

Anquiloglosia: “Lengua Atada”

Jessica Levi y Kimberly Russell

Antecedentes

Anquiloglosia, que deriva de las palabras griegas “agklios”, que significa encorvada y “glossa” lengua; ocurre en aproximadamente el 10.2% de los nacidos vivos¹ con múltiples estudios con una incidencia alrededor del 4%². La lengua se une al piso de la boca a través de un pliegue de tejido conocido como el frenillo, el cual restringe el movimiento de la lengua. Sin embargo, cuando el movimiento es excesivamente restringido, resulta en una anquiloglosia. La anquiloglosia también se conoce como frenillo corto o lengua atada y se considera una anomalía congénita menor.

Normalmente, la lengua se extiende y protruye fuera de la boca sin dificultad y más allá de los rebordes alveolares superiores e inferiores. En un paciente con anquiloglosia, él o ella no puede extender la lengua más allá de las crestas alveolares y / o no es capaz de levantar la lengua para tocar el paladar. La anquiloglosia no es un fenómeno nuevo. Horton detalla en un artículo de 1967, los informes de las parteras antiguas, las cuales rompían los frenillos con las uñas sucias para liberar las lenguas³.

Embriología

Durante el desarrollo fetal, la lengua y el suelo de la boca se fusionan. A través de la degeneración celular y la apoptosis, estas estructuras se separan. El tejido que permanece, es el frenillo lingual. Cuando queda demasiado tejido, el resultado es la anquiloglosia.

Genética

La causa de la anquiloglosia es generalmente desconocida. Sin embargo, ha habido informes de una posible herencia familiar en la literatura^{4,5}. Un estudio reportó la identificación de una familia con anquiloglosia aislada heredada con un patrón autosómico dominante o recesivo en Irán⁴. La anquiloglosia también se ha asociado a un pequeño número de enfermedades raras como el síndrome de paladar hendido ligado al X y el síndrome de van der Woude. Los pacientes con síndrome de paladar hendido ligado al cromosoma X y anquiloglosia han mostrado mutaciones en el gen del factor de transcripción T-box TBX22⁶.

Epidemiología

La incidencia generalmente reportada en la literatura actual está alrededor de 4%² pero se ha informado hasta el 10% en algunos estudios¹. Hay un 2: 1 relación hombre-mujer de anquiloglosia de acuerdo a múltiples estudios^{2,7} y puede ser diagnosticado en los recién nacidos, niños y adultos. Ha habido una amplia gama de incidencia reportada debido a una probable falta de uniformidad en la definición y las diferencias en las definiciones utilizadas para el diagnóstico¹.

Diagnóstico

La anquiloglosia generalmente se diagnostica poco después del nacimiento basado en el examen físico por un médico del personal de la sala de recién nacidos. Una valoración oral más detallada y un diagnóstico subsecuente, generalmente surge por la dificultad a la alimentación. Se examina la extensión, lateralización, capacidad de levantar y succión de la lengua. Algunos casos no son diagnosticados hasta más tarde en la vida e inclusive hasta la edad adulta.

Figura 1 A a J. Ejemplos de frenillos linguales



Actualmente, no existe una definición estandarizada sobre el diagnóstico de la anquiloglosia. Los criterios propuestos para el diagnóstico han incluido longitud del frenillo lingual, la cantidad de movimiento de la lengua, la apariencia de la punta de la lengua de ser 'en forma de corazón', y la palpación de tejido fibroso al examen físico ⁸ (**Figuras 1 A a J**).

Del mismo modo, se han propuesto varios sistemas de clasificación, pero ninguno ha sido universalmente aceptado para su uso. Algunos sistemas de clasificación se basan principalmente en las medidas

de la longitud del frenillo. Otros son más visuales y se pueden basar en donde se une el frenillo. Una clasificación es la clasificación Kotlow, la cual mide la distancia de la inserción del frenillo lingual a la punta de la lengua y se divide en cuatro clases ⁹. (**Tabla 1**)

Otro sistema de clasificación que se utiliza con frecuencia, se basa en que tan cerca de la punta de la lengua se adhiere el borde distal del frenillo. Existen cuatro tipos los cuales se enumeran en la **Tabla 2**. Tipos 1 y 2 se consideran frenillos linguales cortos, clásicos y obvios mientras que los Tipos 3 y 4 son menos comunes y más difíciles de apreciar al examen físico. A menudo no se diagnostican ¹⁰.

