eziologia dell'ITW si sono concentrati prevalentemente sulla relazione con la contrattura del tendine achilleo, negli ultimi anni sta sempre più avanzando l'ipotesi della presenza, alla base del toe walking, di un'alterazione a livello dei processi di integrazione sensoriale. Tra i primi ad investigare le differenze a livello sensoriale nei bambini con cammino in punta rispetto a bambini non toe walkers troviamo Montgomery e Gauger nel 1978 [28].

Sulla base dei risultati del loro studio, essi hanno ipotizzato che la disfunzione a livello vestibolare sia il problema primario alla base del cammino in punta, esacerbato dalla possibile presenza di una risposta in difesa agli stimoli tattili. Il bambino toe walker potrebbe infatti sfruttare questo pattern di cammino allo scopo di aumentare gli input somatosensoriali provenienti dalla periferia e diretti poi ai meccanismi di elaborazione vestibolare centrali. L'aumento della stimolazione di questi ultimi contribuirebbe a sostenere un aumento del tono in particolare agli arti inferiori durante il cammino; gli autori hanno infatti riscontrato un'ipotonia generalizzata nei bambini toe walkers. Oltre a ciò, la stimolazione costante dei recettori a livello dell'articolazione tibio-tarsica potrebbe essere utile ai bambini che presentano in aggiunta una reazione di difesa agli stimoli tattili al fine di riequilibrare i due sistemi coinvolti nell'elaborazione sensoriale (denominati dagli autori "*sistema spinotalamico*" e "*sistema lemniscale*", il primo attivato da stimoli periferici che vengono considerati come potenzialmente dannosi, il secondo dalla stimolazione superficiale a livello cutaneo, dai movimenti reciproci tra i segmenti corporei a livello delle articolazioni ed è quindi input-specifico).

Il concetto di "Integrazione Sensoriale" viene definito come "il processo neurobiologico che integra e organizza tutte le sensazioni che provengono sia dal corpo stesso sia dall'ambiente esterno e rendono quindi possibile utilizzare efficacemente il corpo all'interno dell'ambiente" [29]. Questo concetto sviluppato da Jean Ayres è una teoria complessa, che è stata inoltre successivamente rivisitata e inoltre il sistema nervoso è risultato essere ancora più integrato di quanto lei ipotizzasse. Possiamo però spiegare il concetto in termini di sensi primari e secondari. Esistono cinque *sensi primari* che vengono utilizzati dal corpo nell'interfacciarsi con l'ambiente: vista, udito, tatto, olfatto e gusto. I *sensi secondari*, che forniscono informazioni riguardo sia la posizione del corpo rispetto all'ambiente sia la posizione dei segmenti corporei tra di loro (a livello articolare) sia ancora il movimento, sono invece i sistemi vestibolare e propriocettivo. In base alla teoria dell'integrazione sensoriale, l'integrazione tra i sistemi vestibolare, propriocettivo e tattile è ciò che permette il movimento del corpo e permette quindi ai bambini di sviluppare le proprie abilità motorie e cognitive. Nel momento in cui vi è un'alterazione di questi processi viene attribuita la diagnosi di *Disturbo dell'Integrazione Sensoriale* – SID ("Sensory Processing Disorder" – SPD).

Dato l'avanzamento dell'ipotesi eziologica del cammino in punta basata su un'alterazione dei processi di elaborazione sensoriale, Williams e colleghi [8] hanno svolto una review con lo scopo di mettere in luce quanto fino a quel momento fosse emerso in letteratura riguardo la relazione tra toe walking e SPD. I risultati della ricerca evidenziano come il numero di studi presenti in letteratura a questo proposito sia molto esiguo e che questi comunque non forniscono delle prove consistenti riguardo la relazione tra ITW e SPD. Sono presenti, tuttavia, numerosi report di conferenze di esperti, case reports e articoli di opinioni di esperti che sostengono che, alla base del cammino in punta

idiopatico, vi siano comportamenti di evitamento degli stimoli tattili, strategie di aumento delle stimolazioni sensoriali, una scarsa consapevolezza propriocettiva, una disfunzione a livello vestibolare o una difficoltà nella modulazione e integrazione di tutte queste componenti. Gli autori sottolineano infine la necessità di indagare maggiormente, attraverso studi rigorosi dal punto di vista metodologico, i processi sensoriali nei bambini con ITW, poiché questo potrebbe integrare e/o migliorare le modalità di trattamento conservativo più diffuse.

Sulla base del presupposto che i bambini con cammino in punta possano presentare una difficoltà nell'integrazione sensoriale che andrebbe ad alterare gli input derivanti dal cammino e quindi a determinare il pattern in punta di piedi, Williams e colleghi [30] hanno voluto indagare la presenza di differenze tra bambini con ITW e i loro coetanei non-toe walkers per quanto riguarda la soglia di percezione vibratoria. La misurazione di quest'ultima potrebbe essere infatti indice di un'alterazione dei processi di integrazione sensoriale o a livello recettoriale o a livello neurologico e inoltre è una delle misurazioni più significative della capacità di percezione dello stimolo tattile. La soglia di percezione dello stimolo è stata misurata attraverso l'utilizzo di una pedana con un piccolo "bottone" sopra il quale veniva posizionato l'alluce del bambino e che produceva degli stimoli vibratorii istantanei; ai bambini veniva richiesto verbalmente se percepissero qualcosa oppure no. Il campione è stato suddiviso in due gruppi: il primo composto da 30 bambini con diagnosi di ITW, il secondo composto da altrettanti bambini "sani", tutti di età compresa tra i 4 e gli 8 anni. Un importante risultato di questo studio, che mai prima di allora era stato registrato, è stato la differenza dei livelli di percezione tra i due gruppi: il gruppo di bambini con ITW ha infatti dimostrato un livello soglia di percezione minore rispetto al gruppo di bambini "sani", quindi un'ipersensibilità. La stessa ipersensibilità è stata riscontrata anche in bambini con la Sindrome di Asperger [31] e Disturbi dello Spettro Autistico [32]; in questi studi ipotizzavano inoltre che la causa non fosse un'alterazione a livello cellulare ma una risposta provocata a livello neurale. Dati questi presupposti e i risultati dello studio, Williams afferma che i cambiamenti a livello della sensibilità tattile nei bambini con autismo potrebbero essere correlati alla modificazione del pattern del cammino (come detto in precedenza il cammino in punta è ampiamente diffuso all'interno dei Disturbi dello Spettro Autistico) e potrebbero condividere tratti simili a livello dell'integrazione sensoriale che vengono riscontrati nei bambini con ITW. Questi ultimi potrebbero infatti adottare un pattern di cammino in punta per ridurre la completa percezione della pressione e/o dello stimolo tattile a livello della pianta del piede durante il cammino; oppure, in alternativa, potrebbe essere una strategia utilizzata per aumentare la pressione a livello dell'avampiede e riuscire a controllare ed elaborare meglio gli input sensoriali. Questo studio certamente getta le fondamenta per un nuovo approccio all'interpretazione e al trattamento dei bambini con cammino in punta idiopatico, tuttavia saranno necessari ulteriori approfondimenti.

## 1.5. Classificazioni dell'idiopathic toe walking

Due sono i sistemi di classificazione del bambino con cammino in punta idiopatico maggiormente riportati in letteratura:

### 1) Classificazione di Alvarez

Questa classificazione è stata realizzata sulla base dei risultati di uno studio condotto da Alvarez e colleghi nel 2006 [33] e si basa sui dati raccolti con la gait analysis in un campione di 133 bambini di età tra i 4 e i 16 anni con diagnosi certa di cammino in punta idiopatico.

La classificazione determina la severità della condizione di toe walking in base alle caratteristiche dei “rockers” della caviglia. Secondo quanto descritto da Perry [34], infatti, la cinetica della caviglia è suddivisa in tre “rotolamenti” (rockers). Al primo rocker – rotolamento del calcagno – il calcagno appropia al suolo e in successione avviene una flessione plantare della caviglia fino al completo contatto dell'avampiede; in questo momento si assiste a una contrazione eccentrica del tibiale anteriore. Il secondo rocker – rotolamento della caviglia – si sviluppa dal contatto dell'avampiede fino al sollevamento del tallone; la tibio-tarsica si trova in una posizione di relativa flessione dorsale in quanto la tibia e il corpo si muovono gradualmente in avanti e avviene una contrazione eccentrica del tricipite surale. Durante il terzo rocker – rotolamento dell'avampiede –, infine, si verifica la fase di push-off, la caviglia si flette plantarmente e c'è un'azione concentrica dei gastrocnemi e del soleo. Alvarez ha quindi delineato le tre tipologie di cammino in punta in base alla severità della condizione: Tipo 1 (lieve), Tipo 2 (moderato), Tipo 3 (severo). Sono stati quindi selezionati i criteri sulla base dei quali si potessero includere i pazienti nei vari gruppi, ovvero:

- A. La presenza del primo rocker della caviglia: viene considerato presente se l'angolo della tibio-tarsica al momento del contatto iniziale al suolo è maggiore di  $5^\circ$  di flessione plantare con una discesa dell'escursione della caviglia (riduzione della flessione dorsale o aumento della flessione plantare). Entrambe le condizioni devono essere presenti per soddisfare il primo criterio;
- B. La precoce comparsa del terzo rocker: questo criterio viene considerato presente se il terzo rotolamento avviene al 30% del ciclo del passo o prima. In condizioni fisiologiche, infatti, il terzo rocker si verifica almeno al 40% del ciclo del passo;
- C. La presenza di un precoce primo momento di dominanza della caviglia (AM1): questo criterio viene considerato soddisfatto se il rapporto tra il picco del momento dei flessori plantari all'inizio della fase di stance (AM1) e il picco del momento dei flessori plantari nella fase di late stance (AM2) è maggiore di 1, dunque  $AM1 > AM2$  (in condizioni fisiologiche  $AM1 \leq AM2$ ).

In base al fatto che questi criteri siano o meno soddisfatti, i bambini con ITW vengono classificati in lieve, moderato o severo come riportato in *Figura 2*.

Idiopathic toe walking severity classification			
Toe walking severity group	Primary criteria and definitions		
	Presence of first ankle rocker <sup>a</sup>	Presence of early third ankle rocker <sup>b</sup>	Predominant first ankle moment <sup>c</sup>
Type 1	Yes	No	No
Type 2	Yes or No	Yes or No	No
Type 3	No	Yes	Yes

*Figura 2 - Classificazione della severità del cammino in punta idiopatico secondo Alvarez*

Dai risultati dello studio di Alvarez risulta che la classificazione della severità basata sui criteri individuati possa essere affidabile nel distinguere i bambini con idiopathic toe walking e, in seguito a ulteriori studi, potrà diventare una pratica guida alla decisione del miglior trattamento da utilizzare per quel paziente.

## 2) *Classificazione di Pomarino*

Questa classificazione si basa sulle caratteristiche fisiche che vengono riscontrate nei camminatori in punta durante l'esame clinico. Si possono dunque riscontrare tre gruppi con differenti caratteristiche [35]:

- **Tipo 1:** raccoglie i camminatori in punta che presentavano già alla nascita una riduzione della lunghezza del tricipite surale. Si riconoscono per alcune caratteristiche quali: il polpaccio a forma di cuore, la presenza di profonde pieghe nell'area del tendine achilleo e di un deposito adiposo a livello dell'avampiede al di sotto del secondo e terzo metatarso (*Figure 3a, 3b e 3c*). Altre caratteristiche comuni sono il calcagno appuntito, il piede cavo e un accorciamento del muscolo grande adduttore.
- **Tipo 2:** questo gruppo presenta una positività per la predisposizione familiare; all'esame fisico si riscontrano un segno a "V" nell'area del tendine d'Achille e un'ipertrofia dei gastrocnemi (*Figure 4a e 4b*).
- **Tipo 3:** gli appartenenti a questo gruppo solitamente sono in grado di appoggiare il calcagno al suolo durante il cammino e frequentemente tra i 4 e i 5 anni il pattern di cammino sulle punte si risolve spontaneamente; può continuare a presentarsi in alcune situazioni di ansia, paura, stanchezza o stress.



Figura 3a - Polpaccio "a forma di cuore"



Figura 3b - Pieghe a livello del tendine d'Achille



Figura 3c - Rigonfiamento adiposo a livello del secondo e terzo metatarso



Figura 4a - Segno a "V" a livello del tendine d'Achille

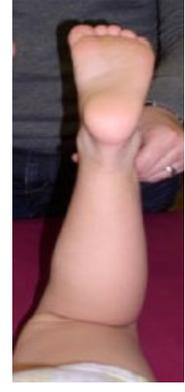


Figura 4b - Ipertrofia dei gastrocnemi (in questo caso del gemello mediale)

## 1.6. Le caratteristiche del bambino con cammino in punta idiopatico

Con lo scopo di fare luce riguardo quale sia la possibile eziologia del cammino in punta idiopatico, su quali siano le caratteristiche che permettono la differenziazione tra “idiopatico” e “patologico” e di conseguenza quale sia il miglior approccio nel trattamento di questo tipo di condizione, sono state indagate in numerosi studi le caratteristiche del cammino, della meccanica dell'articolazione tibio-tarsica e del piede e l'azione muscolare dei bambini con ITW.

### 1.6.1. La postura del piede e le caratteristiche dell'articolazione tibio-tarsica

Non è presente in letteratura un solido consenso riguardo la correlazione tra la presenza di ITW e la riduzione del range di movimento della tibio-tarsica. Per fare un esempio, Shulman [25] riporta che la maggior parte dei toe walkers presenta un normale o lievemente ridotta flessione dorsale della caviglia, mentre Sobel [36] riporta una riduzione severa del ROM ( $-5,2^\circ$ ) nel 46% dei casi.

In una popolazione di 348 bambini, adolescenti e giovani adulti [17], al 12% dei quali è stata attribuita la diagnosi di ITW, è stata riscontrata una percentuale di individui con ITW e riduzione del ROM della caviglia pari al 9%. Solamente nel 3% dei casi totali era presente la diagnosi di ITW senza che ci fosse una riduzione del ROM. Ne risulta quindi che gli individui con diagnosi di cammino in punta idiopatico hanno una possibilità 3,2 volte maggiore di presentare una limitazione alla tibio-tarsica rispetto ad individui “sani”. Nello stesso studio si è voluto indagare anche l'eventuale presenza di limitazioni nel range di movimento complessivo di altri distretti (spalla, gomito, polso, anca, ginocchio) e di alterazioni a livello di densità minerale dell'osso e/o della forza muscolare complessiva – attraverso la misurazione della massima forza muscolare isometrica applicata in modo volontario dei muscoli abduttori di spalla, flessori d'anca, flessori dorsali di caviglia e forza di presa bilateralmente –. I pazienti con ITW e limitazione del ROM della tibio-tarsica hanno mostrato,

rispetto al resto della popolazione in esame, una riduzione del ROM complessivo anche in altre articolazioni, mentre non sono state riscontrate differenze per quanto riguarda la densità ossea e la forza muscolare complessiva. Questi risultati inducono a considerare che il cammino in punta e la riduzione del ROM e la rigidità a livello della tibio-tarsica siano espressione di una problematica locale più che di una rigidità globale ad eziologia sistemica.

Dal confronto della postura del piede tra un gruppo di bambini con ITW e un gruppo di bambini non TW [1], è emerso come i primi presentino una riduzione del range di flessione dorsale della tibio-tarsica (stimata attraverso la misurazione dei gradi articolari sotto carico in posizione di affondo frontale, sia a ginocchio flesso sia a ginocchio esteso), ma, rispetto ai coetanei “sani”, non vi sono differenze per quanto riguarda la postura del piede. Quest’ultima è stata analizzata utilizzando la versione a 6 items del *Foot Posture Index* (FPI-6), per il quale la somma del punteggio ottenuto (che può variare da -12 a +12) individua la postura del piede: un FPI-6 negativo indica un piede supinato; un FPI-6 positivo indica un piede pronato; infine, un FPI-6 pari a 0 un piede “neutro”. La media dei punteggi al FPI-6 ottenuta dai bambini toe walkers era comunque relativamente maggiore, con un trend verso una postura in pronazione del piede, tuttavia la differenza non era tale da poter essere considerata statisticamente rilevante. Altri studi riportano invece che la pronazione del piede, spesso associata ad abduzione, è la più frequente forma di compenso nel caso in cui sia presente una deformità in equino del piede; in bambini con una storia di cammino in punta che perdura da anni è stata riscontrata anche una rotazione esterna della tibia. [20] [37]

È da considerare che la rigidità a carico dei muscoli gastrocnemio e soleo e del tendine d’Achille si sviluppa nel tempo, a causa della persistenza del pattern di cammino in punta, che può risultare nella strutturazione di una deformità del piede in equino [38]. Inoltre, i bambini che camminano in punta in modo intermittente presentano un maggiore PROM in dorsiflessione rispetto a coloro che camminano esclusivamente in punta [36].

### **1.6.2. Attività e struttura muscolare, coordinazione ed equilibrio**

Partendo dal presupposto che l’utilizzo abituale del gastrocnemio, da parte dei bambini con ITW, a un angolo di flessione plantare maggiore e quindi a una lunghezza minore dell’unità muscolo-tendinea rispetto ai bambini non toe walkers comporta un rimodellamento dell’architettura della struttura muscolo-tendinea, è stato condotto nel 2021 uno studio [39] con lo scopo di valutare l’architettura e le proprietà di allungamento del muscolo gastrocnemio e del tendine d’Achille in bambini con ITW e confrontare i dati con le stesse misurazioni effettuate su bambini “a sviluppo tipico”. Contrariamente all’ipotesi iniziale, nonostante l’unità muscolo-tendinea lavori a lunghezze minori rispetto al fisiologico, i risultati hanno dimostrato che nei bambini con ITW, rispetto ai

controlli, il ventre muscolare e la fascia del gastrocnemio mediale hanno una lunghezza maggiore, mentre il tendine d'Achille risulta accorciato. Gli autori hanno interpretato questo risultato affermando che, poiché il tendine è accorciato e dunque presumibilmente più rigido, nel momento in cui viene applicata una forza in allungamento del complesso muscolo-tendineo, la struttura che maggiormente ne risente è quella che oppone meno resistenza, dunque il ventre muscolare. La maggior parte dei trattamenti del cammino in punta idiopatico, infatti, consiste nello stretching del tricipite surale in modo aspecifico; di conseguenza, è più probabile che sia il muscolo la struttura a risentire maggiormente dell'allungamento. Questi risultati aprono un nuovo possibile percorso nel trattamento del cammino in punta, anche se saranno necessari ulteriori studi.

De Oliveira e colleghi [40] hanno registrato, nei bambini toe walkers, un deficit di forza muscolare pari al 18% per quanto riguarda il muscolo tricipite surale e al 25% per il tibiale anteriore, in confronto ai coetanei non TW. Considerando che una riduzione del 15% della forza dei due muscoli sopracitati può condurre ad un aumento dell'attività neuromuscolare necessaria a mantenere un pattern normale del cammino [41] e che nei bambini con PCI l'aumento dell'attività neuromuscolare che risulta dalla ridotta forza del tricipite surale può causare un'attivazione precoce dello stesso, producendo così un pattern di cammino in punta [42], anche nei bambini con ITW e ridotta forza del tricipite possiamo ipotizzare questo conduca al cammino in punta. Quest'ultimo è inoltre implementato dalla riduzione della forza del tricipite surale. La riduzione del ROM della tibio-tarsica che viene anche riscontrata da De Oliveira può contribuire a creare un disequilibrio nel rapporto tensione-lunghezza dei due muscoli considerati e quindi un'ulteriore riduzione della forza degli stessi. Nello stesso studio viene riportata nei bambini con ITW una riduzione sia dell'equilibrio sia della coordinazione motoria, probabilmente collegata alla riduzione del ROM della caviglia e della forza muscolare. Alla luce di ciò, gli autori propongono come modalità di intervento per questa condizione il rinforzo dei muscoli tibiale anteriore e tricipite surale utilizzando bande elastiche e carichi progressivi con i bambini più grandi; con quelli più piccoli si potranno utilizzare attività di gioco che coinvolgano l'equilibrio, il salto e lo squat.

