

ORIGINAL BREVE

Prevalencia de anquiloglosia en recién nacidos en el Principado de Asturias



D. González Jiménez^{a,*}, M. Costa Romero^b, I. Riaño Galán^c, M.T. González Martínez^d, M.C. Rodríguez Pando^e y C. Lobete Prieto^f

^a Servicio de Pediatría, Hospital Carmen y Severo Ochoa, Cangas del Narcea, España

^b Neonatología, Área de Gestión Clínica de Pediatría, Hospital Central de Asturias, Oviedo, España

^c Servicio de Pediatría, Hospital San Agustín, Avilés, España

^d Servicio de Pediatría, Hospital de Cabueñes, Gijón, España

^e Servicio de Pediatría, Hospital Valle del Nalón, Langreo, España

^f Servicio de Pediatría, Hospital del Oriente de Asturias, Arriondas, España

Recibido el 8 de abril de 2013; aceptado el 14 de octubre de 2013

Disponible en Internet el 25 de noviembre de 2013

PALABRAS CLAVE

Anquiloglosia;
Frenillo lingual corto;
Lactancia materna

KEYWORDS

Ankyloglossia;
Tongue-tie;
Breastfeeding

Resumen

Introducción: La prevalencia de anquiloglosia ha sido estimada alrededor del 4% de los recién nacidos vivos. Se desconoce la situación a nivel nacional.

Material y métodos: Estudio multicéntrico, observacional, prospectivo en el que participaron 6 hospitales asturianos. Durante 3 meses se exploró a todos los recién nacidos los días domingo, martes y jueves. Para el diagnóstico de anquiloglosia se utilizaron los criterios de Coryllos y Hazelbaker.

Resultados: Se exploró a 667 recién nacidos. La prevalencia de anquiloglosia fue del 12,11% (IC 95%: 9,58-14,64). El 62% eran varones. Uno de cada 4 niños con anquiloglosia tenía antecedentes familiares de frenillo lingual corto. Según la clasificación de Coryllos el tipo II fue el más frecuente (54%).

Conclusiones: La prevalencia de anquiloglosia en Asturias fue 2 o 3 veces superior a la esperada.

Es necesario unificar los criterios diagnósticos, así como realizar estudios para conocer su asociación con dificultades en la lactancia u otros problemas posteriores.

© 2013 Asociación Española de Pediatría. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Prevalence of ankyloglossia in newborns in Asturias (Spain)

Abstract

Introduction: The prevalence of ankyloglossia has been estimated at around 4% of live births. Its prevalence at national level is unknown.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: domixixon@gmail.com (D. González Jiménez).

Material and methods: Multicenter, prospective observational study. Six hospitals in Asturias took part. All newborns were examined on Sundays, Tuesdays and Thursdays for 3 months. Coryllos and Hazelbaker criteria were used to diagnose ankyloglossia.

Results: The prevalence in the 667 newborns examined was 12.11% (95% CI: 9.58 to 14.64), of whom 62% were male. One in 4 children with ankyloglossia had a family history. According to Coryllos' classification, type II was the most common (54%).

Conclusions: The prevalence of ankyloglossia in Asturias was 2 to 3 times higher than expected.

The diagnostic criteria for ankyloglossia needs to be unified, and further studies are required to determine the association with breastfeeding difficulties and other health problems.

© 2013 Asociación Española de Pediatría. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

La anquiloglosia es un remanente embriológico de tejido entre la superficie inferior de la lengua y el suelo de la boca, que restringe la normalidad de movimiento de la lengua¹.

Precisamente se ha relacionado con dificultades para el agarre y dolor materno, que son 2 de las principales causas de abandono de la lactancia en nuestro medio¹. Por tanto, podría ser responsable de problemas con la lactancia, circunstancia no demostrada fundamentalmente por las limitaciones metodológicas de los estudios publicados.

La clasificación de Hazelbaker² es la herramienta habitualmente utilizada como método diagnóstico. Su principal inconveniente es la escasa concordancia interobservador, principalmente en los ítems de función³. La clasificación de Coryllos permite diferenciar los distintos tipos de anquiloglosia según su lugar de inserción.