Tabla 1. Cuatro clases de Anquiloglosia ⁹.

Clase	Descripción
I	Anquiloglosia leve, 12-16mm
II	Anquiloglosia Moderado 8-11mm
III	Anquiloglosia grave, 3-7mm
IV	Anquiloglosia completa, <3 mm

Tabla 2. Cuatro tipos de Anquiloglosia.

Tipo	Descripción
Tipo 1	Fijación del frenillo a la punta de la lengua, por lo general frente a la cresta alveolar en el surco labio inferior
Tipo 2	Fijación del frenillo dos a cuatro milímetros detrás de la punta de la lengua y se une sobre o justo detrás de la cresta alveolar
Tipo 3	El frenillo corto es la unión de la mitad de la lengua a la mitad del suelo de la boca y suele ser más tenso y menos elástico
Tipo 4	Esencialmente contra la base de la lengua, es muy grueso, brillante, e inelástica

Algunos estudios describen la clasificación anterior y posterior de los frenillos linguales ¹¹. La anquiloglosia anterior se describe como Tipos 1 y 2. La anquiloglosia posterior se caracteriza como los Tipos 3 y 4.

Hong, *et al* hizo el diagnóstico de la frenillo lingual posterior cuando el frenillo no era muy prominente en la inspección, pero se cree tenso a la palpación manual o resulta ser anormalmente prominente, corto, grueso o fibroso similar a un cordón, con el uso del retractor ranurado ⁸.

Secuelas

La lengua es importante en la deglución, la masticación y el lenguaje. Por lo tanto, uno puede concluir que si en la anquiloglosia la movilidad de la lengua está comprometida, puede entonces existir patología en esas áreas.

Por lo tanto como consecuencia del frenillo corto, existen preocupaciones de la disfunción a principios y a finales del desarrollo. La disfunción temprana gira en torno a la dificultad de la lactancia materna en recién nacidos debido al mal apego, la transferencia ineficaz de leche, pérdida excesiva de peso con retraso en el desarrollo, tiempos de alimentación prolongados, y dolor en los pezones y el trauma

para la madre. Las secuelas tardías pueden incluir dificultades en la pronunciación de algunos sonidos, en la alimentación (no puede lamer el helado de cono), la alineación incorrecta de los dientes inferiores en la unión del frenillo, dificultad para tocar instrumentos de viento, y la disminución de la higiene bucal secundario a la incapacidad para lamersse los labios o los dientes. Algunos de estos problemas enumerados tienen más impacto social en el paciente que médico, pero puede ser lo suficientemente grave como para justificar la corrección quirúrgica.

Frenillo corto y lactancia

En los últimos tiempos, ha habido mucha controversia en torno a los efectos de la anquiloglosia en la lactancia materna, especialmente dado el renovado impulso a las madres de amamantar a los recién nacidos.

La lactancia materna es un reflejo neonatal. La anquiloglosia puede impedir el movimiento peristáltico, normal de la lengua, durante la lactancia. Marmet *et al.*¹² observaron que el frenillo corto causaba que la lengua avanzara hacia el piso de la boca rápidamente, lo que podría llevar a un sello ineficaz en la mama o inducir al niño a sujetar con mayor firmeza el pecho con la succión; lo que puede causar dolor significativo para la madre. Sin embargo, hay que tener en cuenta que existen numerosas causas que pueden causar dificultad para amamantar, tales como la transferencia placentaria de la medicación; falta de contacto piel a piel entre la madre y el bebé; otras anomalías anatómicas del paladar, mandíbula, labio; y etiologías neuromusculares. Es importante evaluar todas las posibles causas que conducen a dificultades de la lactancia materna.