### **1.6.3. Analisi del cammino**

Attraverso l'utilizzo della gait analysis è emerso che:

- Nel confronto tra il cammino abituale dei bambini con ITW e il cammino di bambini non TW, i primi presentano una riduzione della lunghezza del passo e della cadenza e dunque una riduzione della velocità del cammino. Non vi sono differenze nella cinematica del ginocchio, mentre per quanto riguarda la caviglia nella fase di stance si assiste a un'assenza del primo rocker (nell'80% dei casi), un'inversione o riduzione del secondo rocker (nel 67% dei casi) e

un aumento della flessione plantare durante il terzo; l'oscillazione è caratterizzata da un aumento della flessione plantare sia nella fase iniziale sia in quella finale. La cinetica della caviglia presenta invece un'assenza del momento dei flessori dorsali in fase di contatto iniziale e un aumentato momento in flessione plantare in mid stance, seguito da una riduzione dello stesso nella fase finale dello stance [5].

- Alla richiesta ai bambini con ITW di “camminare normalmente”, considerando sia la fase di stance sia quella di swing, il 17% dei partecipanti è stato in grado di normalizzare tutti i parametri. Nel 70% dei casi si è ottenuto un risultato “misto” (solamente alcuni parametri venivano normalizzati), mentre il restante 13% non è stato in grado di normalizzare alcun parametro [5]. Nonostante alcuni bambini riescano a modificare il pattern di cammino approcciando al suolo con il calcagno, questo è nella maggior parte dei casi solo temporaneo [43].
- L'atteggiamento globale dell'arto inferiore è caratterizzato da un aumento sia della rotazione esterna di tibia e anca sia del tilt pelvico anteriore. In fase di carico è stato riportato anche un atteggiamento in iperestensione del ginocchio [44] [38].

Per quanto riguarda l'attività muscolare durante il cammino, analizzata tramite i dati dell'EMG, è stata registrata una co-contrazione dei muscoli gastrocnemio e tibiale anteriore, contrariamente a quanto dovrebbe succedere. Vi è sia un'attivazione precoce del gastrocnemio durante le fasi di stance e swing sia una riduzione dell'intensità di attivazione del tibiale anteriore [13].

#### **1.6.4. Lo sviluppo del linguaggio**

Accardo e Whitman [45], in una popolazione di bambini con probabili disturbi dello sviluppo, hanno notato come una maggiore frequenza del cammino in punta fosse correlata a un aumento della severità dei disturbi del linguaggio. In generale, inoltre, vengono riportati punteggi minori nella valutazione del linguaggio in bambini che camminano in punta rispetto ai bambini non toe walkers [16]. Nello studio di Lisa Shulman [25] il 77% dei partecipanti toe walkers mostrava un ritardo nella comprensione e/o nella produzione. In letteratura vari sono i disordini dello sviluppo riportati in associazione al cammino in punta, quali difficoltà dell'apprendimento, problemi nella scrittura e nella lettura e impairment visuo-percettivi. Questo, assieme ad altri dati, dimostra come il coinvolgimento di diverse figure professionali possa essere la modalità adatta per la presa in carico del bambino con ITW, come suggerito dalla Shulman stessa.

### **1.7. Il Toe Walking in età adulta**

È stato visto che già all'età di 10 anni il 79% dei bambini che a 5,5 anni erano stati classificati come idiopathic toe walkers ha spontaneamente abbandonato questo pattern di cammino [46]. Tuttavia, come detto precedentemente, la persistenza per diversi anni del toe walking, può portare ad un aumento della rigidità a livello muscolo-tendineo del tricipite surale. La riduzione del ROM in flessione dorsale che ne consegue è stata correlata alla presenza in età adulta di disturbi quali fascite plantare, tendinopatia achillea, piede piatto sintomatico, disfunzione del tibiale posteriore, sovraccarico dell'avampiede e ulcere da pressione in piedi diabetici [47]. Sebbene il cammino in punta negli adulti, quando presente, non sia in ogni caso severo quanto quello riscontrabile in età pediatrica, e la letteratura riporti un elevato numero di recessi spontanei già da bambini, ciò non vuol dire che il cammino in punta idiopatico non debba essere trattato [48]. Oltre al disagio che può portare, sia per i familiari sia per i bambini stessi, il TW è correlato a numerose problematiche, tra cui anche un aumento del rischio di caduta e della possibilità di traumi a livello del piede.

### **1.8. La conoscenza dell'Idiopathic Toe Walking tra i professionisti sanitari**

Considerando l'eterogeneità di presentazione della condizione di idiopathic toe walking e i numerosi interrogativi ancora privi di risposta riguardo l'eziologia, non è incoerente pensare che possano esserci, da parte dei professionisti sanitari, una scarsa conoscenza approfondita sia delle caratteristiche del disturbo in sé sia delle possibilità di trattamento a disposizione e dunque una difficoltà di scelta del miglior approccio evidence-based.

A tal proposito, di recente, Cylie e colleghi [49] hanno condotto uno studio con l'intento di indagare la familiarità dei sanitari nei confronti della presa in carico del bambino con cammino in punta idiopatico, e di confrontare inoltre le preferenze dei professionisti riguardo le modalità di trattamento con il loro grado di supporto da parte della letteratura. L'indagine utilizzata a tal scopo, che comprende una prima sezione di dati demografici, è stata sottoposta a pediatri, chirurghi ortopedici, neurologi, fisioterapisti e podologi di diversi Paesi (Australia, Nuova Zelanda, Inghilterra e Stati Uniti). A questi veniva richiesto di indicare il loro numero di pazienti pediatriche nell'arco di una settimana e quanti di questi avessero una diagnosi di ITW. Dopodiché, ai professionisti veniva chiesto di selezionare, in ordine di preferenza e da una lista individuata dagli autori sulla base della letteratura, i cinque trattamenti che sono soliti utilizzare in questi casi o quelli che utilizzerebbero maggiormente. È stata in precedenza condotta dagli autori una ricerca in letteratura delle evidenze a supporto delle opzioni di trattamento, che sono state quindi suddivise in "Yes" se presente un livello I o II di evidenza, "Unsure" se incerto e "No" se supportate solamente da reports degli autori.

Dai risultati dell'indagine emerge che:

- Le strategie di intervento maggiormente impiegate nel trattamento del ITW sono:
  - Stretching: 83% dei partecipanti, la maggior parte dei quali sono fisioterapisti;
  - Strategie di controllo motorio: 76%
  - Utilizzo di rimandi verbali: 72%.

Nessuna di queste opzioni è supportata da un livello di evidenza I o II (gruppi “Unsure” e “No”); esiste dunque una discrepanza tra la pratica clinica e i risultati degli studi presenti in letteratura. Viene evidenziato, inoltre, come le preferenze di trattamento siano influenzate sia dalle esperienze personali precedenti sia dall’ambiente lavorativo del clinico.

- Secondo il parere dei professionisti, la scarsa presenza di evidenze riguardo l’efficacia delle strategie di presa in carico del bambino con cammino in punta idiopatico non deve diventare per il clinico motivo di arresa, poiché, soprattutto in condizioni multifattoriali come quella dell’ITW, la pratica clinica deve sempre tener conto in primis della strategia che maggiormente si adatta al singolo caso.
- Nonostante non ci sia un forte consenso sulla miglior pratica clinica, il trattamento, qualunque esso sia, viene preferito dai genitori rispetto all’approccio del “watch and wait”.
- I maggiori ostacoli riscontrati dai sanitari sono:
  - L’elevato numero e l’eterogeneità delle modalità di presentazione dell’ITW;
  - La difficoltà nel fornire la migliore strategia di intervento – a causa della mancanza anche di risultati a lungo termine – e nel condividere il percorso con i familiari.

In conclusione, non essendoci un solido accordo neppure in letteratura, risulta complicato per i professionisti sanitari fornire ai caregivers una chiara spiegazione delle motivazioni, della condizione in sé e della sua evoluzione; questo influisce chiaramente anche sulla possibilità di creare una buona compliance con i familiari e quindi sull’efficacia del trattamento. La strategia maggiormente utilizzata è quella di ricercare quale sia il migliore approccio per la presa in carico del singolo bambino, in base alle sue caratteristiche personali e alle preferenze/necessità dei caregivers.

### **1.9. Il vissuto dei genitori**

Nell’ambito dell’età evolutiva in particolare, è di fondamentale importanza considerare e coinvolgere i genitori/caregivers in ogni passo del percorso di riabilitazione. Soprattutto in una condizione come quella dell’ITW, caratterizzata da un’ampia gamma di possibilità di trattamento, è comprensibile come i genitori possano trovarsi in difficoltà nel comprendere la diagnosi di cammino in punta idiopatico, la sua evoluzione e il motivo per cui loro figlio riceva un trattamento piuttosto che un altro. Si è visto, inoltre, come la conoscenza da parte dei familiari della diagnosi e degli outcomes di trattamento porti a una maggiore partecipazione e compliance nel raggiungimento degli

obiettivi condivisi, oltre che ad una maggiore aderenza ai programmi di esercizi domestici. Alla luce di queste considerazioni, Cylie e colleghi [50] hanno condotto uno studio, attraverso un'intervista semistrutturata, con lo scopo di indagare quale sia il vissuto dei familiari (in Australia e USA) durante il percorso di diagnosi, valutazione e trattamento dei loro bambini con diagnosi di idiopathic toe walking oltre che di evidenziare le eventuali differenze tra i sistemi sanitari dei due Paesi.

Dall'analisi delle interviste sono emersi i 3 seguenti macro-argomenti di discussione:

- 1) *“In sella alle montagne russe della diagnosi”*: alcuni partecipanti hanno descritto il percorso che li ha portati alla diagnosi come delle montagne russe che hanno alti e bassi, a causa della complessità di presentazione clinica del cammino in punta idiopatico e della varietà di trattamenti. Inoltre, molti genitori hanno affermato di aver ricevuto informazioni tra loro contrastanti da differenti professionisti sanitari e in molti casi la mancanza di consapevolezza da parte dei clinici ha portato a un ritardo della diagnosi e quindi del trattamento, cosa che può aver influenzato poi i risultati a lungo termine. Viene messa in luce anche l'importanza del fatto che le informazioni da parte dei clinici riguardo la diagnosi e la presa in carico devono essere espresse in modo chiaro e comprensibile dai genitori, affinché essi possano diventare parte attiva del processo decisionale sulle cure dei propri figli.
- 2) *“Navigare le opzioni di trattamento”*: dalle esperienze dei genitori riguardo la presentazione e la scelta della modalità di trattamento è emerso che:
  - I genitori sono consapevoli del fatto che non ci sia un'unica opzione di trattamento e che le evidenze sull'efficacia siano scarse; tuttavia, in molti casi non è stata presentata loro tutta la gamma di possibilità di presa in carico, ma anzi la decisione è stata presa dal professionista in base alle proprie preferenze e senza condividere il ragionamento clinico che lo avesse portato a quella scelta.
  - La mancanza di condivisione da parte dei professionisti di obiettivi intermedi e a lungo termine influisce sulla compliance e l'aderenza al trattamento da parte dei familiari, che sarebbero al contrario maggiormente rassicurati di aver preso la giusta decisione.
  - Poiché i genitori comprendono che sia necessario avere un approccio olistico nell'affrontare la condizione di idiopathic toe walking, si sentono frustrati quando questo non viene attuato dai sanitari, che oltretutto non sempre considerano anche la praticità delle opzioni di trattamento. È importante, infatti, che la modalità di trattamento scelta non influenzi in modo negativo la quotidianità di tutta la famiglia e di conseguenza anche l'aderenza al piano di cura.
- 3) *“Supportare i genitori durante il percorso”*: comunemente i genitori riferiscono di non essere stati sufficientemente supportati durante il percorso di cura del figlio con diagnosi di ITW. Questo ha avuto come conseguenze il fatto di dover ricercare da sé le informazioni riguardo le

caratteristiche di questa condizione, imbattendosi di frequente in fonti non accurate. Ancora una volta viene inoltre sottolineata l'importanza di una spiegazione chiara degli outcomes e degli obiettivi: innanzitutto il fatto di non sapere cosa aspettarsi spesso comporta un senso di preoccupazione da parte dei genitori, oltre che in alcuni casi un senso di colpa per la paura di non aver fatto abbastanza; inoltre, la discrepanza tra le aspettative di risultato di un determinato trattamento e quanto effettivamente ottenuto, soprattutto nel caso di interventi chirurgici, ha un consistente impatto a livello emotivo sia per il bambino sia per i genitori. È dunque fondamentale che i clinici siano chiari e onesti nella comunicazione, al fine di fornire ai familiari le corrette informazioni e di non creare false aspettative. In ultimo molti genitori riferiscono di aver ottenuto beneficio dalla partecipazione a gruppi di supporto e/o dalla condivisione di esperienze con altri genitori che si trovano nella medesima situazione.

Dalle esperienze dei genitori comprendiamo dunque come sia difficile per loro affrontare il percorso di cura dei propri figli, in particolare in una condizione come quella dell'idiopathic toe walking su cui poche sono le evidenze in letteratura. Da qui l'importanza di una comunicazione chiara ed esaustiva delle sue caratteristiche, delle opzioni di trattamento, del decorso, oltre che di una condivisione di obiettivi raggiungibili e quantificabili e delle loro tempistiche con i familiari. Questo ha lo scopo di coinvolgere attivamente i genitori in tutte le fasi del percorso, in modo tale che ci siano una maggiore aderenza e partecipazione al trattamento; tutto ciò contribuisce ad ottenere il miglior risultato possibile dal percorso di cura.

## CAPITOLO 2: MATERIALI E METODI

### 2.1. Raccolta degli articoli

Durante il periodo compreso tra gennaio 2022 e luglio 2022 è stata condotta una ricerca bibliografica all'interno delle banche dati di riferimento della letteratura scientifica: PubMed, PEDro, Trip Database e Cochrane Library.

Sulla base dell'obiettivo di questo studio sono state precedentemente individuate le tre macro-aree di indagine sulla base delle quali condurre poi la ricerca bibliografica, ovvero:

- 1) *Valutazione del bambino Toe walker*: quali sono gli elementi che possono aiutare il fisioterapista nel ragionamento clinico e nell'esame obiettivo di un bambino che si presenta come toe walker al fine di indirizzare correttamente il proprio intervento e di riconoscere i casi che necessitano di referral;
- 2) *Opzioni di trattamento*: quali sono le principali opzioni a disposizione per il trattamento del bambino con diagnosi di idiopathic toe walking e quali sono le evidenze a supporto di queste;
- 3) *Misure di outcome*: quali sono i mezzi a disposizione per la valutazione dell'efficacia dell'intervento terapeutico.

Allo scopo di individuare gli articoli utili sono state identificate le parole chiave per la ricerca, suddividendole inizialmente in tre aree secondo il modello PICO ma escludendo la voce "comparison/control" in quanto non pertinente all'obiettivo dello studio. Sulla base del modello PICO e delle tre macro-aree precedentemente citate risulta quindi la suddivisione delle keywords secondo la *Tabella 2* sotto riportata:

POPOLAZIONE	toe walk*; idiopathic toe walking; ITW
INTERVENTO	1) assessment; differential diagnosis; 2) treatment; rehabilitation; conservative management; physical therapy; exercise therapy
OUTCOME	3) recurrence; long term outcomes; outcome measure; assessment scale; clinical change

*Tabella 2 - Keywords utilizzate per la ricerca nelle banche dati*

Le keywords sono state dunque combinate con gli operatori booleani AND e OR per realizzare la stringa di ricerca qui di seguito, adattata poi per ciascun database utilizzato:

*(idiopathic toe walking OR ITW) AND ((assessment OR differential diagnosis OR physical examination) OR (treatment OR rehabilitation OR conservative management OR physical therapy OR exercise therapy) OR (recurrence OR long term outcomes OR outcome measure OR assessment scale OR clinical change))*

L'utilizzo della stringa di ricerca ha dato come risultato un totale di 434 articoli così suddivisi:

- PubMed: 193 articoli;
- Trip Database: 181 articoli;
- Cochrane Library: 30 articoli;
- PEDro: 30 articoli.

## 2.2. Selezione degli articoli

Gli articoli ottenuti sono stati poi selezionati in base ai criteri di inclusione ed esclusione riportati nella *Tabella 3*:

CRITERI DI INCLUSIONE	CRITERI DI ESCLUSIONE
<ul style="list-style-type: none"><li>• Data di pubblicazione: ultimi 10 anni (2012-2022);</li><li>• Lingua di pubblicazione: italiano, inglese;</li><li>• Tipologia di articoli: trial clinici, reviews, pareri degli esperti;</li><li>• Popolazione: bambini con diagnosi certa di idiopathic toe walking;</li><li>• Articoli che indagano e/o riportano risultati pertinenti alle 3 aree di indagine prese in considerazione: valutazione, trattamento e misure di outcome.</li></ul>	<ul style="list-style-type: none"><li>• Studi in cui vengono presi in esame esclusivamente pazienti con cammino in punta causato da patologie specifiche.</li></ul>

*Tabella 3 - Criteri di inclusione ed esclusione degli articoli*

Sono stati inizialmente inseriti i seguenti filtri:

- Data di pubblicazione: ultimi 10 anni;
- Specie: Humans;
- Lingua: English.

Dall'applicazione dei filtri sono stati esclusi 161 articoli, per un totale di 273 rimanenti, così suddivisi:

- PubMed: 88 articoli;
- Trip Database: 157 articoli;
- Cochrane Library: 16 articoli;
- PEDro: 12 articoli.

La Flow Chart riportata nella *Figura 5* rappresenta il processo di selezione degli articoli.

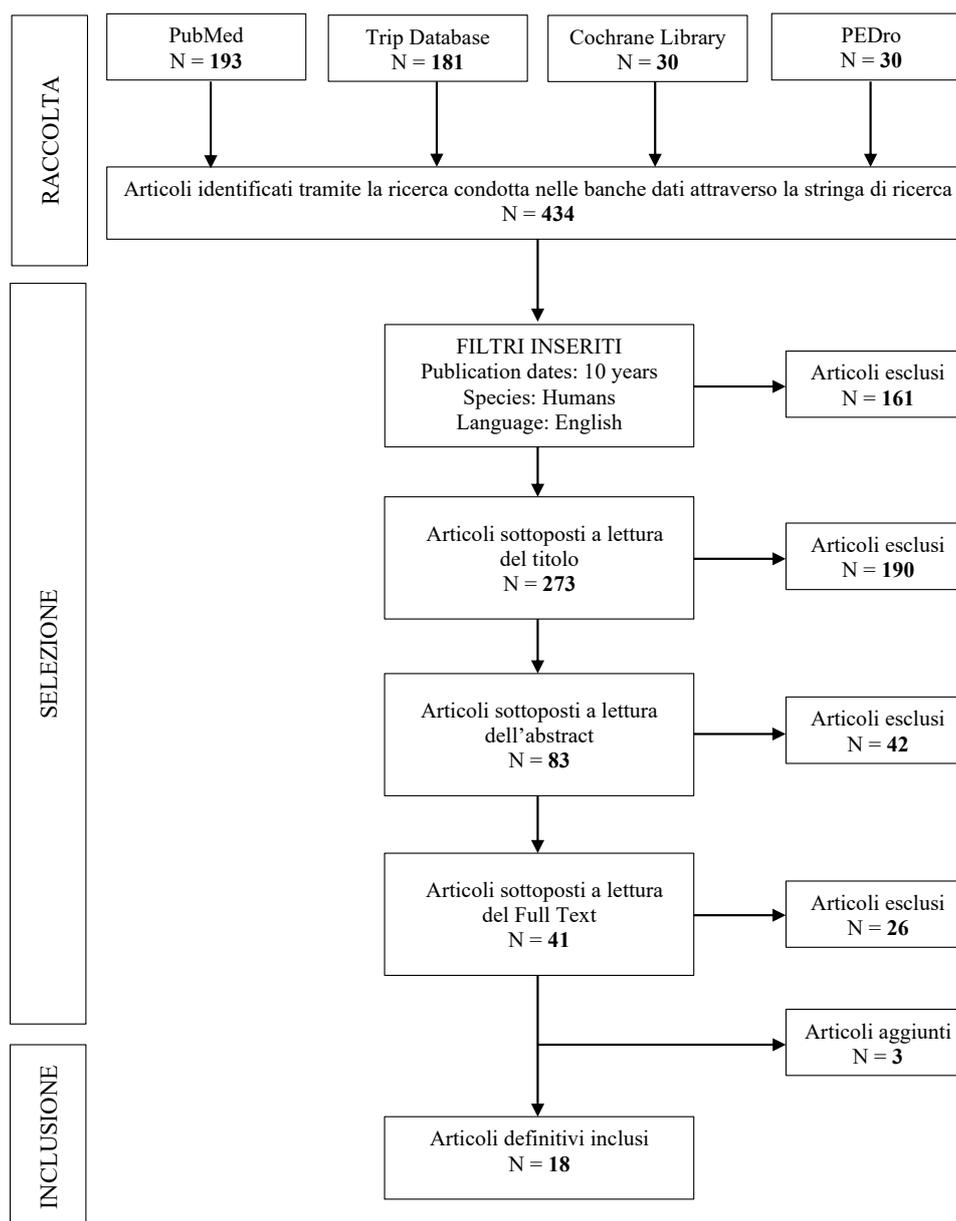


Figura 5 - Flow chart: il processo di selezione degli articoli.