No existen criterios clínicos estandarizados y objetivos para su diagnóstico, por lo que las prevalencias observadas en la bibliografía son variables (4-10%), con métodos de estudio diferentes lo que dificulta o impide su comparación^{1,4,5}. En nuestra comunidad se publicó una prevalencia del 2% en niños escolares⁶. Sin embargo, se desconoce la prevalencia en recién nacidos a nivel nacional y regional. Nuestro objetivo fue conocer la prevalencia actual de anquiloglosia en Asturias.

Material y métodos

Tipo de estudio

Estudio multicéntrico, observacional y prospectivo en el que participaron 6 de los 8 hospitales públicos del Principado de Asturias.

Durante 3 meses (del 1 de junio al 31 de agosto de 2012) un investigador exploró en cada centro a todos los bebés nacidos en domingo, martes y jueves. Se excluyó a aquellos menores de 34 semanas de edad gestacional o menores de 1.500 g. Para la participación se solicitó previamente la autorización mediante consentimiento informado. Se obtuvo la aprobación del estudio por el Comité Regional de Ética de Investigación (N.º 68/2012).

Definición de caso

Mediante la inspección y la palpación de la lengua y su función en las exploraciones realizadas durante las primeras 48 h de vida, se clasificó a los bebés según tuvieran o no anquiloglosia. Con el objetivo de unificar criterios, se realizó, previamente al inicio del estudio, un taller mediante imágenes y con prácticas en recién nacidos para el adiestramiento de todos los participantes en la aplicación de la clasificación de Hazelbaker, así como un estudio piloto durante un mes. Para clasificar a un paciente con anquiloglosia debía cumplir los 2 requisitos siguientes:

- Criterios anatómicos: presentar mediante inspección o palpación una membrana anterior a la base de la lengua que se extendiera hacia el suelo de la boca. Los pacientes se clasificaron según la clasificación de Coryllos⁷ (fig. 1).
- Criterios de función: puntuación menor o igual a 4 sobre 6 analizando los 3 primeros ítems de función de la clasificación de Hazelbaker: lateralización, elevación y extensión de la lengua³ (tabla 1).

Cálculo del tamaño muestral

En Asturias tienen lugar unos 1.750 nacimientos al trimestre. Se estimó una muestra de 625 recién nacidos, a partir de una prevalencia estimada del 2-5%, una precisión deseada del 1,2-1,8% y un nivel de confianza del 95%.

Resultados

Se exploró un total de 677 recién nacidos, de los cuales 82 cumplían criterios diagnósticos de anquiloglosia. La prevalencia total fue del 12,11% (IC 95%: 9,58-14,64). Por hospitales, la prevalencia osciló entre el 3,4 y el 50% (fig. 2).

De los 82 pacientes con frenillo lingual corto, un 62% eran varones. El 57% procedían de un parto eutócico, el 37% de un parto instrumental y el 6% restante nació por cesárea. Uno de cada 4 recién nacidos con anquiloglosia tenía antecedentes familiares, tratándose en la mayoría de los casos (86%) de familiares de primer grado: padres o hermanos.

Según la clasificación anatómica de Coryllos 10 pacientes (12%) tenían un frenillo tipo I, 43 pacientes (54%) tenían un tipo II, 19 pacientes (24%) un tipo III y 8 pacientes (10%)