Hay una serie de estudios que evalúan el frenillo corto y la lactancia¹³. Algunos resultados muestran dificultades con la lactancia materna en recién nacidos con anquiloglosia, especialmente dentro de la primera semana de nacimiento. Rieke, *et al.*, realizaron un estudio de casos y controles; encontraron que las madres de los bebés con anquiloglosia eran 3 veces más propensas a abandonar la lactancia materna y recurrir al biberon. Sin embargo, al mes no hubo diferencia significativa en el número de madres en periodo de lactancia entre los bebés con anquiloglosia en comparación con aquellos sin ankyloglossia.¹⁴

En el mismo estudio, también hubo un número de madres con bebés con anquiloglosia quienes informaron cursar sin ninguna absoluta dificultad para la lactancia materna¹⁴. Por otra parte, aun cuando existen problemas relacionados con la anquiloglosia, el frenillo puede estirarse con el tiempo sin ninguna intervención, llevando a la mejoría. Un estudio de control aleatorio por Emond *et al.*¹⁵ examinaron la eficacia de frenectomía en el tratamiento de anquiloglosia usando las puntuaciones LATCH (cierre, deglución audible, tipo pezón, confort y engancho) y no encontraron ninguna mejoría en la lactancia después de la frenctomía. LATCH es una puntuación validada de 10 puntos, con valor predictivo moderado para identificar a madres en riesgo de suspensión precoz a causa de heridas en los pezones.^{15,16}

Un aumento en el dolor al amamantar se ha asociado con la lactancia materna en recién nacidos con anquiloglosia. Sin embargo, el dolor del pezón es común con la lactancia materna. Buck *et al.*¹⁷ reportaron que de las madres dando lactancia que fueron encuestadas, un 79% reportaron dolor en el pezón. Este número se redujo a 20% después de 8 semanas de la lactancia materna.

Una reciente revisión sistemática de la literatura fue realizada por Francis *et al*¹⁸ con los hallazgos que muestran una pequeña cantidad de evidencia que sugiere que la corrección quirúrgica de anquiloglosia puede estar asociada con mejorías en los reportes de las madres en relación a la lactancia materna, y potencialmente en el dolor del pezón, pero con estudios pequeños, de corto plazo con metodología inconsistente, la fuerza de la evidencia es baja o insuficiente. En la actualidad, no hay una respuesta clara en cuanto a los efectos de la lengua atada y la lactancia materna; y las recomendaciones para el tratamiento.

Lengua Atada y Movilidad y Lenguaje

Las preocupaciones surgen en relación con la movilidad y el desarrollo del habla en los pacientes con anquiloglosia. Los problemas asociados con la limitación mecánica de la lengua puede dar lugar a dificultades en el habla en la pronunciación de las consonantes como "t", "d", "n", y "l", y hacer que sea difícil de rodar una "r", ya que estos sonidos requieren elevación de la punta de la lengua lo que puede ser inhibida por la anquiloglosia en diversos grados. Sin embargo, muchos pacientes con anquiloglosia tienen un lenguaje normal al ser evaluados por los terapeutas de lenguaje, y claramente se adaptan para realizar estos sonidos bien¹⁹.

Hay estudios que evalúan la movilidad de la lengua y del habla antes y después^{7,19-21} de la liberación quirúrgica. En uno de estos estudios, Messner, *et al* evaluaron (en un estudio prospectivo), 30 niños de 1 a 12 años de edad con anquiloglosia, los cuales fueron sometidos a frenectomía⁷. Los padres de 83% de los pacientes creían que su lenguaje era afectado negativamente. Sus resultados mostraron una mejoría significativa después de frenuloplastia en la movilidad de la lengua y en el habla, en niños con anquiloglosia que tenían problemas de articulación⁷. Según Webb, sin embargo; no hay datos suficientes en la literatura sobre ninguna asociación significativa entre las dificultades del habla y anquiloglosia y por lo tanto, por este motivo, no recomiendan la frenectomía en la primera infancia¹⁹.

Manejo

El tratamiento para la anquiloglosia incluye el manejo conservador de observación, así como la corrección quirúrgica. El tratamiento depende del médico tratante, gravedad de los síntomas de la anquiloglosia, y los deseos de los padres y / o paciente dependiendo de la edad del paciente.