Come descritto nella Flow chart, al termine della selezione degli articoli provenienti dalla ricerca condotta nelle banche dati, sono stati aggiunti altri 3 articoli, ricavati dalla bibliografia degli studi sottoposti a lettura del Full Text, dopo aver verificato la loro adesione ai criteri di inclusione ed esclusione.

Come esplicitato in precedenza, le tre macro-aree di ricerca sono state poi utilizzate per suddividere gli articoli in base al loro contenuto:

- 1) *Valutazione del bambino toe walker*: 5 articoli totali, 1 dei quali [51] si riferisce alle informazioni più utili da raccogliere durante la valutazione del bambino con ITW; 2 [52] [10] evidenziano le caratteristiche utili a individuare una possibile presenza di problematiche

neurologiche; infine, altri 2 [53] [54] individuano i sintomi neuropsichiatrici e le alterazioni dell'integrazione sensoriale associati al cammino in punta e dunque la loro modalità di valutazione;

- 2) *Opzioni di trattamento*: in totale 8 articoli. 3 di questi riportano i risultati del trattamento conservativo in generale, in due [55] [56] dei quali paragonandoli a quelli del trattamento chirurgico, mentre nel terzo [57] si riferiscono ai risultati nel lungo termine. Altri 3 articoli [58] [59] [60] riguardano il trattamento attraverso l'utilizzo di ortesi/solette. Un articolo [61] indaga l'efficacia dell'utilizzo della tossina botulinica; infine, il rimanente articolo è una revisione dei vari trattamenti [35].
- 3) *Misure di outcome*: 4 articoli totali [23] [62] [63] [64] che indicano le misure di outcome maggiormente utilizzate nella valutazione dell'efficacia del trattamento del cammino in punta idiopatico.

L'ultimo articolo [65] verrà utilizzato nei risultati e nella discussione sia per quanto riguarda la valutazione (punto 1) sia per il trattamento (punto 2).

Il design di studio degli articoli inclusi nella revisione sono riportati in *Figura 6*.



*Figura 6 - Tipologia di disegno degli studi inclusi*

### 2.3. Valutazione degli articoli

Gli articoli inclusi nella revisione sono stati infine sottoposti ad una valutazione qualitativa tramite le scale PEDro (*Allegato 2*) per gli studi RCT e AMSTAR 2 (*Allegato 3*) per le revisioni sistematiche. Nella *Tabella 4* sono riportati i punteggi per i singoli items e il totale derivanti dall'applicazione della scala PEDro; nella *Tabella 5*, invece, la valutazione degli items della scala AMSTAR 2.

	Criteri scala PEDro											TOTALE
	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	
<b>Herrin K. et al. (2015)</b>	Sì	Sì (1)	No	Sì (1)	No	No	No	Sì (1)	Sì (1)	Sì (1)	Sì (1)	6/10
<b>Engström P. et al. (2013)</b>	Sì	Sì (1)	Sì (1)	Sì (1)	No	No	Sì (1)	Sì (1)	Sì (1)	Sì (1)	Sì (1)	8/10

Tabella 4 - Valutazione degli studi RCT inclusi con la scala PEDro.

	Items scala AMSTAR 2															
	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12	13	14	15	16
<b>Schlough K. et al. (2020)</b>	Sì	No	No	No	Sì	No	No	X	No	No	X	X	No	Sì	X	No
<b>Van Kuijk A.A. et al. (2014)</b>	Sì	No	Sì	Y	Sì	No	No	Sì	No	No	X	X	No	Sì	X	No
<b>Van Bommel A.F. et al. (2014)</b>	Sì	No	No	Y	No	No	No	Sì	No	No	X	X	No	Sì	X	Sì
<b>Caserta A. et al. (2019)</b>	Sì	Sì	No	Y	Sì	Sì	No	Y	No	No	X	X	No	Sì	X	Sì
NOTE: X = non è stata condotta una meta-analisi Y = sì, in parte																

Tabella 5 - Valutazione delle revisioni sistematiche incluse con la scala AMSTAR 2.

I contenuti degli articoli verranno riportati nel capitolo seguente (“Risultati”) e le caratteristiche principali degli stessi in tabelle riassuntive (*Allegati 3A, 3B e 3C*).

## CAPITOLO 3: RISULTATI

In questa sezione verranno esposti i principali risultati degli articoli che sono stati inclusi nella revisione, divisi per le 3 aree indicate nel capitolo “Materiali e metodi”.

### 3.1. Valutazione del bambino toe walker

Nel primo studio [51] preso in analisi, dopo un'introduzione sulle caratteristiche generali dell'ITW, Sivaramakrishnan e Seal affermano che il focus della valutazione del toe walking deve essere quello di stabilire il grado del problema e contemporaneamente determinarne l'eziologia per un eventuale referral e per indirizzare correttamente il trattamento. Gli aspetti della storia della prima infanzia di cui è importante ricavare informazioni sono: la storia del parto e della nascita, la storia familiare, l'inizio del cammino e i tempi di acquisizione delle tappe motorie, la presenza di segni della vescica neurologica o incontinenza fecale inappropriati per l'età (possibile indice di disturbi a livello spinale), lo sviluppo del linguaggio e delle abilità sociali (segno di autismo e/o disabilità intellettuale), problemi di integrazione sensoriale come ipo o ipersensibilità agli stimoli, segni e sintomi (come ad esempio il dolore) a livello degli arti inferiori e, infine, l'impatto della condizione sul bambino e sui familiari. L'esame fisico del paziente dovrebbe invece comprendere: l'analisi del pattern di cammino con e senza ortesi, scarpe e calzini e se vi è la possibilità di camminare sui talloni; un esame a livello muscoloscheletrico generale, l'esame neurologico (forza muscolare, tono, sensibilità, riflessi profondi e superficiali), la valutazione del rachide (presenza di curvature, anomalie a livello cutaneo, arrossamenti), l'identificazione di eventuali asimmetrie a livello del bacino o degli arti inferiori e riduzioni del ROM in particolare a livello di caviglia e piede. La corretta ed esaustiva raccolta di queste informazioni dovrebbe aiutare il clinico a decidere quale sia la migliore opzione di presa in carico del bambino.

L'articolo di Ruzbarsky e colleghi [65] mette in evidenza gli elementi da inserire nella valutazione del bambino con ITW. Viene sottolineata, inizialmente, l'importanza dell'osservazione del pattern di cammino per quanto riguarda sia le caratteristiche qualitative e quantitative (grado di flessione plantare al momento del contatto al suolo, presenza o meno di dorsiflessione durante lo swing e il movimento di anca e ginocchio) sia riguardo come si modifica in base alle circostanze ambientali (setting, utilizzo di scarpe o meno). La valutazione della lateralità del cammino in punta (ovvero se unilaterale o bilaterale) può aiutare nella differenziazione con l'emiplegia o la lussazione dell'anca; valutare il movimento degli arti superiori durante il cammino e/o la corsa è utile nella distinzione con la PCI. La differenza di lunghezza degli arti inferiori in stazione eretta con i talloni appoggiati al suolo può indicare la presenza di un'obliquità pelvica. L'osservazione del trofismo muscolare può rivelarsi significativa in due direzioni: se presente atrofia, potrebbe essere segno della

presenza di piede torto equino, traumi a livello del midollo spinale o paralisi cerebrale; l'ipertrofia dei polpacci, invece, potrebbe indicare la presenza di una distrofia muscolare. Per quanto riguarda l'esame dell'apparato muscoloscheletrico gli autori consigliano la misurazione del ROM di anca, ginocchio, tibio-tarsica e dell'articolazione talocalcaneale, l'utilizzo del *Silverskiold test* per differenziare se la limitazione alla flessione dorsale è data dalla rigidità solamente del gastrocnemio o dell'intero complesso muscolo-tendineo del tricipite surale, la valutazione del grado di antiversione femorale e la presenza di rotazioni della tibia (spesso nei pazienti con toe walking si nota un aumento della rotazione esterna della tibia), la palpazione dei tessuti e la valutazione della presenza di lassità legamentosa e dello stato della cute. L'esame neurologico completa la valutazione, includendo l'esame di sensibilità, forza, riflessi osteotendinei, tono, clono, Babinski e la presenza del segno di Gower. In caso di alterazioni neurologiche è indicato il referral a un medico neurologo.

Lo studio di Schlough e colleghi [52] si concentra sulle componenti della valutazione che possono permettere la distinzione tra ITW e paralisi cerebrale. Sulla base di una classificazione dei sistemi di movimento, gli autori inseriscono i bambini con ITW dentro la categoria "deficit di coordinazione", mentre quelli con paralisi cerebrale dentro "deficit di frazionamento del movimento". Dai 5 studi che vengono analizzati nella revisione, in cui vi è sempre un confronto tra un gruppo di bambini con ITW e un gruppo di bambini con PCI, gli autori ricavano dunque gli elementi da inserire nella valutazione che possano aiutare il clinico a distinguere le due condizioni inserendo il bambino in una delle due diagnosi di movimento. I risultati vengono inoltre suddivisi sulla base dei domini della *World Health Organization's International Classification of Functioning, Disability and Health* (ICF). Per quanto riguarda l'area delle funzioni e strutture corporee, gli elementi da valutare sono: 1) ROM e lunghezza muscolare: i pazienti con PCI presentano, al contrario dei pazienti con ITW, una riduzione dell'angolo popliteo, indice di una rigidità maggiore agli ischio-crurali; a livello della tibio-tarsica non vi sono differenze significative di ROM tra i due gruppi; 2) Spasticità muscolare: presenza di spasticità nel gruppo di bambini con PCI; 3) EMG in statica: esaminata l'attività muscolare durante un'attività di estensione contro resistenza del ginocchio, in cui i pazienti con PCI mostrano una coattivazione di quadricipite e gastrocnemio, cosa che non accade nei bambini con ITW. Per analizzare il livello di attività, invece, viene effettuata una valutazione del pattern del cammino assieme ad una EMG in dinamica: in caso di ITW vi è un'alterazione della cinematica della caviglia sul piano sagittale, mentre a livello di ginocchio e anca non vi sono alterazioni; nel caso di PCI, invece, le alterazioni della cinematica sul piano sagittale sono presenti a tutti e tre i distretti (caviglia, ginocchio e anca). Le deviazioni rispetto alla fisiologia della cinematica della caviglia sono comunque differenti tra i due gruppi.

Un ulteriore studio che mette in luce le caratteristiche utili a differenziare l'ITW da patologie neurologiche è quello condotto da Haynes e colleghi [10]. Attraverso un'indagine retrospettiva gli autori riportano le percentuali di disturbi neurologici all'interno di una popolazione di 174 bambini toe walkers che sono stati sottoposti a valutazione in una clinica neurologica successivamente a un rinvio effettuato da un medico ortopedico. È stato riscontrato che il 62% del campione presentava una patologia neurologica che spiegava il pattern di cammino in punta, mentre i restanti sono stati classificati come "idiopatici". Oltre a ciò, gli autori hanno anche evidenziato le differenze tra ITW e bambini con patologia neurologica risultate dalla valutazione che è stata condotta. Per quanto riguarda le informazioni dell'anamnesi si è visto che il 55% dei bambini con PCI ha avuto problematiche durante il parto o una nascita prematura e, inoltre, al contrario dei pazienti con PCI, quelli con ITW hanno iniziato a camminare ad un'età entro i limiti rispetto alla fisiologia. All'esame neurologico il 90% dei bambini con PCI presenta segni del I motoneurone, contro un 30% in quelli con ITW; segni del II motoneurone sono meno predittivi, tuttavia sono presenti nel 61,1% dei bambini con diagnosi neurologica, contro un 15,1% nei bambini con ITW. La presenza di contrattura del tricipite surale è una caratteristica maggiormente presente nei bambini con ITW (65%, contro un 43% nei bambini con patologia neurologica). Infine, in base al coinvolgimento di uno solo o di entrambi gli arti inferiori, gli autori affermano che, in caso di cammino in punta unilaterale, la causa è per la maggior parte neurologica, mentre nel caso in cui si presenti bilateralmente, per un 41% si è dimostrato idiopatico. Gli autori riportano infine che, al termine della valutazione, è stato diagnosticato un Disturbo dello Spettro Autistico al 15,7% del campione e ADHD all'8,3%.

Data l'ipotesi della presenza di un'alterazione della capacità di elaborazione e integrazione delle informazioni sensoriali nei bambini con ITW, Williams e colleghi [53], in uno studio osservazionale, individuano alcuni strumenti di misura per la valutazione delle abilità motorie, della sensibilità tattile e delle abilità di processazione sensoriale. Dai risultati ottenuti hanno poi evidenziato le differenze presenti tra i due gruppi, uno composto da 30 bambini con ITW e l'altro da 30 bambini "sani", per un campione totale di 60 pazienti di età compresa tra 4 e 8 anni. Gli strumenti di misura e i relativi risultati principali sono: 1) *Bruininks-Oseretsy Test of Motor Proficiency (2° edizione)*, che valuta le abilità grosso- e fini-motorie: i bambini con ITW hanno ottenuto punteggi significativamente inferiore nelle aree della coordinazione bilaterale, dell'equilibrio e della coordinazione degli arti superiori. 2) *Sensory Integration and Praxis Test*, per la valutazione della capacità di integrazione sensoriale: correlazione significativa con l'ITW nel sottotest "Standing Walking Balance" che valuta la capacità del bambino di mantenere sia l'equilibrio statico con gli occhi aperti e chiusi sia l'equilibrio in situazioni dinamiche (cammino) con occhi aperti e chiusi. 3) *Sensory Profile*, un questionario composto da 125 domande rivolte ai genitori riguardo la capacità

del bambino di adattarsi in risposta a situazioni ambientali differenti: i punteggi ottenuti dai bambini con ITW, rispetto agli standard, mostrano la presenza di difficoltà nella registrazione ed elaborazione degli stimoli sensoriali. 4) *Soglia di percezione vibratoria*, misurata attraverso uno strumento chiamato *VSA-3000 Vibratory Sensory Analyser* applicato all'estremità dell'alluce: i bambini con ITW presentano un'ipersensibilità agli stimoli tattili.

Engström e colleghi [54] hanno indagato la presenza di sintomi neuropsichiatrici all'interno di una popolazione di bambini con ITW. Il campione, composto da 51 bambini *toe walkers* di età compresa tra i 4 e i 14 anni, è stato sottoposto a una valutazione (raccolta di dati anamnestici e informazioni sulla nascita e le tappe dello sviluppo, esame neurologico e fisico) allo scopo di escludere la presenza di condizioni patologiche. Ai genitori è stato somministrato dunque il questionario *Five to Fifteen (FTF)*, che indaga la presenza di sintomi neuropsichiatrici nei bambini. Rispetto ai valori predetti per l'età riportati dalle indicazioni dell'applicazione del questionario, è risultata una maggiore percentuale di bambini all'interno del campione che presentavano severi problemi nelle aree delle abilità motorie, delle funzioni esecutive, di memoria, linguaggio e apprendimento. La maggior parte del campione, inoltre, ha ottenuto un punteggio totale al di sopra del 90° percentile, indice della presenza di problemi clinicamente evidenti.

### **3.2. Opzioni di trattamento per il bambino con ITW**

Van Bommel e colleghi [55], attraverso una revisione sistematica di 10 studi pubblicati tra il 1998 e il 2012, hanno analizzato le evidenze presenti in letteratura riguardo il confronto tra l'efficacia del trattamento con casting e il trattamento chirurgico in bambini con ITW. Il campione totale comprende 298 bambini, 113 trattati con casting e 185 chirurgicamente. Gli outcomes presi in considerazione sono stati: il ROM in flessione dorsale della caviglia, la frequenza del cammino in punta, la soddisfazione dei genitori riguardo il trattamento e la presenza di complicazioni. Dai risultati emerge che con il trattamento chirurgico l'aumento del ROM della flessione dorsale è stato maggiore e in un minor numero di bambini il cammino in punta è stato definito come "persistente" (52,1% tra i bambini trattati con casting, 43,6% tra quelli trattati chirurgicamente), nonostante sia da considerare che il follow-up medio è differente tra i due gruppi (3,5 anni nel gruppo "conservativo", 6,4 anni nel gruppo "chirurgico"). Per quanto riguarda il grado di soddisfazione dei genitori non è stato possibile confrontare i dati a causa dell'eterogeneità degli strumenti di misura utilizzati. Le complicanze del trattamento con casting si sono rivelate meno frequenti (3,3%) rispetto al trattamento chirurgico (6,7%).

In un'altra revisione sistematica, Van Kuijk e colleghi [56] hanno riportato e confrontato le evidenze presenti in letteratura riguardo l'efficacia delle opzioni di trattamento disponibili per il

bambino con ITW. Sono stati inclusi in totale 19 studi la cui popolazione comprendesse bambini con ITW tra i 2 e i 18 anni. La maggior parte di questi riporta dati relativi ad una singola opzione di trattamento, tra cui: intervento con focus sul controllo motorio, serial casting e trattamento chirurgico; 6 studi, invece, comparano l'efficacia di diverse modalità. Le misure di outcome che emergono dagli studi sono: flessione dorsale passiva della tibio-tarsica, osservazione qualitativa del cammino o gait analysis strumentale, EMG e informazioni riportate dai caregivers. Le tempistiche di follow-up variano dalle 6 settimane ai 22 anni post trattamento. Per quanto riguarda i risultati rispetto al ROM della tibio-tarsica è emerso che, immediatamente dopo il trattamento con casting vi è un miglioramento dei gradi articolari. La durata dei risultati ottenuti con un approccio conservativo sembra, tuttavia, essere minore rispetto ai risultati ottenuti con il trattamento chirurgico, in cui persistono anche dopo 3 anni di follow-up. Infine, nonostante i miglioramenti dati dall'intervento chirurgico a livello dell'articolazione generale dell'arto inferiore, questi non sono sufficienti a riportare i gradi articolari all'interno dei parametri fisiologici. Rispetto ai parametri del cammino rilevati attraverso la gait analysis, tutti i trattamenti hanno riportato un miglioramento della cinematica: aumento della flessione dorsale durante lo swing, il contatto iniziale e la fase di mid stance, sviluppo del primo rocker e riduzione dell'iperestensione del ginocchio in fase di stance. Nonostante ciò, tuttavia, non vi è una normalizzazione assoluta dei parametri entro la fisiologia. Inoltre, i risultati non sembrano mantenersi nel lungo termine. Infine, nel lungo termine, non vi sono differenze secondo quanto riportato dai genitori nella diminuzione della frequenza del cammino in punta tra bambini con ITW trattati conservativamente e bambini non trattati. Anche dopo il trattamento chirurgico, il 17%-33% dei genitori afferma che il TW non è cessato; in uno studio è addirittura riportato che, dopo il trattamento chirurgico, nonostante ci sia stato secondo la percezione dei genitori un miglioramento del pattern generale del cammino nel 72% dei casi dopo 3 anni, solamente il 22% del campione ha cessato completamente di camminare in punta. Vi è, tuttavia, un alto livello di soddisfazione riportata dai genitori nel gruppo trattato chirurgicamente.