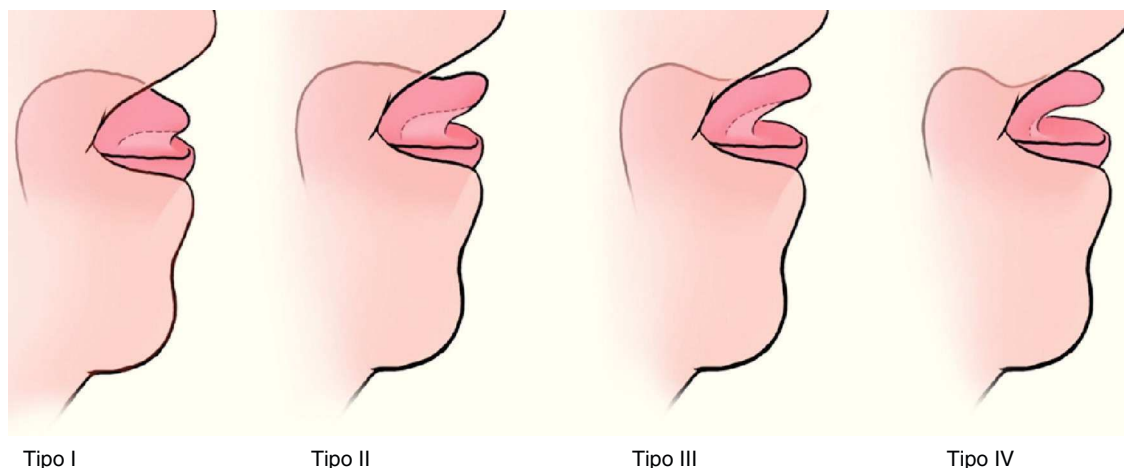


Figura 1 Clasificación anatómica de Coryllos

- Tipo I: Frenillo fino y elástico; la lengua está anclada desde la punta hasta el surco alveolar y se observa en forma de corazón.
- Tipo II: Frenillo fino y elástico; la lengua está anclada desde 2-4mm de la punta hasta cerca del surco alveolar.
- Tipo III: Frenillo grueso, fibroso y no elástico; la lengua está anclada desde la mitad de la lengua hasta el suelo de la boca.
- Tipo IV: El frenillo no se ve, se palpa, con un anclaje fibroso o submucoso grueso y brillante desde la base de la lengua hasta el suelo de la boca.

Tabla 1 Clasificación de Hazelbaker

Apariencia	Función
<i>Apariencia de la lengua al elevarla</i> 2: redonda o cuadrada 1: Leve hendidura en la punta 0: Forma de v o de corazón	<i>Lateralización</i> 2: Completa 1: el cuerpo de la lengua pero no la punta 0: Nada
<i>Elasticidad del frenillo</i> 2: Muy elástico 1: Moderadamente elástico 0: Casi nada elástico	<i>Elevación de la lengua</i> 2: La punta toca cielo de la boca 1: Solo los bordes llegan 0: La punta queda en borde alveolar o solo lo toca al cerrar
<i>Longitud del frenillo cuando la lengua se eleva</i> 2: > 1 cm 1: 1 cm 0: < 1 cm	<i>Extensión de la lengua</i> 2: La punta sobrepasa el labio inferior 1: La punta llega solo a la encía inferior 0: No alcanza lo anterior o la lengua se encorva
<i>Unión del frenillo a la lengua</i> 2: Posterior a la punta 1: Hasta la punta 0: Punta mellada	<i>Extensión de la parte anterior de la lengua</i> 2: Completa 1: Moderada o parcial 0: Poco o nada
<i>Unión del frenillo al surco alveolar inferior</i> 2: Pegada al suelo de la boca o bajo el surco 1: Pegada al surco 0: Unida al surco	<i>Efecto ventosa («cupping»)</i> 2: Todo el borde 1: Solo en los lados de los bordes 0: Pobre o no ventosa <i>Peristaltismo</i> 2: Completo, anterior y posterior 1: Parcial, se origina posterior a la punta 0: Nada o invertido <i>Chasquido</i> 2: Ninguno 1: Periódico 0: Frecuente o en cada succión

Tabla 2 Clasificación anatómica de los casos de anquiloglosia distribuidos según el centro hospitalario donde se diagnosticaron

Tipo de frenillo	Hospital						TOTAL
	HSA	HUCA	HCAB	HOA	HVN	HCSO	
I	3	1	3	0	1	2	10
II	13	17	8	1	4	0	43
III	2	4	2	0	11	0	19
IV	0	1	0	0	7	0	8
SC	0	0	1	0	1	0	2
Total (diagnosticados/explorados)	18/196	23/250	14/135	1/29	24/48	2/19	82/677

HCAB: Hospital de Cabueñes; HCSO: Hospital Carmen y Severo Ochoa; HOA: Hospital del Oriente de Asturias; HSA: Hospital San Agustín; HUCA: Hospital Central de Asturias; HVN: Hospital Valle del Nalón; SC: sin clasificar.