En cuanto al tratamiento en los recién nacidos, muchas fuentes recomiendan la observación en lugar de la cirugía, a menos que, la lengua atada se traduzca en dificultad para amamantarse en conjunto con una pérdida de peso significativa del recién nacido. Se cree que con el tiempo, el frenillo puede estirarse y / o el bebé aprende a compensar. Ninguna intervención quirúrgica se recomienda como mínimo antes de 24 horas de nacido y antes de que la madre y el bebé hayan trabajado con un equipo de lactancia, si está disponible. Sólo después de 24 horas y con evidencia de una mejoría mínima o nula en la dificultad de engancho o dolor, se deberá considerar la frenectomía. Buryk, *et al* recomiendan esperar hasta el día 2-6 de vida para establecer el patrón de lactancia materna²². El tratamiento quirúrgico se recomienda en niños o adultos con anquiloglosia si resulta en dificultad para hablar (es decir, la pronunciación de ciertas consonantes), no obstante esto debe ser evaluado por un terapeuta del habla primero cuando sea posible. Otra indicación

es la dentición cuando los incisivos centrales inferiores parecen estar torcidos. La higiene oral es otro motivo de preocupación. Comer, como lamiendo un cono de helado, o estigmas sociales son indicaciones relativas más suaves.

Tratamiento quirúrgico

El tratamiento quirúrgico ha existido desde tiempos antiguos. Literatura de la década de 1800 describe parteras dejando una de sus uñas largas con el fin de liberar el frenillo lingual después del nacimiento²³. El tratamiento quirúrgico, moderno más popular y conocido en los recién nacidos implica la realización de un simple recorte del frenillo lingual conocido como frenulectomía, también descrito como frenotomía o frenuloplastia por algunos.



Figura 2 A. Equipo necesario para frenectomía.



Figura 2 B. Un retractor de lengua ranurado.



Figura 3. Identificación de frenillo lingual.

El proceso real de realizar una frenectomía en un recién nacido puede ser relativamente rápido, con un tiempo aproximado de 3-5 minutos y de bajo riesgo en comparación con otros procedimientos quirúrgicos. La **Figura 2A** muestra el equipo necesario para Frenectomía (guantes, sacarosa oral, pinza hemostática recta, tijeras de iris, gasa de 2x2 y la **Figura 2B** muestra un retractor de lengua ranurado) y la **Figura 3** el frenillo identificado. Antes de realizar el procedimiento, es imperativo para el cirujano revisar los riesgos y beneficios del procedimiento y el qué esperar después del procedimiento, con la familia. Los riesgos incluyen sangrado, infección, falla en la mejoría en la lactancia materna, fallo en la prevención de alteraciones del habla o de la dentición,

cicatrización con la recurrencia de los síntomas, la necesidad de repetir o realizar otros procedimientos, sangrado que posiblemente requiera suturas, y lesiones de las estructuras circundantes incluyendo la lengua, suelo de la boca, y conductos submandibulares. Una vez que los riesgos y beneficios del procedimiento han sido



Figura 4. La administración de sacarosa al neonato.



Figura 5. Presión lingual del frenillo.

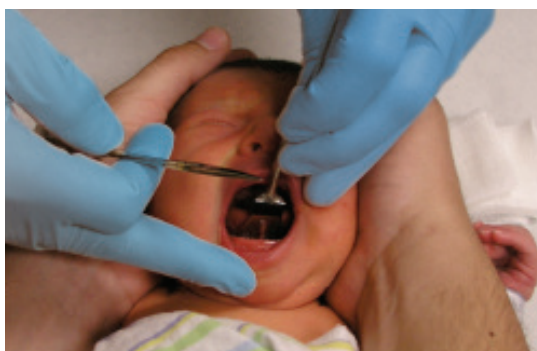


Figura 6. Elevación de la lengua con un retractor ranurado.

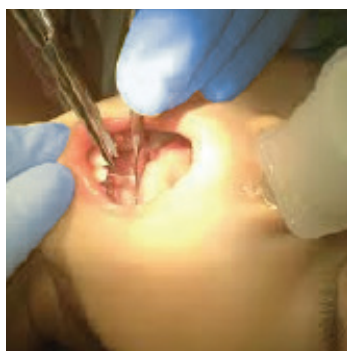


Figura 7. Liberación del frenillo lingual.

revisados con los padres y el consentimiento informado obtenido, el neonato se traslada generalmente a una sala de procedimientos cercana, por parte del personal de enfermería si todavía está en el hospital o se realiza en la clínica.