Davies e colleghi [57] hanno indagato le differenze negli outcomes a lungo termine tra bambini trattati "attivamente" con casting e/o ortesi AFO più/meno tossina botulinica e bambini trattati "non attivamente" ai quali erano stati semplicemente indicati degli esercizi di stretching da eseguire in autonomia. Lo studio retrospettivo è stato condotto su un totale di 43 pazienti che avevano partecipato precedentemente ad uno studio sull'ITW e che non hanno ricevuto negli anni una diagnosi medica differente da quella di ITW. Il gruppo "attivo" è composto da 23 partecipanti, mentre quello "non attivo" da 20. Il tempo di follow-up è stato in media di 13,4 anni. I parametri del cammino hanno riportato dei miglioramenti in entrambi i gruppi, tuttavia, nel gruppo "attivo", il miglioramento è stato maggiore. Nonostante ciò, la limitazione nella flessione dorsale passiva (misurata non durante il

cammino) è peggiorata nel tempo in entrambi i gruppi; infatti, durante il cammino è stata riscontrata frequentemente la presenza di un'iperestensione compensatoria del ginocchio durante la fase di stance. La severità del cammino in punta è stata misurata attraverso la *classificazione di Alvarez*; nel gruppo di trattamento "attivo" il 52% ha riferito di camminare ancora in modo intermittente in punta, tuttavia, nel 74% dei casi il grado di severità è diminuito. Nel gruppo "inattivo", il 35% ha migliorato il grado di severità, mentre nel 10% dei casi è peggiorato; il 45% dello stesso gruppo, infine, ha riportato di camminare ancora saltuariamente sulle punte.

Pomarino e colleghi [58] presentano, attraverso una revisione di 37 studi pubblicati dopo il 2000, le diverse opzioni di trattamento dell'ITW presenti in letteratura; 2 di questi articoli riguardano il concetto "3-step-pyramid insole treatment". L'obiettivo primario dell'utilizzo di solette a piramide, riportate in *Figura 7*,



*Figura 7 - Solette a piramide.*

è quello di riposizionare i muscoli e legamenti per permettere un riallineamento del piede, cosa che influenza a sua volta il pattern del cammino incentivando il bambino a portare il peso anche posteriormente, a livello del calcagno. Questa tipologia di solette può essere utilizzata nel caso in cui il paziente sia in grado di raggiungere un contatto al suolo a tutta pianta per almeno il 70% della durata del cammino. Questa tipologia di trattamento si suddivide in 3 step: 1) il bambino indossa le solette ogni giorno per 6-8 settimane, in alcuni casi in combinazione con il trattamento fisioterapico, dopodichè si effettua la prima valutazione; 2) durante la prima valutazione viene deciso se sia necessario introdurre, oltre alle solette, l'utilizzo di splint notturni, in base al grado di dorsiflessione della caviglia (se minore di 90° vengono prescritti). La seconda valutazione viene eseguita dopo 12-14 settimane; 3) al secondo follow-up viene deciso se utilizzare delle iniezioni di tossina botulinica, nel caso in cui il bambino continui a camminare in punta, il ROM della caviglia in dorsiflessione arrivi alla posizione neutra o meno e se il trattamento con solette, splint notturni e fisioterapia non ha portato ai risultati attesi. L'utilizzo di fisioterapia, solette a piramide e splint notturni sembra essere una combinazione efficace e senza controindicazioni particolari; l'utilizzo delle solette porta a un miglioramento del cammino nel 70% dei casi, con un aumento dell'appoggio del tallone al suolo e un aumento dell'attività del muscolo tibiale anteriore all'EMG. Nel medesimo studio, Pomarino e colleghi riportano anche le evidenze riguardo altre modalità di trattamento: la fisioterapia è l'opzione maggiormente utilizzata, tuttavia non vi è concordanza sui protocolli da applicare. Le sedute di fisioterapia dovrebbero mirare ad allungare il tricipite surale e gli ischio-crurali, mobilizzare la caviglia, rinforzare i muscoli dorsiflessori e migliorare la postura, l'equilibrio e la coordinazione. Per quanto riguarda l'utilizzo di

casting, numerose sono le tipologie di ortesi e/o protocolli utilizzati secondo la letteratura, tuttavia gli effetti sul lungo termine sono ancora dibattuti. Le iniezioni di tossina botulinica prima del trattamento con casting non ne aumentano l'efficacia, ma possono risultare vantaggiose se in combinazione con la fisioterapia. L'approccio chirurgico, infine, porta a un miglioramento dei parametri del cammino e del ROM della tibio-tarsica dopo 13 mesi, tuttavia i genitori sembrano preferire un approccio conservativo.

Nel trial clinico controllato randomizzato di Herrin e Geil [59] vengono confrontate due tipologie di ortesi: un gruppo di 9 bambini ha utilizzato delle ortesi AFO articolate con stop in flessione plantare (*Figura 8 a sinistra*), mentre il secondo gruppo, composto anch'esso da 9



*Figura 8 - Ortesi AFO a sinistra, FO a destra assieme a soletta in carbonio.*

bambini, ha utilizzato delle ortesi FO attaccate a una soletta di carbonio rigido (*Figura 8 a destra*). Il campione è composto quindi da un totale di 18 bambini di età compresa tra i 2 e gli 8 anni con diagnosi di ITW. Il trattamento ha avuto per entrambi i gruppi una durata di 6 settimane, dopo le quali è stata condotta un'analisi del cammino sia con le ortesi sia con le calzature abituali. Il gruppo AFO ha mostrato nel cammino con le ortesi una maggiore velocità del cammino e una completa assenza di appoggio al terreno di punta. Il gruppo FO, invece, nel 13% dei casi presentava ancora un'alterazione dell'appoggio. Nonostante i risultati nel cammino con le ortesi, il gruppo AFO non ha mantenuto gli stessi durante il cammino con le scarpe abituali. Al contrario, il gruppo FO ha mostrato una minor quantità di miglioramenti nel cammino con le ortesi, tuttavia, nel cammino con le scarpe, sono stati in grado di mantenerli.

Un ulteriore studio che indaga l'efficacia dell'utilizzo di ortesi è quello di Berger e colleghi [60]. In particolare, le ortesi utilizzate nel trattamento, sono degli AFO con unità circolare al piede che vada a bloccare l'articolazione sottotolare. Lo studio è un'indagine retrospettiva condotta su un campione di 22 pazienti con diagnosi di ITW e il tempo di follow-up è di 2 anni. La durata del trattamento è stata per tutti i partecipanti di 16 settimane: durante le prime 6 le ortesi sono state indossate per 23 ore al giorno, mentre nelle 4 settimane successive solamente di notte; dopodichè i pazienti sono stati liberi di scegliere il tempo di utilizzo. All'inizio del trattamento i partecipanti sono stati suddivisi in 5 gruppi in base alla percentuale di tempo durante il cammino in cui, secondo i genitori, l'approccio avveniva di punta (0 – 25 – 50 – 75 – 100%); nel momento in cui il toe walking riprendeva e vi era la necessità di ricominciare il trattamento con le ortesi, i bambini venivano

collocati nel gruppo 6. Alla baseline 1 paziente è stato inserito nel gruppo 3 (50%), 5 pazienti nel gruppo 4 (75%) e 16 nel gruppo 5 (100%). Dopo 12 mesi 14 pazienti rientravano nel gruppo 1 (0%), 2 nel gruppo 2 (25%), 3 nel gruppo 3 e 1 nel gruppo 6. Dopo 2 anni, 14 pazienti sono rimasti nel gruppo 1, 1 paziente nel gruppo 2 e 7 pazienti nel gruppo 6 (32%). Dopo 12 mesi di trattamento si è riscontrata una normalizzazione dei parametri del cammino nel 73% dei casi, tuttavia al secondo anno di follow-up vi è stata un'elevata percentuale di recidiva (32%) con necessità di riprendere il trattamento con ortesi. Anche per quanto riguarda il ROM in flessione dorsale della tibio-tarsica, si è registrato un aumento dell'articolarià nel breve termine, dopodichè non c'è più stato alcun miglioramento.

Lo studio RCT di Engström e colleghi [61] ha valutato l'efficacia dell'utilizzo della tossina botulinica nell'ottimizzare i risultati ottenuti grazie al trattamento con ortesi AFO. Lo studio presenta un campione di 47 bambini con ITW, i quali sono stati suddivisi a random in due gruppi: il gruppo CA, composto da 26 partecipanti, che ha ricevuto il trattamento con AFO bilaterali per 4 settimane, mentre il gruppo CA + BX, composto da 21 bambini, ha effettuato delle iniezioni di tossina botulinica in entrambi i polpacci dopodichè ha indossato le ortesi AFO per 4 settimane. Entrambi i gruppi, inoltre, sono stati istruiti, dopo la rimozione delle ortesi, all'esecuzione di esercizi di stretching 5 volte a settimana e a camminare sui talloni per almeno 50 passi al giorno. Le valutazioni, che comprendono l'analisi 3D del cammino (i cui dati sono stati utilizzati anche per individuare la severità del cammino in punta secondo i criteri della classificazione di Alvarez), la percezione dei genitori riguardo la percentuale di cammino in punta quando il bambino è scalzo e riguardo gli effetti collaterali del trattamento, la misurazione del PROM di anca, ginocchio e caviglia, la forza dei muscoli flessori dorsali (misurata tramite dinamometro) e la valutazione della presenza di sintomi neuropsichiatrici (attraverso il questionario "Five to Fifiteen" – FTF), sono state effettuate alla baseline, a 3 e 12 mesi dopo la rimozione dell'ortesi. A 3 e 12 mesi è stato registrato un miglioramento dei parametri del cammino (aumento del momento in flessione dorsale della caviglia e riduzione dell'iperestensione del ginocchio in fase di stance), senza che ci fossero, tuttavia, differenze statisticamente rilevanti tra i due gruppi. Per nessuna delle due opzioni di trattamento sono stati riportati dai genitori effetti collaterali severi. A 3 mesi di follow-up i genitori dei bambini del gruppo CA + BX hanno riportato una frequenza di cammino in punta minore rispetto ai genitori del gruppo CA, mentre a 12 mesi non sono state riscontrate differenze significative tra i due gruppi. La flessione dorsale della caviglia sia a ginocchio esteso sia flesso è aumentata in tutti e due i gruppi in entrambi i momenti di follow-up. La forza dei muscoli flessori dorsali è aumentata in modo significativo in entrambi i gruppi ma senza differenze intergruppo. Infine, non è stata riscontrata alcuna correlazione

tra il numero di domini del questionario FTF in cui i bambini presentavano un punteggio oltre il 90° percentile e gli effetti del trattamento.

Attraverso una revisione della letteratura, Pomarino e colleghi [35] presentano le opzioni di trattamento disponibili per l'ITW. Tra queste, la fisioterapia è uno dei più comuni trattamenti, tuttavia le evidenze riguardo le tecniche e i risultati sono limitate. L'obiettivo dell'utilizzo di ortesi sarebbe quello di allungare le strutture non contrattili del tricipite surale e la durata del trattamento varia dalle 2 alle 10 settimane. Uno degli svantaggi dell'utilizzo di ortesi è il fatto che rendano difficoltoso il cammino e quindi la riabilitazione a un pattern di cammino fisiologico. In letteratura gli studi a riguardo presentano solitamente campioni esigui, inoltre sembrano non avere efficacia nel lungo termine. La tossina botulinica viene solo utilizzata in concomitanza con la fisioterapia e/o l'utilizzo di ortesi; l'effetto dura da 2 a 12 mesi e nel lungo periodo può determinare una debolezza muscolare. Anche in questo studio viene presentato il concetto "3-step-pyramid insole treatment", riportando una percentuale di successo del 70%. Il trattamento chirurgico viene riportato come l'ultima opzione di trattamento. Viene utilizzato nel momento in cui vi è una grave limitazione della flessione dorsale della caviglia e una retrazione a livello muscolo-tendineo del tricipite surale. Esistono numerose procedure ma nessuna di queste si è dimostrata maggiormente efficace rispetto alle altre. In letteratura non vi sono evidenze sulle differenze di efficacia tra il trattamento chirurgico e altri tipi di intervento, tuttavia sembra essere il miglior approccio nel caso in cui sia presente una deformità in equino.

Infine, Ruzbarsky e colleghi [65] danno una panoramica sulle modalità di trattamento. Il fatto di richiamare il bambino verbalmente incitandolo a camminare appoggiando i talloni non si è dimostrato efficace, poiché, dopo i primi passi in cui potrebbe effettivamente appoggiare al suolo di tallone, ritornerebbe a camminare sulle punte, probabilmente per la ridotta capacità di rivolgere l'attenzione al compito. Inoltre, il dover richiamare costantemente il bambino risulta frustrante sia per il bambino stesso sia per i genitori. Ci sono poche evidenze sul fatto che la fisioterapia e l'esecuzione in autonomia di esercizi di stretching porti nel lungo termine a un aumento del ROM della caviglia e un miglioramento del pattern del cammino. Per quanto riguarda le diverse tipologie di ortesi, gli inserti rigidi, che dovrebbero aumentare il feedback sensoriale, rendono tuttavia più difficoltoso il cammino, come anche le ortesi AFO, le quali limitano la fase di push off. Si sono rivelate utili nel post-operatorio quando i bambini vengono sottoposti ad allungamento chirurgico del tendine d'Achille. Vengono utilizzate inoltre delle "ingessature", effettuate con materiali waterproof per permettere al bambino di lavarsi, che vengono cambiate ogni 1-2 settimane per un periodo di 4-6 settimane. Queste incentivano l'approccio di calcagno e forniscono un continuo stretching del complesso muscolo-tendineo del tricipite surale. Al termine del periodo di ingessatura, un ciclo di fisioterapia potrebbe risultare utile per restituire la forza e la coordinazione che vengono

momentaneamente ridotte dal periodo di “immobilizzazione”. Alcuni studi hanno dimostrato dei miglioramenti in seguito all’allungamento chirurgico, tuttavia, l’analisi del cammino di pazienti sottoposti ad intervento, ha mostrato la persistenza di alterazioni del pattern (limitata flessione dorsale in fase di stance e swing, aumento della rotazione esterna della tibia rispetto al femore). Dopo il trattamento chirurgico vengono normalmente applicate delle ingessature per 4-6 settimane. Secondo quanto descritto in letteratura il 7% dei pazienti ha riportato delle complicanze a causa dell’intervento, tra cui eccessivo allungamento con associata debolezza, traumi al nervo surale, cicatrici dolenti e infezioni della ferita chirurgica. Gli autori concludono affermando che, per i bambini di età inferiore ai 5 anni con possibilità di dorsiflessione oltre la posizione neutra, l’approccio raccomandato è l’osservazione. Per bambini di età superiore ai 5 anni e con almeno 10° di flessione dorsale le opzioni sono l’osservazione o l’immobilizzazione in massima dorsiflessione per 6 settimane. L’utilizzo di casting non è efficace per bambini oltre i 7 anni. Nel caso in cui il trattamento con ortesi/casting fallisse e/o la limitazione della tibio-tarsica fosse severa, allora il trattamento chirurgico sembrerebbe essere la migliore opzione. L’AFO è utile per i bambini che presentano un buon PROM in flessione dorsale ma in cui l’abitudine del cammino in punta persiste.

### **3.3. Misure di outcome**

Con lo scopo di presentare i metodi di valutazione clinica utili all’individuazione del grado di severità del cammino in punta, Pomarino e colleghi [23] hanno condotto uno studio osservazionale su un campione di 836 bambini con ITW, confrontando i risultati ottenuti con un gruppo di 55 bambini “sani”. I bambini con ITW sono stati, inoltre, suddivisi in due categorie in base alla presenza o meno di una predisposizione familiare per il cammino in punta: PF-TW se storia positiva, NF-TW se negativa. I test presentati e di cui vengono riportati i risultati sono cinque: 1) *Spin Test*: al bambino viene richiesto di girare su sé stesso il più veloce possibile per un massimo di 10 giri. Si annota il numero del giro dal quale comincia a stare sulle punte; più precocemente rispetto al numero totale di passi il cammino in punta appare, maggiore è il grado di severità della condizione. 2) *Cammino dopo lo spin test*: al paziente viene richiesto di compiere 10 passi appena dopo aver terminato lo spin test. Si annota il numero del passo in cui comincia a camminare in punta. Più precocemente si mostra il cammino in punta, maggiore è la severità. 3) *Cammino sui talloni*: vengono riportati anche gli eventuali compensi sfruttati dal bambino, i quali sono utilizzati per determinare anche la severità della condizione. Un minor numero di bambini PF-TW è stato in grado di svolgere il test (50,3% contro un 61% dei bambini NF-TW). 4) *ROM della tibio-tarsica in flessione dorsale*: misurata con un goniometro articolare sia in posizione supina a ginocchio esteso sia da prono a ginocchio flesso; maggiore la limitazione, maggiore la severità. 5) *Gradi della lordosi lombare*: il goniometro viene

posto nel punto di apice della curva del rachide lombare mentre il bambino si trova in stazione eretta. I bambini con ITW sviluppano infatti un'accentuata curva lombare: maggiore il grado della lordosi, maggiore la severità. In tutti i test utilizzati i bambini con storia familiare positiva per il cammino in punta hanno mostrato una maggiore severità della condizione rispetto ai bambini con storia familiare negativa.

Lo studio di Caserta e colleghi [62] è una revisione sistematica con lo scopo di identificare le scale di misura e gli strumenti di verifica utilizzati in letteratura per quantificare i cambiamenti all'arto inferiore nei bambini con ITW e di valutarne l'utilità clinica, la validità e l'affidabilità. Gli studi inclusi sono in totale 27 e la popolazione è composta da pazienti con ITW di età compresa tra i 2 e i 19,5 anni. Le due categorie di outcome maggiormente frequenti sono la misurazione del ROM e l'analisi del cammino; la prima viene misurata per la maggior parte con l'utilizzo di un goniometro, ma anche attraverso il weight bearing lunge test, mentre la seconda viene effettuata con la Vicon o il GaitRite. Assieme all'analisi del cammino, eseguita anche con semplici software di analisi video, si trova di frequente la classificazione di Alvarez della severità del cammino in punta. Altri strumenti di misura utilizzati sono: l'accelerometro, EMG, l'esame della forza muscolare, l'esame neurologico ed esami di imaging (radiografie).