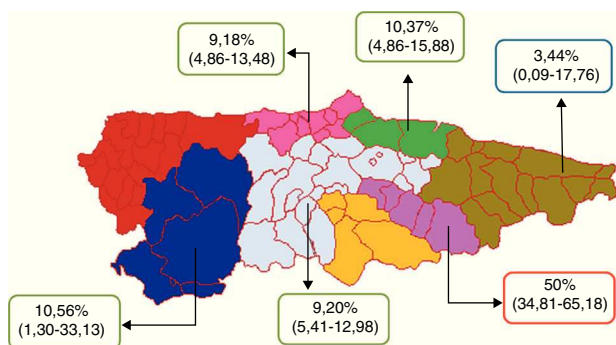


Figura 2 Prevalencia de anquiloglosia en las distintas áreas sanitarias del Principado de Asturias. Se expresan como porcentaje e intervalo de confianza al 95% entre paréntesis.

un tipo IV. La distribución por hospitales se muestra en la [tabla 2](#).

Discusión

La prevalencia del 12% es la más alta publicada hasta el momento, entre 2 y 3 veces superior a la esperada^{1,4,5,8,9}. Esta circunstancia nos recuerda la importancia de la exploración de la cavidad oral en los recién nacidos, haciendo especial hincapié en la presencia de anquiloglosia.

La clasificación de Coryllos permitió identificar mediante palpación frenillos tipo III y IV que pueden pasar desapercibidos a la visualización⁷. Por otra parte, creemos que es necesario aplicar criterios de función para el diagnóstico. Si únicamente utilizáramos criterios anatómicos, podría considerarse, erróneamente, que muchos recién nacidos tienen anquiloglosia.

Somos conscientes de la dificultad para explorar correctamente la movilidad de la lengua, así como las posibles diferencias interobservador. Por estos motivos utilizamos los 3 primeros ítems de función de Hazelbaker como criterio diagnóstico, dado que tienen una concordancia interobservador considerable (coeficiente kappa 0,6 y 0,7) y mayor facilidad para su exploración³. El punto de corte utilizado (puntuación ≤ 4), propuesto por Amir³, demostró una buena correlación con la definición de Hazelbaker de anquiloglosia significativa: puntuación $<$ de 11 sobre 14, si se analizan todos los ítems de función².

La prevalencia observada resultó superior a la esperada, diferencia que puede deberse a la exploración digital que permitió identificar aquellos indetectables a la visualización (34% tipos III-IV). La proporción de este tipo de anquiloglosia fue similar en 5 hospitales; en el otro centro se detectaron hasta en el 67% de los frenillos. Esta circunstancia hace pensar en un sesgo de clasificación derivado de la subjetividad y la dificultad para establecer los límites anatómicos. Sin embargo, los resultados de los 3 centros con mayor población estudiada (85% de la muestra), fueron bastante homogéneos, con una prevalencia del 10%.

El frenillo lingual corto tipo IV es probablemente el más difícil de diagnosticar. No existen datos sobre su prevalencia, dado que en las publicaciones no se especifica esta clasificación. Recientemente, O'Callahan¹⁰ describió la realización de 131 frenectomías en menores de un mes con problemas relacionados con la lactancia, siendo el tipo IV el más frecuentemente intervenido (40%).

En nuestra serie, el 10% de los frenillos se tipificaron como tipo IV, sin embargo la mayoría procedían de un único hospital. Sin su participación, la prevalencia de este tipo de anquiloglosia sería del 0,16% y supondría el 1% de los frenillos linguales. Desconocemos si con los criterios utilizados infradiagnosticamos este tipo de frenillos y la prevalencia quizá sea incluso superior al 12% descrito. Aun así, se pone de manifiesto una vez más el factor subjetivo dependiente del explorador.

Hasta el 25% tenían antecedentes familiares, la mayoría de primer grado. La genética en esta entidad es importante. La anquiloglosia se presenta aislada o en síndromes como: Ehler Danlos, Wiedemann Beckwith, Simosa y orofaciodigital. La mayor prevalencia en varones junto con estudios genéticos sugieren un modelo de transmisión ligado al cromosoma X^{11,12}.