Primero se le administra sacarosa por vía oral el cual puede actuar como un analgésico en el recién nacido (**Figura 4**). A continuación, el cirujano utiliza su o sus dedos para levantar la lengua del neonato exponiendo el frenillo o utiliza un instrumento ranurado (retractor ranurado lingual **Figura 2B**) que también puede ser usado para retraer la lengua y exponer el frenillo lingual. Una vez que se logra la exposición y visualización adecuada, se coloca una pequeña pinza hemostática en la zona del frenillo lingual donde se realizará el corte durante unos 30 segundos, y luego se retira (**Figura 5**). Esto ayuda a desvascularizar la zona y disminuir el sangrado. Finalmente, se utilizan una tijeras pequeñas de iris para cortar el frenillo lingual en la trayectoria de la marca de la pinza; (**Figura 6 y 7**) liberando la lengua mientras se tiene cuidado de no lesionar los conductos submandibulares cercanos. Por lo general hay sangrado leve que resuelve rápidamente. El bebé se devuelve a sus padres y puede comenzar inmediatamente la lactancia.

En los niños mayores o adultos, el procedimiento se realiza generalmente bajo anestesia general en el quirófano usando cauterio monopolar. Algunos médicos colocan suturas pero éstas no son siempre necesarias. Sin embargo, hay informes de la utilización de CO₂ y YAG y otras procedimientos más complicados para la liberar la lengua, técnicas tales como Z-plastia o plastia VY²⁴⁻²⁷.

Complicaciones

Las complicaciones de frenectomía en la antigüedad incluían sangrados masivos de la arteria lingual e infecciones que conllevan a una inflamación de la lengua, posible asfixia y muerte. Afortunadamente, estas complicaciones son generalmente desconocidas hoy en día. La complicación más frecuente después de frenectomía sencilla, es un sangrado leve que suele ser autolimitado o resuelve con una presión leve; algunos casos pueden requerir una sutura o dos ²³.

Hay informes de casos extraños de pacientes que desarrollaron infecciones o edema después del tratamiento quirúrgico en áreas tales como el suelo de la boca y sublinguales / regiones submandibulares, pero de nuevo, esto es muy extraño ^{28,29}. Shirinoglu ²⁸ reportó un caso de edema submandibular horas después de realizar una frenectomía bajo anestesia general en un niño de 3 años. Esto se cree que fue secundario a las suturas colocadas que obliteraron el orificio de los ductos de Wharton. No hubo compromiso de las vías respiratorias o dificultad para comer. El paciente se observó en el hospital con la administración de antibióticos por vía intravenosa y medicamentos anti-inflamatorios, con una recuperación sin complicaciones ²⁸.

Conclusión

Los problemas asociados con la limitación mecánica de la lengua debido a anquiloglosia son: dificultades en la lactancia materna entre los recién nacidos, la maloclusión, inadecuada higiene bucal y dificultades en el habla.

En los últimos años, dado el renovado impulso de la lactancia materna en los recién nacidos, ha surgido de nuevo el interés de los efectos de anquiloglosia y la necesidad de tratamiento. La literatura actual no es clara respecto a los efectos de anquiloglosia y la lactancia. Sin embargo, dado que hay evidencia que sugiere que la corrección quirúrgica puede mejorar apego y potencialmente alentar a las madres a amamantar por más tiempo además del bajo riesgo del procedimiento; la frenectomía debe ser considerada en los recién nacidos con anquiloglosia. Muchos pacientes de edad avanzada con anquiloglosia son asintomáticos y no requieren ningún tratamiento en lo absoluto, no obstante, hay personas con secuelas específicas en los cuales se puede justificar también considerar realizarlo.

La anquiloglosia ha sido una entidad conocida por periodo de tiempo muy largo. Se presenta de muchas formas, tamaños, espesores, severidades. Actualmente no existen criterios universales de diagnóstico ni sistemas de clasificación. Se espera poder acordar en un futuro próximo, una definición y un sistema de clasificación universal que ayudaría a obtener datos más objetivos sobre los efectos de la anquiloglosia.

Referencias bibliográficas

1. Suter VG, Bornstein MM. Ankyloglossia: facts and myths in diagnosis and treatment. *J Periodontol.* 2009;80(8): 1204–1219.
2. Messner, AH, et al. Ankyloglossia: Incidence and associated feeding difficulties. *Archives of Otolaryngology Head and Neck Surgery.* 2000 Jan. 126(1). 36-9.
3. Horton, et al. Tongue-Tie. American Cleft Palate Association. 1967.
4. Morowati, S., et al. Familial ankyloglossia (tongue-tie): a case report. *Acta Medica Iranica.* 2010 Mar. 48(2). 123-4.