Lo studio pilota di Ali e colleghi [63] ha valutato l'affidabilità intra- e inter-operatore della *Clinical Gait Assessment Scale* (CGAS), la quale è una scala di misura osservazionale per la valutazione dell'ITW. Gli autori hanno inoltre analizzato l'affidabilità della scala nel valutare il cammino in punta su differenti superfici. Per fare ciò sono stati reclutati 4 operatori (2 fisioterapisti e 2 studenti di fisioterapia), i quali hanno valutato ognuno il video di 4 bambini con ITW mentre camminano su diverse superfici: un pavimento di linoleum, un tappeto, un percorso ad ostacoli e su una trave. La scala CGAS include tre sezioni di valutazione: 1)  *piede*, 2)  *arti superiori*, 3)  *testa e tronco*. Inizialmente viene calcolato il numero di passi totali e il numero di passi sulle punte e per ogni sezione viene calcolato il punteggio di impairment (section-specific impairment score). Il total impairment score viene invece calcolato sommando i punteggi singoli delle tre sezioni. Per individuare il grado di severità, vengono assegnati dei punteggi specifici per ogni sezione: per il  *piede* i punteggi 0, 1, 2 e 3 corrispondono rispettivamente a un pattern fisiologico con approccio di tallone, un contatto iniziale a tutta pianta, un pattern toe-to-heel e infine un cammino sulle punte durante tutta la fase di stance. Per la sezione degli  *arti superiori* i punteggi 0, 1, 2, 3 e 4 corrispondono a un'ampiezza normale di oscillazione degli arti superiori, un'ampiezza ridotta di oscillazione, l'irregolare oscillazione di un arto, l'assenza di oscillazione e il mantenimento degli arti in guardia alta. Infine, per la sezione di  *testa e tronco*, punteggi di 0, 1 e 2 indicano rispettivamente un normale allineamento, un lieve disallineamento con la possibilità di raddrizzamento e un severo

disallineamento senza capacità di correzione. Il punteggio viene assegnato per ogni passo attraverso la visione del video. Per ogni sezione il valutatore calcola il potenziale punteggio massimo ( $n^{\circ}$  tot di passi  $\times$  punteggio più alto ottenuto). Il punteggio totale di ogni sezione viene poi diviso per il punteggio massimo potenziale ed espresso poi il risultato in percentuale. Maggiore è la percentuale, maggiore la severità del cammino. Dai risultati emerge che i punteggi sezione-specifici per il piede e testa e tronco sono coerenti tra i 4 valutatori e il livello di affidabilità è eccellente; i punteggi della sezione arti superiori, invece, variano e l'affidabilità della scala è moderata. Il percorso ad ostacoli è la condizione più difficile da valutare e che ha dimostrato i punteggi minori di affidabilità.

Infine, Christensen e colleghi [64] hanno condotto un'indagine sull'affidabilità inter-operatore e la validità del “50-ft walk test” (FWT) per bambini con ITW. L'obiettivo del test è quello di determinare la percentuale di cammino in punta su una distanza di 50-ft. Per misurare il numero di passi totali viene utilizzato un accelerometro e la distanza da percorrere viene segnata a terra con del nastro adesivo. Il fisioterapista cammina dietro al bambino per valutare il toe walking, contando il numero di passi con approccio di punta, ma senza interferire con il cammino; viene quindi calcolata la percentuale di passi in punta rispetto al numero totale di passi. Con lo scopo di far camminare il bambino nella modalità che utilizza abitualmente, gli viene assegnato un compito cognitivo da svolgere durante il test, come ad esempio lo spelling di parole, cantare una canzone o dire la tabellina del 7. Al termine del test viene inoltre chiesto ai genitori se il cammino utilizzato dal bambino nel test coincide con quello utilizzato abitualmente. Nello studio di Christensen e colleghi sono stati esaminati in totale 30 bambini con diagnosi di ITW da parte di 3 fisioterapisti con 9, 4 e 6 anni di esperienza. I risultati mostrano che l'affidabilità inter-operatore del test è eccellente, con coefficiente di correlazione interclasse (ICC) di 0.98 e un intervallo di confidenza per il 95% da 0.96 a 0.99. inoltre, la differenza di anni di esperienza dei valutatori non ha influenzato i risultati finali.

## CAPITOLO 4: DISCUSSIONE

Verranno in questo capitolo confrontati i risultati degli studi inclusi in questa revisione, suddividendo le argomentazioni nelle 3 aree precedentemente individuate: valutazione del bambino con TW, opzioni di trattamento e misure di outcome disponibili.

### 4.1. Valutazione del bambino toe walker

Come descritto precedentemente in questa revisione, il cammino in punta è un segno clinico di frequente riscontro in diverse patologie muscoloscheletriche, neurologiche e neuroevolutive. Da ciò ne consegue la necessità di effettuare un'accurata valutazione del paziente, per identificare l'eventuale necessità di svolgere delle indagini più approfondite e rinviare quindi ad un medico specialista. Di seguito verranno dunque presentati gli elementi presenti negli articoli inclusi nello studio necessari per una puntuale osservazione e valutazione del bambino toe walker.

In primo luogo, durante la fase di raccolta delle informazioni anamnestiche, risulta importante soffermarsi sulla storia della gravidanza della madre (presenza di fattori di rischio materni e/o fetali) e sull'eventuale presenza di complicanze durante o dopo il parto (prematùrità, sofferenza a livello cerebrale, idrocefalo, ecc). Questi fattori sono spesso indice della presenza di problematiche neurologiche; nel 55% dei bambini con PCI inclusi nello studio di Haynes e colleghi [10], infatti, era presente una storia di prematurità o di complicanze durante il parto. Oltre alla storia della madre e del bambino, indagare anche la presenza di familiarità con il toe walking [51] [65] o altre patologie a carattere ereditario di cui il TW può essere un segno, tra cui neuropatie periferiche, Charcot-Marie-Tooth e le distrofie muscolari come, ad esempio, la Duchenne [51]. Nel ricavare informazioni riguardo le principali tappe dello sviluppo psicomotorio del paziente, particolare attenzione deve essere posta sull'acquisizione del cammino: nel caso dell'ITW, infatti, il cammino in punta si manifesta sin dai primi passi, inizialmente è correggibile su richiamo e la sua frequenza aumenta progressivamente, mentre ad esempio la presenza di una postura del piede in flessione plantare anche nella fase precedente l'acquisizione della stazione eretta può indicare la presenza di spasticità o distonia [51]. Infine, è consigliato investigare, domandando ai caregivers, la presenza, anche in passato, di segni quali incontinenza fecale o perdite di urina, che possono indicare la presenza di disturbi a livello spinale [51].

L'osservazione del bambino deve cominciare dal momento in cui questo arriva nella stanza di trattamento e deve includere la valutazione delle posture e dell'eventuale modificazione del pattern di cammino in base alle situazioni e/o agli ambienti. Nel valutare la postura in stazione eretta, concentrarsi in particolare sulla possibile presenza di un'obliquità pelvica, secondaria ad un'eterometria degli arti inferiori, o di deformità ai vari distretti (piede, caviglia, ginocchio e anca).  
[articolo 7]

Nella fase di osservazione dell'esame fisico, sia Sivaramakrishnan [51] sia Ruzbarsky [65] indicano l'importanza dell'ispezione della cute e delle curvature della colonna vertebrale: alterazioni come gonfiore, presenza di fosse a livello sacrale o altre anomalie possono, infatti, suggerire la presenza di lesioni spinali, Spina Bifida o Tethered Cord Syndrome. La presenza, inoltre, di alterazioni del trofismo muscolare (ipotrofia o atrofia) può essere segno di lesione midollare, paralisi cerebrale, neuropatia periferica, miopatia o distrofia muscolare [51] [65]; è da sottolineare che in quest'ultima può essere presente anche un'ipertrofia e/o un'alterazione della consistenza muscolare, rilevabile attraverso la palpazione del ventre muscolare [65].

Il ROM dell'articolazione tibio-tarsica, solitamente misurato con l'utilizzo del goniometro sia a ginocchio esteso sia a ginocchio flesso, è considerato importante nella valutazione del bambino toe walker, tuttavia non è un predittore della presenza di qualche patologia. Haynes e colleghi [10] hanno riscontrato la presenza di una limitazione articolare nel 65% dei bambini con ITW e nel 43% dei bambini con diagnosi neurologica, senza che ci fossero quindi differenze statisticamente significative tra i due gruppi. Schlough e colleghi [52], allo stesso modo, non riportano differenze rilevanti nel ROM articolare tra ITW e PCI. Lo stesso autore indica, invece, la presenza di un'alterazione importante nella misurazione dell'angolo popliteo, ottenuta con goniometro articolare posizionando il bambino supino con l'anca flessa a 90°, che indica quindi una rigidità dei muscoli ischio-crurali, nei bambini con PCI; i bambini con ITW, al contrario, non presentano questa limitazione.

L'esame neurologico, che comprende l'esame della sensibilità, della forza muscolare, dei riflessi, del tono, del clono e del riflesso di Babinski, è un'altra tappa fondamentale della valutazione [51] [65]; il riflesso cremasterico e quello anale vengono testati in particolare in caso di sospetto di lesioni midollari [51]. Segni del I motoneurone (I MN) si ritrovano nel 90% dei bambini con PCI e solamente nel 30% dei bambini con ITW; segni del II motoneurone (II MN) sono presenti nel 15,1% dei bambini con ITW, contro un 61,1% in quelli con patologia neurologica, in particolare nelle neuropatie periferiche [10]. Sivaramakrishnan e colleghi [51] riportano, inoltre, la presenza di segni del I MN nelle paralisi cerebrali, lesioni cerebrali e idorcefalo; segni del I e II MN nelle lesioni midollari, spina bifida e Tethered cord syndrome. Un importante grado di spasticità, misurato attraverso la *Modified Ashworth Scale*, viene evidenziato da Schlough [52] nei bambini con PCI, con una differenza statisticamente rilevante rispetto ai bambini con ITW.

Nell'analisi dell'attività muscolare, attraverso l'EMG, durante l'estensione contro resistenza del ginocchio da seduto vi è una coattivazione di quadricipite e gastrocnemi nei bambini con PCI, ma non in quelli con ITW [52].

Il pattern del cammino, come detto precedentemente, deve essere osservato in diverse condizioni, sia con l'utilizzo delle calzature sia da scalzo [51] [65]. L'osservazione, secondo quanto

riportato da Ruzbarsky [65] deve partire dal piede durante la fase di stance per quanto riguarda il contatto al suolo e durante la fase di swing per valutare se la caviglia si dorsiflette adeguatamente. La lateralità del cammino in punta si è rivelata un indice prognostico per la diagnosi: il toe walking unilaterale è di frequente segno di patologie quali l'emiplegia e la lussazione unilaterale dell'anca [65]. Lo studio di Haynes e colleghi [10], inoltre, riporta che il toe walking bilaterale ma asimmetrico è più frequente nei bambini con PCI (dei 21 bambini con cammino in punta monolaterale, a 15 è stata diagnosticata una paralisi cerebrale) piuttosto che nei bambini con ITW o con altre patologie, e che l'86% dei toe walkers unilaterali ha una patologia neurologica; la maggior parte dei pazienti con ITW presenta un pattern bilaterale simmetrico. Oltre a questa caratteristica, Schlough e colleghi [52] riportano altre differenze nel cammino in punta tra ITW e PCI: i partecipanti allo studio con ITW presentano un'alterazione della cinematica nel piano sagittale della caviglia, mentre anca e ginocchio rientrano nei parametri fisiologici; i partecipanti con paralisi cerebrale, invece, mostrano un'alterazione della cinematica sul piano sagittale anche di ginocchio e anca, con un aumento della flessione di anca durante tutte le fasi e il mantenimento del ginocchio flesso durante la fase di approccio al suolo e in stance. Inoltre, questi ultimi presentano una flessione dorsale attiva durante la fase di swing, tuttavia il contatto al suolo avviene in punta o a tutta pianta. Al contrario, gli idiopatici durante la fase di swing flettono plantarmente la caviglia: entrambi i gruppi presentano quindi un'alterazione della cinematica della caviglia sul piano sagittale, ma il pattern di alterazione è differente. Vi è una riduzione della velocità del cammino in entrambi i gruppi, ma non ci sono differenze rilevanti tra i due [52].

Infine, la valutazione delle capacità di integrazione sensoriale e della presenza di eventuali sintomi neuropsichiatrici risulta fondamentale per ottenere un profilo completo del paziente. Engström e colleghi [54], attraverso la somministrazione del questionario *Five to Fifteen* (FTF), hanno indagato la presenza di sintomi neuropsichiatrici all'interno di una popolazione composta da bambini con ITW e hanno riscontrato la presenza, rispetto ai valori riscontrabili in una popolazione standard, di una maggiore percentuale di bambini con severi problemi nelle aree delle abilità motorie, delle funzioni esecutive, memoria, linguaggio e apprendimento. Per quanto riguarda l'analisi delle capacità di integrazione delle informazioni sensoriali, Williams e colleghi [53] presentano 4 strumenti di misura che possono aiutare il clinico nella valutazione. Questi sono: il *Bruininks-Oseretsky Test of Motor Proficiency* (2° edizione) per le abilità grosso- e fini-motorie, il *Sensory Integration and Praxis Test* per la capacità di elaborazione sensoriale, il *Sensory Profile* per la capacità di risposta e reazione del bambino a stimoli ambientali e il *Vibration perception threshold* per misurare la soglia di percezione vibratoria e quindi evidenziare la presenza di un'ipo- o ipersensibilità agli stimoli tattili. I risultati derivanti dall'applicazione di questi test a due gruppi, uno composto da bambini con ITW e

l'altro da bambini "sani", hanno dimostrato la presenza di alterazioni della capacità di integrazione sensoriale nel primo gruppo.

#### **4.2. Opzioni di trattamento per il bambino con ITW**

Numerose sono le opzioni di trattamento riportate in letteratura, ma, nonostante queste siano ampiamente utilizzate nella pratica clinica, il numero e la qualità degli studi che ne indagano l'efficacia sono limitati [35].

Tra gli articoli inclusi in questa revisione, quello di Ruzbarsky e colleghi [65] è il solo a indicare come modalità di trattamento il richiamo verbale del bambino. Questa strategia è risultata inefficace perché, a causa della ridotta capacità dei bambini di porre attenzione al compito (ovvero in questo caso quello di camminare appoggiando il tallone a terra), anche se i primi passi dopo il richiamo possono essere eseguiti con un pattern normale, in seguito il bambino tornerà a camminare in punta. Inoltre, il fatto di dover continuamente richiamare il bambino risulta frustrante sia per il bambino stesso sia per i genitori.

Per quanto riguarda il trattamento fisioterapico, gli obiettivi dovrebbero essere quelli di aumentare la lunghezza muscolare dei gastrocnemi attraverso lo stretching e migliorare l'attività dei muscoli flessori dorsali [35]; oltre agli esercizi di stretching, vengono indicati come strumenti terapeutici anche la mobilizzazione della caviglia ed esercizi di equilibrio e coordinazione [58]. La fisioterapia è una delle opzioni maggiormente accettate e utilizzate [58], tuttavia gli studi in letteratura che ne indagano l'efficacia, sia nel breve sia nel lungo termine, sono esigui, e, inoltre, nella maggior parte di essi non vengono presentati in maniera specifica i protocolli utilizzati e le modalità [35] [58].

L'opzione di trattamento maggiormente riportata e indagata in letteratura è l'utilizzo di ortesi (solitamente AFO), i cui obiettivi sono quelli di fornire degli ulteriori feedback sensoriali [65] e un allungamento continuo ai flessori plantari, concedendo così una maggiore possibilità di attività ai muscoli flessori dorsali (tibiale anteriore) [35] [58]. Esistono numerose tipologie di ortesi utilizzabili: Herrin e Geil [59] confrontano l'efficacia di ortesi AFO con quella di ortesi solamente a livello del piede (solette su di un fondo in carbonio rigido), Berger e colleghi valutano l'efficacia di ortesi AFO con un'unità circolare a blocco dell'articolazione sottotalare [60], mentre Pomarino e colleghi riportano le evidenze presenti in letteratura riguardo l'utilizzo delle solette a piramide [58]. Dall'analisi dei primi due studi si può dedurre che l'efficacia delle ortesi sia considerevole soprattutto nel breve termine, per la ridotta possibilità di trasferimento dei risultati ottenuti nel cammino una volta terminato il loro utilizzo. Dopo 6 settimane di trattamento, le ortesi AFO risultano efficaci al 100% nel prevenire il TW e migliorare dunque il pattern di cammino, tuttavia questi risultati non si ritrovano anche nel cammino senza ortesi [59]. A 12 mesi di follow-up dopo 10/16 settimane di

trattamento con ortesi AFO e unità circolare di blocco dell'articolazione sottotolare, secondo la percezione dei genitori, vi è una normalizzazione dei parametri del cammino nel 73% dei casi; tuttavia, tra i pazienti inclusi, il 18% dopo 12 mesi e il 36% dopo 24 mesi riporta un pattern cammino in punta per almeno il 50% del tempo e/o una ricaduta con necessità di tornare ad utilizzare le ortesi [60]. Sia le ortesi di tipo AFO sia le solette con base in carbonio rigido (anche se in quantità minore) inducono dei miglioramenti nei parametri del cammino registrati con indosso le ortesi; nel cammino con le calzature abituali, invece, i maggiori miglioramenti si hanno con l'utilizzo delle solette (ortesi FO) [59]. Anche Davies [57] riporta che, al secondo anno di follow-up dopo il trattamento con ortesi AFO, nonostante i miglioramenti del pattern del cammino registrati durante l'analisi, vi è comunque una riduzione dei gradi articolari in flessione dorsale della tibio-tarsica e nel cammino un'iperestensione di ginocchio con aumento del momento dei flessori plantari rispetto agli standard, segno della presenza di "cammino in punta" anche se non manifesto visivamente. L'obiettivo, infine, delle solette a piramide è quello di riallineare le strutture della caviglia e del piede per incentivare il bambino a portare il peso anche a livello del tallone [58]. Pomarino riporta che secondo uno studio questo tipo di solette porta a un miglioramento nel cammino nel 70% dei casi; un ulteriore studio riporta invece che il 64,5% dei pazienti reagisce positivamente al trattamento con le solette a piramide, nel 26,5% dei casi non vi è alcun effetto terapeutico e nel 9,6% i pazienti hanno rifiutato il loro utilizzo [58].

La percentuale di complicanze (ulcere cutanee) derivanti dall'utilizzo di ortesi è molto ridotta (3,3%) [55]; i fattori negativi maggiormente riportati sono l'impatto estetico e la limitazione nella fase di push-off [65].

L'utilizzo di iniezioni di tossina botulinica prima del trattamento con ortesi/casting della durata di 4 settimane non migliora gli outcome di trattamento: i miglioramenti dati dall'utilizzo solamente delle ortesi e da tossina + ortesi per quanto riguarda i parametri del cammino, il grado di severità, la percezione dei genitori sulla frequenza del TW, il PROM della tibio-tarsica in flessione dorsale e la forza dei muscoli flessori dorsali, a 3 e 12 mesi di follow-up, sono sovrapponibili [61]. L'utilizzo della tossina, inoltre, causa debolezza muscolare [35].

Una modalità d'azione simile a quella delle ortesi (implementare l'approccio di tallone e fornire uno stimolo in allungamento al complesso muscolo-tendineo del tricipite surale) è fornita dall'utilizzo di serial casting. Le ingessature vengono solitamente applicate fino a sotto il ginocchio e vengono utilizzati dei materiali waterproof per permettere al bambino un'adeguata igiene. La durata del trattamento è di 4-6 settimane: per bambini con una dorsiflessione limitata le ingessature vengono cambiate ogni 1-2 settimane, mentre se non vi è una restrizione strutturata, l'ingessatura viene modellata in massima dorsiflessione e mantenuta tale per l'intera durata del trattamento. Al termine

del periodo è indicata l'esecuzione di un ciclo di fisioterapia allo scopo di aiutare a recuperare la forza muscolare e la coordinazione, che vengono temporaneamente diminuite dal gesso [65].

Questa tipologia di trattamento determina un miglioramento del ROM dell'articolazione tibio-tarsica e dei parametri del cammino, senza tuttavia che vi sia una normalizzazione. Secondo quanto percepito dai genitori, non vi sono differenze nel lungo termine tra i risultati dati dall'utilizzo di casting e la semplice osservazione della condizione [56].