Dentro de las limitaciones del estudio destaca la variabilidad interobservador. La realización de un taller práctico y un estudio piloto previo permitieron unificar los criterios entre los investigadores. Sin embargo, no fueron suficientes como muestra la disparidad de prevalencia en uno de los centros. La utilización de criterios funcionales disminuyó esta limitación y sirvió para objetivar la subjetividad del diagnóstico de anquiloglosia, sobre todo de los tipos III y IV.

En nuestro conocimiento, este es el primer estudio de prevalencia de anquiloglosia en recién nacidos a nivel nacional. García et al.⁶ encontraron en nuestra región una prevalencia del 2%, pero en niños de 6 años. A diferencia

de otras publicaciones, se utilizaron criterios diagnósticos objetivos y la clasificación anatómica. Los 2 únicos centros de nuestra región que no participaron suponen menos del 8% del total de nacimientos. Además, sus características socioeconómicas son equiparables a las de otros hospitales incluidos, por lo tanto, los datos son representativos de la prevalencia de anquiloglosia en Asturias.

Como conclusión, hemos encontrado una alta prevalencia de anquiloglosia. La exploración de la cavidad oral debe ser sistemática en las revisiones de los recién nacidos y lactantes, centrándose en la presencia de anquiloglosia, para no pasar por alto su detección. Son necesarias nuevas investigaciones para tratar de unificar criterios diagnósticos, así como aclarar la repercusión de la anquiloglosia en relación con la lactancia materna u otros problemas posteriores.

Financiación

Este trabajo ha sido financiado por el patronato de la fundación Ernesto Sánchez Villares en la xv Convocatoria de Ayuda a la Investigación Clínica y Epidemiológica del año 2012 (proyecto 15/2012).

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Messner AH, Lalakea ML, Aby J, MacMahon J, Bair E. Ankyloglossia: Incidence and associated feeding difficulties. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000;126:36–9.
2. Hazelbaker A. The assessment tool for lingual frenulum function (ATLFF): use in a lactation consultant private practice. Pasadena, CA: Pacific Oaks College; 1993.
3. Amir LH, James JP, Donath SM. Reliability of the hazelbaker assessment tool for lingual frenulum function. *Int Breastfeed J.* 2006;1:3.
4. Ricke LA, Baker NJ, Madlon-Kay DJ, DeFor TA. Newborn tongue-tie: Prevalence and effect on breast-feeding. *J Am Board Fam Pract.* 2005;18:1–7.
5. Ballard JL, Auer CE, Khoury JC. Ankyloglossia: Assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad. *Pediatrics.* 2002;110:e63.
6. García Pola MJ, García JM, González M. Estudio epidemiológico de la patología de la mucosa oral en la población infantil de 6 años de Oviedo. *Medicina Oral.* 2002;7:184–91.
7. Coryllos E, Genna CW, Salloum AC. Congenital tongue-tie and its impact on breastfeeding. En: American Academy of Pediatrics. *Breastfeeding: Best for baby and mother; 2004.* p. 1–11 [consultado 4 Nov 2013]. Disponible en <http://www2.aap.org/breastfeeding/files/pdf/bbm-8-27%20Newsletter.pdf>.
8. Hogan M, Westcott C, Griffiths M. Randomized, controlled trial of division of tongue-tie in infants with feeding problems. *J Paediatr Child Health.* 2005;41:246–50.
9. Griffiths D. Do tongue ties affect breastfeeding? *J Hum Lact.* 2004;20:409–14.
10. O'Callahan C, Macary S, Clemente S. The effects of office-based frenotomy for anterior and posterior ankyloglossia on breastfeeding. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2013;77:827–32.
11. Klockars T, Pitkaranta A. Inheritance of ankyloglossia (tongue-tie). *Clin Genet.* 2009;75:98–9.
12. Han SH, Kim MC, Choi YS, Lim JS, Han KT. A study on the genetic inheritance of ankyloglossia based on pedigree analysis. *Arch Plast Surg.* 2012;39:329–32.