5. Klockars, T. Familial ankyloglossia (tongue-tie). *International Journal of Otorhinolaryngology*. 2007 Aug. 71(8). 1341-4.
6. Pauws, E., et al. A functional haplotype variant in the TBX22 promoter is associated with cleft palate and ankyloglossia. *Journal of Medical Genetics*. 2009 Aug. 46(8). 555-61.
7. Messner AH, Lalakea ML. The effect of ankyloglossia on speech in children. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;127:539-545
8. Hong, P., et al. Defining ankyloglossia: A case series of anterior and posterior tongue ties. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*. 74(2010). 1003-1006.
9. Kotlow LA. Ankyloglossia (tongue-tie): A diagnostic and treatment quandary. *Quintessence Int*. 1999;30:259-62.
10. Coryllos, E., et al. Congenital tongue-tie and its impact on breastfeeding. *American Academy of Pediatrics, Breastfeeding: Best for Baby and Mother*. 2004, 1-11.
11. O'Callahan, C., et al. The effects of office-based frenotomy for anterior and posterior ankyloglossia on breastfeeding. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 77 (2013). 827-832.
12. Marmet, C., et al. Neonatal frenotomy may be necessary to correct breastfeeding problems. *Journal of Human Lactation*. 1990 Sept. 6(3). 117-121.
13. Hall, DM, et al. Tongue tie. *Archives of Disease in Childhood*. 2005 Dec. 90(12). 1211-5.
14. Ricke, L., et al. Newborn Tongue-tie: Prevalence and effect on breastfeeding. *Journal of the American Board of Family Practice*. 2005 Jan. 18(1). 1-7.
15. Emond A, Ingram J, Johnson D, et al. Randomized controlled trial of early frenotomy in breastfed infants with mild-moderate tongue-tie. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 2014;99:F189- F195.
16. Cawse-Lucas, et al. Clinical inquiry: Does fenotomy help infants with tongue tie overcome breastfeeding difficulties? *Journal of Family Practice*. 2015 Feb. 64(2):127-7.
17. Buck, ML, et al. Nipple pain, damage, and vasospasm in the first 8 weeks postpartum. *Breastfeeding Medicine: The Official Journal of the Academy of Breastfeeding Medicine*. 2014 Mar. 9(2). 56-62.
18. Francis, DO, et al. Treatment of ankyloglossia and breast feeding outcomes: a systematic review. *Pediatrics*. 2015 June. 1458-66
19. Webb, A., et al. The effect of tongue-tie division on breastfeeding and speech articulation: A systematic review. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*. 77 (2013) 635-646.
20. Lalakea, M., Messner, AH. Ankyloglossia: the adolescent and adult perspective. *Otolaryngology, Head Neck Surgery*. 2003. 128(5)746-752.
21. Walls, A., et al. Parental perception of speech and tongue mobility in three-year olds after neonatal frenotomy. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*. 2013 Jan. 78(1):128-31.
22. Buryk, M., et al. Efficacy of neonatal release of ankyloglossia: a randomized trial. *Pediatrics*. 2011 Aug. 128(2). 280-8.
23. Brookes, A., Bowley DM. Tongue tie: the evidence for frenotomy. *Early Human Development*. 2014 Nov. 90(11):765-8.
24. Yousefi, J., et al. Tongue-tie Repair: Z-Plasty Vs Simple Release. *Iranian Journal of Otorhinolaryngology*. 2015 Mar. 27(79). 127-35.
25. Devishree, et al. Frenectomy: A review with the reports of surgical techniques. *Journal of Clinical Diagnostic Research*. 2012 Nov. 6(9). 1587-1592.
26. Barot, VJ., et al. Laser: The torch of freedom for ankyloglossia. *Indian Journal of Plastic Surgery*. Dec 2014. 47(3). 418-22.
27. Johnson, P et al. Tongue-tie – exploding the myths. *Infant*. 2006. Volume 2. Issue 3. 96-99
28. Sirinoglu, H., et al. Subacute massive edema of the submandibular region after frenuloplasty. *The Journal of Caniofacial Surgery*. 2013 Jan. 24(1) e74.
29. Isaiah, A., et al. Infected sublingual hematoma: a rare complication of frenulectomy. *Ear, Nose, and Throat Journal*. 2013 Jul. 92(7). 296-7.