L'approccio chirurgico è solitamente l'ultima opzione e viene preso in considerazione solamente nei casi più severi, con i bambini più grandi, nel caso in cui ci sia una retrazione strutturata in equino o nel momento in cui l'utilizzo di approcci conservativi non abbia dato risultati [56]. Esistono diverse procedure chirurgiche utilizzate in questi casi, ma l'obiettivo principale è sempre quello di allungare il complesso muscolo-tendineo del tricipite surale; nessuna, inoltre, si è rivelata maggiormente efficace rispetto alle altre [35]. Il trattamento chirurgico ha dimostrato un maggiore miglioramento dei risultati rispetto all'utilizzo di casting sia nel ROM della tibio-tarsica [55] [56] sia nei parametri del cammino, senza tuttavia che ci sia una normalizzazione di questi ultimi [56]; nel 17-33% dei casi non c'è una cessazione completa del TW [56]. Dopo 3,2 anni di follow-up dall'intervento il 63% dei pazienti presenta ancora una certa percentuale di cammino in punta [55]. La percentuale di complicanze post chirurgia si attesta al 6,7% [55] e le principali cause sono l'eccessivo allungamento che risulta in maggiore debolezza muscolare, la lesione del nervo surale, dolore a livello delle ferite chirurgiche e infezioni [65]. I miglioramenti dati dalla chirurgia permangono anche a lungo termine (> 1 anno), tuttavia, a causa della maggior possibilità di complicanze, i genitori preferiscono tentare prima l'approccio conservativo [58].

Il limitato numero di evidenze sull'efficacia e di protocolli di trattamento aumenta la difficoltà per il clinico nel decidere quale sia il miglior approccio terapeutico per il paziente. Ruzbarsky e colleghi [65] propongono per i bambini con meno di 5 anni di età e con possibilità di flessione dorsale oltre la posizione neutra la semplice osservazione, poiché fino ai 5 anni si può avere un miglioramento spontaneo della condizione; se il paziente ha più di 5 anni e una flessione dorsale maggiore di 10°, o si continua con l'osservazione oppure si applica un'ingessatura in massima flessione dorsale per 6 settimane; se invece vi è una limitazione del ROM si procede con l'ingessatura in massima flessione dorsale che viene cambiata ogni 1-2 settimane, aumentando progressivamente i gradi. Davies e colleghi [57] riportano che pazienti con lieve/moderato ITW possono essere trattati con indicazioni di esercizi di stretching, mentre con pazienti di grado moderato/severo è maggiormente efficace l'utilizzo di AFO. Infine, un'interessante modalità di approccio al trattamento è fornita dal concetto "*3-step pyramid insole treatment*" [35] [58], in cui la decisione della modalità di intervento si sviluppa su 3 step: partendo da un approccio conservativo con solette a piramide + fisioterapia, in base ai

risultati ottenuti, si passa dopo 6-8 settimane all'eventuale aggiunta di splint notturni e dopo 12-14 settimane all'utilizzo di iniezioni di tossina botulinica.

### 4.3. Misure di outcome

Le due categorie di misure di outcome maggiormente utilizzate in letteratura sono l'analisi del cammino e la misurazione del ROM dell'articolazione tibio-tarsica [62]. Il ROM viene solitamente misurato attraverso l'utilizzo del goniometro articolare [23] [62], sia in posizione supina a ginocchio esteso sia in posizione prona a ginocchio flesso a 90° [23]. Un'ulteriore modalità di misurazione della flessione dorsale è il weight bearing lunge test [62], in cui il bambino, posto in posizione di affondo sul piano sagittale di fronte ad una parete, viene invitato a portare il più avanti possibile il ginocchio verso la parete mantenendo il tallone a terra. Altre misure di outcome riguardanti l'apparato muscoloscheletrico sono i gradi di lordosi lombare, misurati con un goniometro posto sul punto di apice della curva a livello lombare mentre il bambino è in stazione eretta [23] e l'esame della forza muscolare dell'arto inferiore [62].

Per quanto riguarda l'analisi del cammino, questa viene più frequentemente effettuata attraverso l'utilizzo della Gait Analysis e in particolare con il software Vicon [62]. Inoltre, l'analisi del cammino è spesso associata alla classificazione di Alvarez per la severità del cammino in punta [62]. Sia Christensen sia Ali e colleghi [63] [64] riportano come, tuttavia, gli strumenti utilizzati per l'analisi del cammino (Gait Analysis 3D, il GAITRite, particolari accelerometri, rilevatori all'interno delle calzature) siano costosi e richiedano molto tempo per l'utilizzo; questo li rende poco spendibili nella pratica clinica. La frequenza del cammino in punta viene anche rilevata chiedendo ai genitori di indicare una stima della percentuale, cosa che tuttavia non è sempre affidabile [64]. Un metodo alternativo viene proposto quindi da Christensen e colleghi [64] ed è il *50-ft walk test*, validato dagli autori per la valutazione del cammino nei bambini con ITW e che permette la misurazione della percentuale di toe walking durante il cammino. Con le medesime premesse, Ali e colleghi [63] hanno sviluppato e validato per l'ITW la Clinical Gait Assessment Scale (CGAS), la quale, diversamente dalla precedente, valuta qualitativamente il piede, gli arti superiori, la testa e il tronco con dei punteggi sezione-specifici, utilizzati poi per ricavare un punteggio totale che indica il grado di impairment totale. Questa scala di valutazione è inoltre risultata efficace nella valutazione del cammino su differenti superfici. Spesso accade che i bambini, nel momento della valutazione, sapendo di essere sotto esame, modifichino il pattern di cammino, rendendo poco affidabili i risultati della valutazione. Uno strumento per ovviare a questa possibilità è il cluster di 3 test riportati da Pomarino e colleghi [23], i quali hanno lo scopo di far emergere il pattern in punta e valutare quindi la severità della condizione. Questi tre test sono: lo *Spin Test*, in cui il bambino deve girare su se stesso, il "*Cammino*

*dopo lo spin test*”, in cui al bambino viene richiesto di compiere 10 passi dopo il primo test e infine il test di *cammino sui talloni*; essi sono inoltre uno strumento di misura dell’equilibrio dinamico.

#### **4.4. Limiti dello studio e prospettive future**

Gli articoli inclusi in questa revisione presentano numerosi limiti intrinseci, quali il ridotto numero dei campioni, la scarsa qualità metodologica e la mancanza di indicazioni precise sui protocolli utilizzati. Non vi sono in letteratura molti studi che comparano l’efficacia dei vari trattamenti e, nella maggior parte dei casi, le tempistiche di follow-up sono ridotte, per cui mancano studi che indaghino i risultati nel lungo termine. Al fine di migliorare le possibilità per i clinici di effettuare le giuste scelte per la presa in carico dei pazienti con ITW, sarà necessario innanzitutto indagare maggiormente quali siano le cause del cammino in punta idiopatico: questo anche per poter ricavare un profilo completo delle caratteristiche dei bambini con ITW e quindi impostare gli obiettivi di trattamento non solo in termini di miglioramento dell’articolazione e del cammino ma di tutti gli aspetti sottostanti alla condizione. Accanto a ciò, studi di maggiore qualità metodologica, con indicati dei protocolli precisi in termini di modalità e tempistiche, aiuteranno a fare la differenza nella possibilità di efficacia dell’intervento riabilitativo in questa popolazione.

## CAPITOLO 5: CONCLUSIONI

Questa revisione bibliografica è stata condotta con lo scopo di analizzare e confrontare quelle che sono le più recenti evidenze presenti in letteratura riguardo gli elementi necessari al clinico per la presa in carico riabilitativa del bambino con ITW. Questa condizione, seppur di frequente riscontro nella popolazione generale e nella pratica clinica, presenta ancora numerosi interrogativi riguardo sia l'eziologia sia le caratteristiche principali, cosa che rende complesso comprendere quale sia il miglior approccio di fronte a un bambino Toe Walker. I più recenti studi a riguardo, infatti, evidenziano come la condizione vada oltre il semplice accorciamento del tendine calcaneale, rendendo necessarie ulteriori indagini allo scopo di delineare il profilo globale della condizione sotto ogni aspetto: muscoloscheletrico, comportamentale, neuroevolutivo e sensoriale.

Secondo quanto emerge dalla letteratura, la prima tappa fondamentale nell'approccio al bambino con TW è l'esecuzione di una valutazione accurata al fine di escludere la presenza di cause patologiche di questo pattern di cammino, poiché esso è uno dei primi segni clinici di numerose patologie. Gli strumenti a disposizione per il terapeuta variano dall'esame fisico a quello neurologico a quello delle capacità di integrazione sensoriale. La valutazione, inoltre, nel caso in cui la condizione si riveli idiopatica, permette di individuare quelle che sono le aree, le funzioni, maggiormente inficiate in quel singolo caso; questo potrà poi aiutare il terapeuta nella costruzione dell'intervento riabilitativo su misura per il paziente.

Dato il ridotto numero di studi e di partecipanti agli stessi, la mancanza di follow-up a lungo termine e di concordanza riguardo i protocolli e le misure di outcome da utilizzare, risulta difficile confrontare l'efficacia dei vari trattamenti disponibili. La linea generale che emerge dai risultati è quella di un processo a step sulla base della severità della condizione. Inoltre, una maggiore chiarezza riguardo l'eziologia dell'ITW potrà aprire nuove strade riguardo gli interventi necessari nella presa in carico globale del bambino. Tra le modalità di trattamento, vengono maggiormente riportate l'utilizzo di ortesi, la fisioterapia e, nei casi più severi, la chirurgia; nessuna di queste risulta nettamente più efficace rispetto alle altre, tuttavia si tende ad adottare un approccio a step, partendo dalle opzioni meno invasive (preferite anche dai genitori), per poi eventualmente aumentare il grado di intervento in base agli outcomes ottenuti. È importante, inoltre, che il clinico sappia adattare il trattamento sia in base alle caratteristiche del bambino sia alle aspettative e obiettivi dei genitori, poiché ogni bambino è un mondo a sé che bisogna saper scoprire un po' alla volta. Questo è solamente un punto di partenza per lo sviluppo di nuovi e più approfonditi percorsi in futuro.

## BIBLIOGRAFIA

- [1] Williams C., Tinley P., Curtin M. e Nielsen S. (2013), "*Foot and ankle characteristics of children with an idiopathic toe-walking gait*", Journal of American Podiatric Medical Association, pp. 103(5):374-9.
- [2] Burnett C., Johnson E. (1971), "*Development of gait in childhood*", Developmental Medicine & Child Neurology, pp. 13(2):207-15.
- [3] Oetgen M., Peden S. (2012), "*Idiopathic toe walking*", Journal of the American Academy of Orthopaedic Surgeons, pp. 20(5):292-300.
- [4] Morozova O., Chang T., Brown M. (2017), "*Toe walking: when do we need to worry?*", Current Problems in Pediatric and Adolescent Health Care, pp. 47(7):156-160.
- [5] Westberry D., Davids J., Davis R., De Morais Filho M. (2008), "*Idiopathic toe walking: a kinematic and kinetic profile*", Journal of Pediatric Orthopedics , pp. 28(3):352-8.
- [6] Kalen V., Adler N., Bleck E. (1986), "*Electromyography of idiopathic toe walking*", Journal of Pediatric Orthopedics , pp. 6(1):31-3.
- [7] Williams C., Tinley P., Rawicki B. (2014), "*Idiopathic toe-walking: have we progressed in our knowledge of the causality and treatment of this gait type?*", Journal of American Podiatric Medical Association, pp. 104(3):253-62.
- [8] Williams C., Tinley P., Curtin M. (2010), "*Idiopathic toe walking and sensory processing dysfunction*", Journal of Foot and Ankle Research, p. 16;3:16.
- [9] Fox A., Deakin S., Pettigrew G., Paton R. (2006), "*Serial casting in the treatment of idiopathic toe-walkers and review of the literature*", Acta Orthopaedica Belgica, pp. 72(6):722-30.
- [10] Haynes K., Wimberly R., VanPelt J., Jo C., Riccio A., Delgrado M. (2018), "*Toe Walking: A Neurological Perspective After Referral From Pediatric Orthopaedic Surgeons*", Journal of Pediatric Orthopedics, pp. 38(3):152-156.
- [11] Speedtsberg M., Harsted S., Hestbæk L., Lauridsen H., Bencke J., Holsgaard-Larsen A. (2021), "*Early identification of toe walking gait in preschool children - Development and application of a quasi-automated video screening procedure*", Clinical Biomechanics, p. 84:105321.
- [12] Hall J., Salter R., Bhalla S. (1967), "*Congenital short tendo calcaneus*", Journal of Bone and Joint Surgery, p. 49: 695.
- [13] Griffin P., Wheelhouse W., Shiavi R., Bass W. (1977), "*Habitual toe-walkers. A clinical and electromyographic gait analysis*", The Journal of Bone and Joint Surgery, pp. 59(1):97-101.
- [14] Conrad L., Bleck E. (1980), "*Augmented auditory feed back in the treatment of equinus gait in children*", Developmental Medicine and Child Neurology, pp. 22(6):713-8.
- [15] Williams C., Tinley P., Curtin M. (2010), "*The Toe Walking Tool: a novel method for assessing idiopathic toe walking children*", Gait Posture, pp. 32(4):508-11.
- [16] Accardo P., Morrow J., Heaney M., Whitman B., Tomazic T. (1990), "*Toe walking and Language Development*", Clinical Pediatrics, pp. 31(3):158-60.
- [17] Engelbert R., Gorter J., Uiterwaal C., Van de Putte E., Helders P. (2011), "*Idiopathic toe-walking in children, adolescents and young adults: a matter of local or generalised stiffness?*", BMC Musculoskeletal Disorders, p. 21;12:61.

- [18] Engström P., Tedroff K. (2012), "*The prevalence and course of idiopathic toe-walking in 5-year-old children*", *Pediatrics*, pp. 130(2):279-84.
- [19] Pomarino D., Ramirez Llamas J., Pomarino A. (2016), "*Idiopathic Toe Walking: Family Predisposition and Gender Distribution*", *Foot & Ankle Specialist*, pp. 9(5):417-22.
- [20] Hicks R., Durinick N., Gage J. (1988), "*Differentiation of idiopathic toe-walking and cerebral palsy*", *Journal of Pediatric Orthopaedics*, pp. 8(2):160-3.
- [21] Levine M. (1973), "*Congenital short tendo calcaneus. Report of a family*", *The American Journal of Diseases of Children*, pp. 125(6):858-9.
- [22] Katz M., Mubarak S. (1984), "*Hereditary tendo Achillis contractures*", *Journal of Pediatric Orthopaedics*, pp. 4(6):711-4.
- [23] Pomarino D., Ramirez Llamas J., Pomarino A. (2016), "*Idiopathic Toe Walking: Tests and Family Predisposition*", *Foot & Ankle Specialist*, pp. 9(4):301-6.
- [24] Baber S., Michalitsis J., Fahey M., Rawicki B., Haines T., Williams C. (2016), "*A Comparison of the Birth Characteristics of Idiopathic Toe Walking and Toe Walking Gait Due to Medical Reasons*", *The Journal of Pediatrics*, pp. 171:290-3.
- [25] Shulman L., Sala D., Chu M., McCaul P., Sandler B. (1997), "*Developmental implications of idiopathic toe walking*", *The Journal of Pediatrics*, pp. 130(4):541-6.
- [26] Eastwood D., Dennett X., Shield L., Dickens D. (1997), "*Muscle abnormalities in idiopathic toe-walkers*", *Journal of Pediatric Orthopaedics B*, pp. 6(3):215-8.
- [27] Engelbert R., Van Empelen R., Scheurer N., Helden P., Van Nieuwenhuizen O. (1999), "*Influence of infant-walkers on motor development: mimicking spastic diplegia?*", *European Journal of Paediatric Neurology*, pp. 3(6):273-5.
- [28] Montgomery P., Gauger J. (1978), "*Sensory dysfunction in children who toe walk*", *Physical Therapy*, pp. 58(10):1195-204.
- [29] Ayres A. (1972), "*Improving Academic Scores through Sensory Integration*", *Journal of Learning Disabilities*, pp. 5:338-343.
- [30] Williams C., Tinley P., Curtin M., Nielsen S. (2012), "*Vibration perception thresholds in children with idiopathic toe walking gait*", *Journal of Child Neurology*, pp. 27(8):1017-21.
- [31] Blakemore S., Tavassoli T., Calò S., Thomas R., Catmur C., Frith U., Haggard P. (2006), "*Tactile sensitivity in Asperger syndrome*", *Brain and Cognition*, pp. 61(1):5-13.
- [32] Güçlü B., Tanidir C., Mukaddes N., Unal F. (2007), "*Tactile sensitivity of normal and autistic children*", *Somatosensory & Motor Research*, pp. 24(1-2):21-33.
- [33] Alvarez C., De Vera M., Beauchamp R., Ward V., Black A. (2007), "*Classification of idiopathic toe walking based on gait analysis: development and application of the ITW severity classification*", *Gait Posture*, pp. 26(3):428-35.
- [34] Perry J. (1974), "*Kinesiology of lower extremity bracing*", *Clinical Orthopaedics and Related Research*, pp. (102):18-31.
- [35] Pomarino D., Ramirez Llamas J., Martin S., Pomarino A. (2017), "*Literature Review of Idiopathic Toe Walking: Etiology, Prevalence, Classification, and Treatment*", *Foot & Ankle Specialist*, pp. 10(4):337-342.

- [36] Sobel E., Caselli M., Velez Z. (1997), "*Effect of persistent toe walking on ankle equinus. Analysis of 60 idiopathic toe walkers*", Journal of American Podiatric Medical Association , pp. 87(1):17-22.
- [37] Hill R. (1995), "*Ankle equinus. Prevalence and linkage to common foot pathology*", Journal of American Podiatric Medical Association, pp. 85(6):295-300.
- [38] Sala D., Shulman L., Kennedy R., Grant A., Chu M. (1999), "*Idiopathic toe-walking: a review*", Developmental Medicine & Child Neurology, pp. 41(12):846-8.
- [39] Harkness-Armstrong C., Maganaris C., Walton R., Wright D., Bass A., Baltzopoulos V., O'Brien T. (2021), "*Muscle architecture and passive lengthening properties of the gastrocnemius medialis and Achilles tendon in children who idiopathically toe-walk*", Journal of Anatomy, pp. 239(4):839-846.
- [40] De Oliveira V., Arrebola L., De Oliveira P., Yi L. (2021), "*Investigation of Muscle Strength, Motor Coordination and Balance in Children with Idiopathic Toe Walking: A Case-control Study*", Developmental Neurorehabilitation, pp. 24(8):540-546.
- [41] Fox A., Carty C., Modenese L., Barber L., Lichtwark G. (2018), "*Simulating the effect of muscle weakness and contracture on neuromuscular control of normal gait in children*", Gait & Posture, pp. 61:169-175.
- [42] Perry J., Burnfield J., Gronley J., Mulroy S. (2003), "*Toe walking: muscular demands at the ankle and knee*", Archives of Physical Medicine and Rehabilitation, pp. 84(1):7-16.
- [43] Crenna P., Fedrizzi E., Andreucci E., Frigo C., Bono R. (2005), "*The heel-contact gait pattern of habitual toe walkers*", Gait & Posture, pp. 21(3):311-7.
- [44] McMulkin M., Baird G., Caskey P., Ferguson R. (2006), "*Comprehensive outcomes of surgically treated idiopathic toe walkers*", Journal of Pediatric Orthopaedics, pp. 26(5):606-11.
- [45] Accardo P., Whitman B. (1989), "*Toe walking. A marker for language disorders in the developmentally disabled*", Clinical Pediatrics, pp. 28(8):347-50.
- [46] Engström P., Tedroff K. (2018), "*Idiopathic Toe-Walking: Prevalence and Natural History from Birth to Ten Years of Age*", Journal of Bone and Joint Surgery, pp. 100(8):640-647.
- [47] Solan M., Kohls-Gatzoulis J., Stephens M. (2010), "*Idiopathic toe walking and contractures of the triceps surae*", Foot and Ankle Clinics, pp. 15(2):297-307.
- [48] Dietz F., Khunsree S. (2012), "*Idiopathic toe walking: to treat or not to treat, that is the question*", Iowa Orthopedic Journal, pp. 32:184-8.
- [49] Williams C., Gray K., Davies N., Barkocy M., Fahey M., Simmonds J., Accardo P., Eastwood D., Pacey V. (2020), "*Exploring health professionals' understanding of evidence-based treatment for idiopathic toe walking*", Child: Care, Health and Development, pp. 46(3):310-319.
- [50] Williams C., Robson K., Pacey V., Gray K. (2020), "*American and Australian family experiences while receiving a diagnosis or having treatment for idiopathic toe walking: a qualitative study*", BMJ Open, p. 10(9):e035965.
- [51] Sivaramakrishnan S., Seal A. (2015), "*Fifteen-minute consultation: A child with toe walking*", Archives of Disease in Childhood: Education and Practice Edition, pp. 100(5):238-41.
- [52] Schlough K., Andre K., Owen M., Adelstein L., Hartford M., Javier B., Kern R. (2020), "*Differentiating Between Idiopathic Toe Walking and Cerebral Palsy: A Systematic Review*", Pediatric Physical Therapy, pp. 32(1):2-10.

- [53] Williams C., Tinley P., Curtin M., Wakefield S., Nielsen S. (2014), "*Is idiopathic toe walking really idiopathic? The motor skills and sensory processing abilities associated with idiopathic toe walking gait*", *Journal of Child Neurology*, pp. 29(1):71-8.
- [54] Engström P., Van't Hooft I., Tedroff K. (2012), "*Neuropsychiatric symptoms and problems among children with idiopathic toe-walking*", *Journal of Pediatric Orthopaedics*, pp. 32(8):848-52.
- [55] Van Bommel A., Van de Graaf V., Van den Bekerom M., Vergroesen D. (2014), "*Outcome after conservative and operative treatment of children with idiopathic toe walking: a systematic review of literature*", *Musculoskeletal Surgery*, pp. 98(2):87-93.
- [56] Van Kuijk A., Kusters R., Vugts M., Geurts A. (2014), "*Treatment for idiopathic toe walking: a systematic review of the literature*", *Journal of Rehabilitation Medicine*, pp. 46(10):945-57.
- [57] Davies K., Black A., Hunt M., Holsti L. (2018), "*Long-term gait outcomes following conservative management of idiopathic toe walking*", *Gait & Posture*, pp. 62:214-219.
- [58] Pomarino D., Ramirez Llamas J., Martin S., Pomarino A. (2016), "*The 3-Step Pyramid Insole Treatment Concept for Idiopathic Toe Walking*", *Foot & Ankle Specialist*, pp. 9(6):543-549.
- [59] Herrin K., Geil M. (2016), "*A comparison of orthoses in the treatment of idiopathic toe walking: A randomized controlled trial*", *Prosthetics and Orthotics International*, pp. 40(2):262-9.
- [60] Berger N., Bauer M., Hapfelmeier A., Salzmann M., Prodinger P. (2021), "*Orthotic treatment of idiopathic toe walking with a lower leg orthosis with circular subtalar blocking*", *BMC Musculoskeletal Disorders*, p. 22(1):520.
- [61] Engström P., Bartonek Å., Tedroff K., Orefelt C., Haglund-Åkerlind Y., Gutierrez-Farewik E. (2013), "*Botulinum toxin A does not improve the results of cast treatment for idiopathic toe-walking: a randomized controlled trial*", *Journal of Bone and Joint Surgery*, pp. 95(5):400-7.
- [62] Caserta A., Morgan P., Williams C. (2019), "*Identifying methods for quantifying lower limb changes in children with idiopathic toe walking: A systematic review*", *Gait & Posture*, pp. 67:181-186.
- [63] Ali E., Len A., Ling W., Rao S. (2020), "*Reliability of a New Clinical Gait Assessment Scale for Children with Idiopathic Toe Walking Gait - A Pilot Study*", *Physical & Occupational Therapy in Pediatrics*, pp. 40(6):669-680.
- [64] Christensen C., Haddad A., Maus E. (2017), "*Reliability and Validity of the 50-ft Walk Test for Idiopathic Toe Walking*", *Pediatric Physical Therapy*, pp. 29(3):238-243.
- [65] Ruzbarsky J., Scher D., Dodwell E. (2016), "*Toe walking: causes, epidemiology, assessment, and treatment*", *Current Opinion in Pediatrics*, pp. 28(1):40-6.

## ALLEGATI

### ALLEGATO 1 – Scala PEDro.

#### Scala di PEDro - Italiano

---

1. I criteri di elegibilità sono stati specificati	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:
2. I soggetti sono stati assegnati in maniera randomizzata ai gruppi (negli studi crossover, è randomizzato l'ordine con cui i soggetti ricevono il trattamento)	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:
3. L'assegnazione dei soggetti era nascosta	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:
4. I gruppi erano simili all'inizio dello studio per quanto riguarda i più importanti indicatori prognostici	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:
5. Tutti i soggetti erano "ciechi" rispetto al trattamento	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:
6. Tutti i terapisti erano "ciechi" rispetto al tipo di trattamento somministrato	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:
7. Tutti i valutatori erano "ciechi" rispetto ad almeno uno degli obiettivi principali dello studio	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:
8. I risultati di almeno un obiettivo dello studio sono stati ottenuti in più dell'85% dei soggetti inizialmente assegnati ai gruppi	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:
9. Tutti i soggetti analizzati al termine dello studio hanno ricevuto il trattamento (sperimentale o di controllo) cui erano stati assegnati oppure, se non è stato così, i dati di almeno uno degli obiettivi principali sono stato analizzato per "intenzione al trattamento"	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:
10. I risultati della comparazione statistica tra i gruppi sono riportati per almeno uno degli obiettivi principali	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:
11. Lo studio fornisce sia misure di grandezza che di variabilità per almeno uno degli obiettivi principali	no <input type="checkbox"/> si <input type="checkbox"/>	dove:

---

La scala di PEDro è basata sulla lista Delphi sviluppata da Verhagen e colleghi al Department of Epidemiology, University of Maastricht (*Verhagen AP et al (1998). The Delphi list: a criteria list for quality assessment of randomised clinical trials for conducting systematic reviews developed by Delphi consensus. Journal of Clinical Epidemiology, 51(12):1235-41*). La lista è basata principalmente sul "consenso degli esperti" e non su dati empirici. Sono stati aggiunti due item non presenti nella Delphi list (items 8 e 10 della scala di PEDro). Più dati sperimentali saranno disponibili più sarà possibile "pesare" gli item della scala cosicché il punteggio di PEDro possa rispecchiare l'importanza dei singoli punti.

L'obiettivo della scala di PEDro è di aiutare ad identificare rapidamente quali studi clinici randomizzati, noti o sospetti (es: RCTs or CCTs), archiviati nel database di PEDro hanno una validità interna (criteri 2-9) e hanno informazioni statistiche sufficienti per renderne i risultati interpretabili (criteri 10-11). Un ulteriore criterio (criterio 1) correlato con la validità esterna (o "generabilità" o "applicabilità") è stato mantenuto cosicché la Delphi list è completa. Quest'ultimo criterio non viene però usato per calcolare i punteggi di PEDro presenti sul sito web.

La scala di PEDro non dovrebbe essere usata come misura di "validità" delle conclusioni di uno studio. In particolare avvertiamo gli utilizzatori di PEDro che trattamenti significativamente efficaci di studi con punteggi alti nella scala non necessariamente sono clinicamente utili. Un'ulteriore considerazione riguarda il fatto se l'effetto del trattamento sia sufficientemente grande da essere rilevante clinicamente, se gli effetti positivi di un trattamento siano maggiori di quelli negativi ed il rapporto costo-efficacia di un trattamento. La scala non dovrebbe essere usata per confrontare la "qualità" di studi in differenti aree terapeutiche. Questo perché in alcune aree della pratica fisioterapia non è possibile soddisfare la scala in tutti i suoi item.

Emendata l'ultima volta il 21 giugno 1999  
Traduzione italiana è stata completata 19 maggio 2014

## ALLEGATO 2 – Scala AMSTAR 2.

AMSTAR 2: a critical appraisal tool for systematic reviews that include randomised or non-randomised studies of healthcare interventions, or both

### 1. Did the research questions and inclusion criteria for the review include the components of PICO?

For Yes:

- Population
- Intervention
- Comparator group
- Outcome

Optional (recommended)

- Timeframe for follow-up

Yes  
 No

### 2. Did the report of the review contain an explicit statement that the review methods were established prior to the conduct of the review and did the report justify any significant deviations from the protocol?

For Partial Yes:

The authors state that they had a written protocol or guide that included ALL the following:

- review question(s)
- a search strategy
- inclusion/exclusion criteria
- a risk of bias assessment

For Yes:

As for partial yes, plus the protocol should be registered and should also have specified:

- a meta-analysis/synthesis plan, if appropriate, *and*
- a plan for investigating causes of heterogeneity
- justification for any deviations from the protocol

Yes  
 Partial Yes  
 No

### 3. Did the review authors explain their selection of the study designs for inclusion in the review?

For Yes, the review should satisfy ONE of the following:

- Explanation* for including only RCTs
- OR *Explanation* for including only NRSI
- OR *Explanation* for including both RCTs and NRSI

Yes  
 No

### 4. Did the review authors use a comprehensive literature search strategy?

For Partial Yes (all the following):

For Yes, should also have (all the following):

- searched at least 2 databases (relevant to research question)
- provided key word and/or search strategy
- justified publication restrictions (e.g. language)
- searched the reference lists / bibliographies of included studies
- searched trial/study registries
- included/consulted content experts in the field
- where relevant, searched for grey literature
- conducted search within 24 months of completion of the review

Yes  
 Partial Yes  
 No

### 5. Did the review authors perform study selection in duplicate?

For Yes, either ONE of the following:

- at least two reviewers independently agreed on selection of eligible studies and achieved consensus on which studies to include
- OR two reviewers selected a sample of eligible studies and achieved good agreement (at least 80 percent), with the remainder selected by one reviewer.

Yes  
 No

### 6. Did the review authors perform data extraction in duplicate?

For Yes, either ONE of the following:

- at least two reviewers achieved consensus on which data to extract from included studies
- OR two reviewers extracted data from a sample of eligible studies and achieved good agreement (at least 80 percent), with the remainder extracted by one reviewer.

Yes  
 No

### 7. Did the review authors provide a list of excluded studies and justify the exclusions?

For Partial Yes:

- provided a list of all potentially relevant studies that were read in full-text form but excluded from the review

For Yes, must also have:

- justified the exclusion from the review of each potentially relevant study

Yes  
 Partial Yes  
 No

### 8. Did the review authors describe the included studies in adequate detail?

For Partial Yes (ALL the following):

For Yes, should also have ALL the following:

- described populations
- described interventions
- described comparators
- described outcomes
- described research designs

- described population in detail
- described intervention in detail (including doses where relevant)
- described comparator in detail (including doses where relevant)
- described study's setting
- timeframe for follow-up

Yes  
 Partial Yes  
 No

### 9. Did the review authors use a satisfactory technique for assessing the risk of bias (RoB) in individual studies that were included in the review?

RCTs

For Partial Yes, must have assessed RoB from:

- un concealed allocation, *and*
- lack of blinding of patients and assessors when assessing outcomes (unnecessary for objective outcomes such as all-cause mortality)

For Yes, must also have assessed RoB from:

- allocation sequence that was not truly random, *and*
- selection of the reported result from among multiple measurements or analyses of a specified outcome

Yes  
 Partial Yes  
 No  
Includes only NRSI

### NRSI

For Partial Yes, must have assessed RoB:

- from confounding, *and*
- from selection bias

For Yes, must also have assessed RoB:

- methods used to ascertain exposures and outcomes, *and*
- selection of the reported result from among multiple measurements or analyses of a specified outcome

Yes  
 Partial Yes  
 No  
Includes only RCTs

### 10. Did the review authors report on the sources of funding for the studies included in the review?

For Yes

- Must have reported on the sources of funding for individual studies included in the review. Note: Reporting that the reviewers looked for this information but it was not reported by study authors also qualifies

Yes  
 No

11. If meta-analysis was performed did the review authors use appropriate methods for statistical combination of results?

<b>RCTs</b>	
For Yes:	<input type="checkbox"/> The authors justified combining the data in a meta-analysis <input type="checkbox"/> AND they used an appropriate weighted technique to combine study results and adjusted for heterogeneity if present. <input type="checkbox"/> AND investigated the causes of any heterogeneity
	<input type="checkbox"/> Yes <input type="checkbox"/> No <input type="checkbox"/> No meta-analysis conducted
<b>For NRSI</b>	
For Yes:	<input type="checkbox"/> The authors justified combining the data in a meta-analysis <input type="checkbox"/> AND they used an appropriate weighted technique to combine study results, adjusting for heterogeneity if present <input type="checkbox"/> AND they statistically combined effect estimates from NRSI that were adjusted for confounding, rather than combining raw data, or justified combining raw data when adjusted effect estimates were not available <input type="checkbox"/> AND they reported separate summary estimates for RCTs and NRSI separately when both were included in the review
	<input type="checkbox"/> Yes <input type="checkbox"/> No <input type="checkbox"/> No meta-analysis conducted

12. If meta-analysis was performed, did the review authors assess the potential impact of RoB in individual studies on the results of the meta-analysis or other evidence syntheses?

For Yes:	<input type="checkbox"/> included only low risk of bias RCTs <input type="checkbox"/> OR, if the pooled estimate was based on RCTs and/or NRSI at variable RoB, the authors performed analyses to investigate possible impact of RoB on summary estimates of effect.
	<input type="checkbox"/> Yes <input type="checkbox"/> No <input type="checkbox"/> No meta-analysis conducted

13. Did the review authors account for RoB in individual studies when interpreting/ discussing the results of the review?

For Yes:	<input type="checkbox"/> included only low risk of bias RCTs <input type="checkbox"/> OR, if RCTs with moderate or high RoB, or NRSI were included the review provided a discussion of the likely impact of RoB on the results
	<input type="checkbox"/> Yes <input type="checkbox"/> No

14. Did the review authors provide a satisfactory explanation for, and discussion of, any heterogeneity observed in the results of the review?

For Yes:	<input type="checkbox"/> There was no significant heterogeneity in the results <input type="checkbox"/> OR, if heterogeneity was present the authors performed an investigation of sources of any heterogeneity in the results and discussed the impact of this on the results of the review
	<input type="checkbox"/> Yes <input type="checkbox"/> No

15. If they performed quantitative synthesis did the review authors carry out an adequate investigation of publication bias (small study bias) and discuss its likely impact on the results of the review?

For Yes:	<input type="checkbox"/> performed graphical or statistical tests for publication bias and discussed the likelihood and magnitude of impact of publication bias
	<input type="checkbox"/> Yes <input type="checkbox"/> No <input type="checkbox"/> No meta-analysis conducted

16. Did the review authors report any potential sources of conflict of interest, including any funding they received for conducting the review?

For Yes:	<input type="checkbox"/> The authors reported no competing interests OR <input type="checkbox"/> The authors described their funding sources and how they managed potential conflicts of interest
	<input type="checkbox"/> Yes <input type="checkbox"/> No

ALLEGATO 3A – Tabella riassuntiva revisioni della letteratura, studi osservazionali e studio pilota.

Studio	Tipologia di studio	Obiettivo	Campione	Principali risultati
Schlough K. <i>et al.</i> (2020)	Revisione sistematica	Identificare le componenti chiave del processo di valutazione che aiutino il clinico nella differenziazione tra ITW e PCI (diplegia spastica lieve) e quindi nell' inserimento del paziente all' interno della diagnosi di movimento corretta, ovvero deficit di coordinazione per i primi, deficit di frazionamento del movimento per i secondi.	Sono stati inclusi in totale 5 studi, tutti con un livello di evidenza 3, che includono pazienti con diagnosi di ITW e PCI e che misurano, secondo il modello dell' ICF, funzioni e strutture corporee e il livello di attività. Il campione totale è di 140 partecipanti di età compresa tra i 2 e i 16 anni.	Strutture e funzioni corporee: - ROM e lunghezza muscolare: no differenze statisticamente rilevanti nel ROM in dorsiflessione tra pz con ITW e pz con PCI; i pz con PCI mostrano un' importante riduzione dell' angolo popliteo (rigidità ischio-cruale). - Spasticità: maggior grado di spasticità del tricipite surale (misurata con scala Ashworth) nei pz con PCI. - EMG statica: al contrario dei pz con ITW, i pz con PCI presentano coattivazione di quadricipite e gastrocnemi durante l' estensione contro resistenza del ginocchio. Livello di attività: - Analisi del cammino ed EMG dinamica: bambini con ITW presentano un' alterazione della cinematica sul piano sagittale della caviglia, mentre a livello di anca e ginocchio non presentano variazioni. I pz con PCI, invece, presentano alterazioni della cinematica di tutti i segmenti dell' arto inferiore (caviglia, ginocchio e anca); le alterazioni a livello della caviglia sono differenti tra i due gruppi. Entrambi i gruppi presentano riduzione di velocità, cadenza e lunghezza del passo; tuttavia, non vi sono differenze significative tra i due gruppi.
Williams C.M. <i>et al.</i> (2014)	Studio osservazionale	Investigare le differenze per quanto riguarda le abilità motorie e di integrazione sensoriale tra bambini con ITW e coetanei " sani".	60 bambini di età compresa tra 4 e 8 anni, divisi in due gruppi: il primo composto da 30 bambini con ITW e il secondo da 30 non toe walkers (TW) " sani".	I risultati ottenuti dall' applicazione dei diversi strumenti di misura sono stati: - Bruininks-Oseretsky Test of Motor Proficiency (2° edizione): valuta le abilità grosso- e fini-motorie di bambini tra i 4 e i 21 anni. I bambini non TW hanno avuto performance migliori rispetto ai bambini con ITW; questi, confrontando i risultati con i valori attesi in base all' età, hanno ottenuto punteggi significativamente inferiori in tre aree: coordinazione bilaterale, equilibrio e coordinazione degli arti superiori. - Sensory Integration and Praxis Test: misura le capacità di integrazione sensoriale nei bambini. L' unico sottotest che ha riportato una correlazione significativa con l' ITW è stato lo " Standing Walking Balance". - Sensory Profile: questionario di 125 domande che vengono rivolte ai genitori riguardo la capacità del bambino di adattarsi in risposta a situazioni ambientali differenti; viene quindi ricavato un punteggio di quattro specifici patterns sensoriali, ovvero registrazione, ricerca, sensibilità ed evitamento. I risultati nei " quadranti" della ricerca e della registrazione si sono dimostrati minori nei bambini con ITW. - Soglia di percezione vibratoria: test per misurare quantitativamente la percezione degli input tattili. I bambini con ITW hanno presentato un' ipersensibilità agli stimoli tattili.
Engström P. <i>et al.</i> (2012)	Studio osservazionale	Quantificare la presenza di sintomi neuropsichiatrici tra bambini con ITW.	51 bambini di età tra i 4 e i 14 anni, i cui genitori riferiscono la presenza di cammino in punta da almeno 1 anno. I bambini sono stati inizialmente sottoposti a un esame neurologico; sono stati quindi raccolti i dati riguardo lo sviluppo neuropsichiatrico (linguaggio, comportamento, ecc.). Infine, ai genitori è stato sottoposto il questionario " Five to Fifteen" (FTF), allo scopo di indagare la presenza di sintomi neuropsichiatrici in bambini dai 5 ai 15 anni.	Nell' analisi dei dati del questionario FTF è stato utilizzato il 90° percentile come cut off per la presenza di problemi clinicamente evidenti; il 98° percentile invece per la presenza di severi problemi. La maggior parte dei bambini del campione ha ottenuto un punteggio al di sopra del 90° percentile. In 5 domini (abilità motorie, funzioni esecutive, memoria, linguaggio e apprendimento) è stata riscontrata una percentuale maggiore di bambini all' interno del campione, rispetto a quella che riportano le statistiche nei bambini " sani", che hanno ottenuto un punteggio oltre il 98° percentile.

Studio	Tipologia di studio	Obiettivo	Campione	Principali risultati
Van Bemmel A.F. <i>et al.</i> (2014)	Revisione sistematica	Valutare ed analizzare le evidenze presenti in letteratura riguardo l' utilizzo di casting (ingessature o ortesi) e il trattamento chirurgico in bambini con ITW e/o deformità in equino.	10 studi pubblicati tra il 1998 e il 2012, per un totale di 430 partecipanti. Di questi, 298 sono stati inclusi nella review: 113 trattati con casting 185 chirurgicamente.	<p><u>Flessione dorsale della caviglia</u>: con il trattamento chirurgico c' è stato un miglioramento maggiore del ROM in flessione dorsale.</p> <p><u>Frequenza del cammino in punta</u>: nel gruppo di bambini trattati con casting il 52,1% viene descritto come " cammino in punta persistente" ; nel gruppo chirurgico il 43,6%.</p> <p><u>Soddisfazione</u>: dopo il trattamento con casting uno studio ha riportato una soddisfazione dei genitori pari al 100%, un altro del 23,5%. Dopo la chirurgia uno studio ha riportato il 100%, un secondo invece il 66,7%.</p> <p><u>Complicanze</u>: 2 bambini hanno riportato complicanze nel trattamento con casting (ulcere); 8 invece nel gruppo chirurgico, tra cui 6 con tendinite, 1 infezione della ferita chirurgica, 1 frattura della caviglia durante l' operazione di allungamento del gastrocnemio.</p>
Van Kuijk A.A. <i>et al.</i> (2014)	Revisione sistematica	Valutare l' efficacia delle opzioni di trattamento disponibili per il bambino con ITW all' interno dei tre domini principali dell' ICF.	19 studi pubblicati tra il 1966 e il 2013 la cui popolazione comprendesse bambini con ITW tra i 2 e i 18 anni.	<p><u>PROM tibio-tarsica</u>: immediatamente dopo il termine del trattamento con casting vi è un miglioramento dei gradi articolari. La durata di questi risultati sembra tuttavia breve, mentre dopo il trattamento chirurgico i risultati sembrano mantenersi anche nel lungo termine (più di 1 anno).</p> <p><u>Gait Analysis</u>: vi sono dei miglioramenti dei parametri del cammino sia nei bambini trattati con casting sia in quelli trattati con chirurgia, tuttavia non vi è una normalizzazione assoluta di tutti i parametri.</p> <p><u>Percezione dei genitori</u> riguardo la performance del cammino: nel lungo termine non vi sono differenze, secondo quanto riportato dai genitori, nella diminuzione della frequenza del cammino in punta tra bambini con ITW trattati conservativamente e bambini non trattati. Anche dopo il trattamento chirurgico fino al 33% dei genitori afferma che il TW non è cessato.</p>
Pomarino D. <i>et al.</i> (2016)	Revisione della letteratura	Individuare in letteratura quali siano le opzioni di trattamento per l' ITW, e presentare le informazioni riguardo il concetto " 3-step-pyramid insole treatment" .	37 studi pubblicati dopo il 2000, 2 dei quali riguardanti il concetto " 3-step-pyramid insole treatment" .	<p><u>Fisioterapia</u>: l' opzione maggiormente utilizzata, tuttavia gli studi non sono precisi riguardo i protocolli da utilizzare. Gli strumenti principali sono: allungamento dei gastrocnemi, mobilizzazione della tibio-tarsica ed esercizi di coordinazione.</p> <p><u>Casting</u>: diversi metodi utilizzati in letteratura, tuttavia l' obiettivo è quello di ridurre la resistenza alla flessione dorsale passiva e allungare i gastrocnemi. Gli effetti sul lungo termine sono ancora dibattuti.</p> <p><u>Tossina botulinica</u>: la sua iniezione prima del trattamento con casting non ne aumenta l' efficacia. La sua combinazione con la fisioterapia e/o l' utilizzo di dozze di posizione sembra essere l' opzione più efficace.</p> <p><u>Chirurgia</u>: con lo scopo di allungare il complesso muscolo-tendineo del tricipite surale. Porta a un miglioramento dei parametri del cammino e del ROM in flessione dorsale della caviglia dopo 13 mesi. Tuttavia, la maggior parte dei genitori esprime di preferire un approccio conservativo.</p> <p><u>3-step-pyramid insole treatment</u>: la combinazione di fisioterapia e l' utilizzo di solette e in alcuni casi splint notturni sembra essere efficace e senza rischi né controindicazioni particolari. L' uso di solette porta a un miglioramento del cammino nel 70% dei pazienti.</p>
Pomarino D. <i>et al.</i> (2016)	Studio osservazionale	Presentare i metodi di valutazione clinica specifici per l' individuazione del grado di severità della condizione in bambini con ITW.	836 bambini con ITW + reclutati successivamente 55 bambini " sani" . I bambini con ITW sono stati inoltre suddivisi in due categorie in base alla presenza o meno di una predisposizione familiare.	<p><u>Spin test</u>: al bambino viene chiesto di girare più veloce possibile sul posto fino a un massimo di 10 giri. Si annota dopo quanti giri inizia a stare sulle punte e quanti passi esegue senza stare sulle punte.</p> <p><u>Camminare dopo lo spin test</u>: chiesto al bambino di compiere 10 passi dopo lo spin test e si annota dopo quanti passi inizia a stare sulle punte.</p> <p><u>Test di cammino sui talloni</u>: test positivo se il pz non è in grado di camminare sui talloni o se mostra compensi a tronco, ginocchia e caviglia.</p> <p><u>ROM flessione dorsale caviglia</u>: misurato a ginocchio esteso e flesso. Maggiore la restrizione, maggiore la severità.</p> <p><u>Gradi di lordosi lombare</u>: misurata con goniometro nel punto di maggiore convessità della curva in stazione eretta. Maggiore la curva maggiore il grado di severità.</p> <p>In tutti i test i bambini con storia familiare positiva per cammino in punta hanno mostrato una maggiore severità della condizione.</p>

Studio	Tipologia di studio	Obiettivo	Campione	Principali risultati
Caserta A. <i>et al.</i> (2018)	Revisione sistematica	Identificare e valutare l' utilità clinica, la validità e l' affidabilità delle scale di misura e degli strumenti di verifica utilizzati in letteratura per quantificare i cambiamenti all' arto inferiore nei bambini con ITW.	27 articoli la cui popolazione è formata da bambini con ITW.	Gli outcomes maggiormente utilizzati sono la misurazione del ROM della caviglia e l' analisi del cammino. Altri strumenti sono: accelerometro, EMG, forza, esami neurologici e radiografie. La classificazione di Alvarez è un sistema di valutazione valido e utilizzabile senza costi eccessivi.
Ali E. <i>et al.</i> (2020)	Studio pilota	Valutare l' affidabilità intra- e inter-operatore della Clinical Gait Assessment Scale (CGAS), scala di misura osservazionale sviluppata per valutare l' ITW. Analizzare inoltre l' affidabilità della scala nel valutare il cammino in punta su diverse superfici.	4 operatori (2 fisioterapisti e 2 studenti di fisioterapia) hanno valutato ognuno i video di 4 bambini con ITW mentre camminano in diverse condizioni: pavimento di linoleum, tappeto, percorso ad ostacoli e su una base ristretta (trave).	I punteggi sezione-specifici per quanto riguarda il piede, la testa e il tronco sono coerenti tra i 4 valutatori e hanno un livello di affidabilità eccellente. Quelli riguardo la sezione delle braccia, invece, variano e hanno un' affidabilità moderata. Il valore di alterazione del movimento del piede varia poco nel confronto tra le quattro situazioni di cammino esaminate; il valore, invece, di braccia e testa/tronco è parecchio maggiore nel percorso ad ostacoli e nella trave. Il percorso ad ostacoli è la condizione più difficile da valutare e che ha dimostrato punteggi minori di affidabilità.
Christensen C. <i>et al.</i> (2017)	Studio osservazionale	Investigare l' affidabilità inter-operatore e la validità del " 50-ft walk test" (FWT) per bambini con ITW. Valutare l' effetto del livello di esperienza sulla capacità del fisioterapista di identificare un passo in punta.	30 bambini di età compresa tra 6 e 18 anni con diagnosi di ITW. Operatori: 3 fisioterapisti con 9,4 e 6 anni di esperienza.	L' affidabilità inter-operatore del test è eccellente, con coefficiente di correlazione intraclasse (ICC) di 0.98 e un intervallo di confidenza per il 95% da 0.96 a 0.99. No differenze significative tra i fisioterapisti con 4 e 9 anni di esperienza nella differenza di punteggio tra l' operatore e il GAITRite.

Studio	Tipologia di studio	Obiettivo	Campione	Trattamento	Principali risultati
Haynes K.B. <i>et al.</i> (2018)	Studio osservazionale retrospettivo	Analizzare i risultati della valutazione condotta in una clinica neurologica su pazienti che presentavano toe walking (TW), inviati alla stessa dopo aver eseguito una visita ortopedica.	174 bambini con cammino in punta, che sono stati precedentemente valutati in una clinica di chirurgia ortopedica, per poi essere inviati al neurologo pediatrico per ulteriori accertamenti condotti tra gennaio 2010 e settembre 2015.		<p>Dei 174 bambini totali, a 108 (62%) è stata diagnosticata una patologia neurologica che spiegava quindi la presenza del TW. I 66 rimanenti sono stati classificati come “idiopatici”.</p> <p>All’ esame clinico e fisico è stato riscontrato che:</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>- Il 55% dei bambini con PCI ha avuto problematiche durante il parto o una nascita prematura;</li> <li>- L’ età di inizio della deambulazione nei bambini con ITW era nella norma;</li> <li>- Segni del I motoneurone sono presenti nel 90% dei bambini con PCI e nel 30% di quelli con ITW;</li> <li>- Il 65% dei bambini con ITW presenta una contrattura del tricipite surale, contro un 43% presente nei bambini con altra diagnosi;</li> <li>- La maggior parte (86%) dei bambini con TW unilaterale ha avuto poi una diagnosi di patologia neurologica; il pattern di TW bilaterale asimmetrico si trova principalmente nei bambini con PCI piuttosto che negli idiopatici;</li> <li>- Al 15,7% del campione è stato poi diagnosticato un Disturbo dello Spettro Autistico, mentre all’ 8,3% ADHD.</li> </ul>
Davies K. <i>et al.</i> (2018)	Studio osservazionale retrospettivo	Evidenziare le differenze negli outcomes a lungo termine e nella severità del cammino in punta tra bambini con ITW trattati con casting/ortesi e bambini a cui sono stati indicati degli esercizi di stretching da eseguire in	43 pazienti tra una coorte di 133 bambini che avevano partecipato tra il 1997 e il 2005 a uno studio sull’ ITW condotto in un centro di riabilitazione. Sono stati esclusi coloro i quali negli anni hanno ricevuto una diagnosi diversa da quella di ITW.	<p>Gruppo “ attivo” (n=23): trattamento con casting e/o ortesi AFO più/meno tossina botulinica.</p> <p>Gruppo “ non attivo” (n=20): esercizi di stretching da eseguire in autonomia.</p>	<p>Dati estratti dall’ analisi del cammino: vi sono stati miglioramenti nella cinematica e cinetica del cammino in entrambi i gruppi, tuttavia nel gruppo di bambini trattati “ attivamente” il miglioramento è stato maggiore. La limitazione nella flessione dorsale passiva è aumentata nel tempo in entrambi i gruppi. È stata riscontrata, inoltre, la presenza in entrambi i gruppi di un’ iperestensione compensatoria del ginocchio con la persistenza di un alterato momento interno di flessione plantare.</p> <p>Severità del cammino in punta (individuata tramite la classificazione di Alvarez): nel gruppo di trattamento “ attivo” il 52% ha riferito di camminare ancora in modo intermittente in punta, tuttavia, nel 74% dei casi, la severità è diminuita. Nel gruppo di trattamento “ inattivo”, il 35% ha migliorato il grado di severità, mentre nel 10% è peggiorato; il 45% ha riportato di camminare ancora saltuariamente sulle punte.</p>
Herrin K. <i>et al.</i> (2015)	Trial clinico randomizzato controllato (RCT)	Confrontare l’ efficacia dell’ utilizzo di ortesi AFO (ankle-foot orthosis) rispetto ad ortesi FO (foot orthosis) con una soletta di carbonio rigido nel trattamento dell’ ITW.	18 bambini di età compresa tra 2 e 8 anni con diagnosi di ITW che non si fossero sottoposti precedentemente ad un intervento chirurgico di allungamento. Sono stati poi suddivisi a random in due gruppi, ognuno composto da 9	<p>Gruppo 1: utilizzo di ortesi AFO articolate con stop in flessione plantare, contenimento del calcagno e due strappi di chiusura (uno alla caviglia e uno a livello del polpaccio).</p> <p>Gruppo 2: utilizzo di FO attaccate a una soletta di carbonio rigido a tutta lunghezza del piede.</p> <p>Entrambe le tipologie di ortesi sono state fabbricate su misura e dal medesimo tecnico ortopedico.</p> <p>Durata del trattamento: 6 settimane.</p> <p>Al follow-up è stata condotta un’ analisi del cammino sia con le ortesi indossate sia con le calzature abituali del bambino.</p>	<p>L-test: nessuna differenza statisticamente significativa tra i due gruppi.</p> <p>Analisi del cammino: indossando le ortesi, il gruppo AFO mostra una maggiore velocità nel cammino; inoltre, gli AFO si sono mostrati efficaci al 100% nel prevenire l’ appoggio al suolo di punta, mentre nel gruppo FO il 13% ancora presentava un appoggio di punta o a tutta pianta. I miglioramenti osservati nel cammino con gli AFO non si mantengono nel cammino con le scarpe. Il gruppo FO ha mostrato una minor quantità di miglioramenti nel cammino con ortesi, tuttavia nel cammino con le scarpe sono stati in grado di mantenerli.</p>

Studio	Tipologia di studio	Obiettivo	Campione	Trattamento	Principali risultati
Berger N. <i>et al.</i> (2021)	Studio osservazionale retrospettivo	Valutare l'efficacia fino a 2 anni del trattamento dell' ITW con un' ortesi gamba-piede dotate di un' unità circolare al piede.	22 pazienti ricercati nel database della struttura tra il 2014 e il 2018 con diagnosi di ITW e con un minimo di follow-up di 2 anni.	Tutti i 22 partecipanti sono stati sottoposti al trattamento con ortesi per 16 settimane: durante le prime 6 hanno indossato le ortesi 23h/die e nelle 4 successive solamente di notte. Dopodiché i pz sono stati liberi di adattare il tempo di utilizzo ai propri bisogni.	<u>Gait Analysis</u> : dopo 12 mesi di trattamento si è riscontrata una normalizzazione dei parametri del cammino nel 73% dei casi. Possibilità di recidiva: al secondo anno di follow-up vi è stata un' elevata percentuale di recidiva (32%) con necessità di ricominciare il trattamento. <u>ROM in dorsiflessione della tibio-tarsica</u> : aumento dei gradi articolari nel breve termine, dopodiché non vi è più alcun miglioramento.
Engström P. <i>et al.</i> (2013)	Trial clinico randomizzato controllato (RCT)	Valutare se la tossina botulinica ottimizza i risultati del trattamento dell' ITW con ortesi AFO.	47 bambini con ITW che non si fossero sottoposti ad altri trattamenti precedentemente.	<u>Gruppo CA (n=26)</u> : trattamento con AFO bilaterali per 4 settimane. <u>Gruppo CA + BX (n=21)</u> : 4 iniezioni di tossina botulinica in ogni polpaccio, dopodiché 4 settimane di utilizzo di ortesi AFO. Entrambi i gruppi sono stati istruiti all' esecuzione di esercizi di stretching 5 volte a settimana e a camminare sui talloni per almeno 50 passi al giorno dopo la rimozione degli AFO.	<u>Gait analysis</u> : miglioramenti dei parametri in entrambi i gruppi a 3 e 12 mesi, ma no differenze significative tra i due. <u>Percezione dei genitori sulla frequenza del cammino in punta e la severità</u> : no differenze significative tra i due gruppi. Non sono stati riscontrati effetti collaterali. <u>PROM dorsiflessione caviglia e forza muscoli flessori dorsali</u> : aumento gradi di flessione plantare a ginocchio sia flessa sia estesa, ma no differenze rilevanti tra i due gruppi. La forza muscolare è aumentata in modo significativo in entrambi i gruppi ma senza differenze intergruppo. <u>Problemi neuropsichiatrici associati</u> : valutati attraverso la somministrazione del questionario FTI ai genitori. No correlazione tra il numero di domini in cui il bambino presentava un punteggio oltre il 90° percentile e gli effetti del trattamento.

ALLEGATO 3C – Tabella riassuntiva pareri di esperti e revisione narrativa.

Studio	Tipologia di studio	Principali risultati
Sivaramakrishnan S. <i>et al.</i> (2015)	Parere di esperti	Il focus della valutazione del bambino con ITW deve essere quello di individuare la severità della condizione e l' eziologia. Per determinare il grado di severità sono state individuate alcune domande da utilizzare per indagare la condizione muscoloscheletrica (debolezza/rigidità del tricipite surale, ROM della tibio-tarsica, presenza di alterazioni strutturali ad altri distretti), la frequenza del toe walking e l' impatto di questa condizione sulla vita quotidiana del bambino (presenza di dolore, cadute frequenti, instabilità e la difficoltà percepita dal bambino/genitori). Per individuare l' eziologia (o la causa principale), gli autori ritengono importanti due step: 1) raccogliere informazioni riguardo la <i>storia del bambino</i> (nascita, parto, storia familiare, inizio del toe walking, presenza di disturbi neuroevolutivi o ipo/ipersensibilità); 2) effettuare un <i>esame fisico</i> che comprenda la valutazione dell' apparato muscoloscheletrico, l' analisi del cammino in diverse condizioni, l' esame neurologico e dello sviluppo.
Pomarino D. <i>et al.</i> (2017)	Revisione narrativa	Nella prima parte dell' articolo vi è un' introduzione riguardo l' eziologia, la classificazione e la diagnosi differenziale dell' ITW. Nella seconda parte vengono riportate le principali evidenze riguardo le opzioni di trattamento più frequenti, sia conservativo sia chirurgico.
Ruzbarsky J.J. <i>et al.</i> (2016)	Parere di esperti	Prima parte dell' articolo: introduzione e panoramica generale sulle caratteristiche dell' ITW. Seconda parte: nella <i>valutazione</i> importante osservare come il bambino cammina e come varia il pattern in base alle situazioni. Altre valutazioni sono: misurazione del ROM di anca (e angolo di antiversione femorale), ginocchio e caviglia (Silverskiold test), palpazione dei tessuti, valutazione di lassità legamentosa e dello stato della cute. L' esame neurologico è utile per differenziare l' ITW da altre condizioni patologiche, come anche alcuni esami di laboratorio e di imaging. Riguardo il <i>trattamento</i> vengono presentate come opzioni: rinforzo verbale, fisioterapia, ortesi, ingessature in flessione dorsale della caviglia e l' approccio chirurgico. Esistono pochi studi in letteratura che comparano l' efficacia delle varie opzioni, rendendo difficile scegliere quale sia il metodo più adatto.