



Brazilian Journal of OTORHINOLARYNGOLOGY

www.bjorl.org



ARTIGO DE REVISÃO

Anquiloglossia se associa à apneia obstrutiva do sono?☆

Marieli Timpani Bussi ^{ID a,*}, Camila de Castro Corrêa ^{ID b,c},
Arthur Justi Cassettari ^{ID a}, Lorena Torres Giacomini ^{ID a}, Ana Célia Faria ^{ID a},
Ana Paula Sereni Manfredi Moreira ^{ID a}, Itamá Magalhães ^{ID a},
Mila Oliveira da Cunha ^{ID a}, Silke Anna Theresa Weber ^{ID d}, Edilson Zancanella ^{ID a}
e Almiro José Machado Júnior ^{ID a}

^a Universidade Estadual de Campinas (Unicamp), Departamento de Otorrinolaringologia Cabeça e Pescoço, Campinas, SP, Brasil

^b Centro Universitário Planalto do Distrito Federal (Uniplan), Brasília, DF, Brasil

^c Universidade de Brasília (UnB), Brasília, DF, Brasil

^d Universidade Estadual Paulista Júlio de Mesquita Filho (Unesp), Faculdade de Medicina, Botucatu, SP, Brasil

Recebido em 1 de junho de 2021; aceito em 7 de setembro de 2021

DESTAQUES

- Frênulo lingual curto não tratado ao nascimento está associado à apneia do sono.
- Frênulo lingual encurtado altera o crescimento craniofacial com consequências respiratórias
- Frenuloplastia lingual associada à terapia miofuncional é eficaz no tratamento do ronco.
- Além da melhoria do sono, houve melhoria nas funções de fala e deglutição.

PALAVRAS-CHAVE

Anquiloglossia;
Apneia obstrutiva
do sono;
Terapia miofuncional

Resumo

Objetivo: Investigar as evidências sobre a associação entre a anquiloglossia e a apneia obstrutiva do sono.

Método: Foi feita revisão de literatura integrativa nas bases de dados. Foram incluídos estudos observacionais e intervencionais em que foi feita a avaliação do frênulo de língua em crianças com distúrbios respiratórios do sono. Como critérios de exclusão: estudo em animais, *in vitro*, carta ao editor, opinião de expert, outras revisões. Os artigos selecionados foram analisados quanto ao desenho do estudo, casuística, caracterização da avaliação do frênulo lingual e do sono, além dos principais resultados e conclusões.

DOI se refere ao artigo: <https://doi.org/10.1016/j.bjorl.2021.09.008>

☆ Como citar este artigo: Bussi MT, Corrêa CC, Cassettari AJ, Giacomini LT, Faria AC, Moreira AP, et al. Is ankyloglossia associated with obstructive sleep apnea? Braz J Otorhinolaryngol. 2022;88:S156–S162.

* Autor para correspondência.

E-mail: marielibussi@hotmail.com (M.T. Bussi).

Resultado: Foram localizados 97 artigos, porém apenas 4 atenderam aos critérios de inclusão. Dois estudos retrospectivos concluíram que o frênulo lingual curto não tratado ao nascimento está associado à apneia obstrutiva do sono. Um estudo prospectivo concluiu que, após a frenectomia lingual, além da melhoria do sono, houve melhoria na fala e deglutição. Um coorte retrospectivo concluiu que a frenuloplastia lingual associada à terapia miofuncional é eficaz no tratamento do ronco e respiração oral.

Conclusão: Os estudos incluídos na presente revisão contribuem para corroborar a associação entre anquiloglossia e apneia obstrutiva do sono.

© 2021 Associação Brasileira de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial. Publicado por Elsevier Editora Ltda. Este é um artigo Open Access sob uma licença CC BY (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>).

Introdução

A apneia obstrutiva do sono (AOS) é um distúrbio respiratório, caracterizado pela obstrução recorrente da via aérea durante o sono e suas causas são multifatoriais.¹ A prevalência populacional é alta e entre suas consequências estão as alterações cardiovasculares. O tratamento é, por vezes, multidisciplinar, tem como padrão-ouro o aparelho de Pressão Aérea Positiva Contínua (CPAP).^{2–4} Para entender a patologia, precisamos compreender que as causas são variadas e, portanto, o tratamento deve ser individualizado.

Entre os achados anatômicos da AOS podemos citar o desvio de septo, hipertrofia de tonsilas palatinas, atresia maxilar transversal, retrusão maxilo-mandibular ou até mesmo a combinação entre eles.³ Outros fenótipos foram definidos como: 1) Vias Aéreas Superiores (VAS) anatomicamente comprometidas (alta pressão crítica de fechamento faríngeo [Pcrit]), 2) Responsividade inadequada dos músculos dilatadores das VAS durante o sono, 3) Baixo limiar de despertar 4) Controle ventilatório instável (*high loop gain*).^{3–5}

Anquiloglossia é considerada uma anomalia congênita encontrada em 4%–5% da população geral.⁶ Pode ser herdada como um traço dominante autossômico ligado ao cromossomo X e é mais comum em homens. A presença de frênulo lingual curto foi relatada em síndromes geneticamente relacionadas como Beckwith-Wiedemann, síndrome digital orofacial, fenda palatina e síndrome de Optiz, mas todas as mutações associadas a essas síndromes não são conhecidas. É possível que o frênulo lingual curto esteja associado a um mal posicionamento da língua devido a uma mutação desconhecida, mas não temos provas para apoiar tal hipótese.^{7–9}

Foi demonstrado que um frênulo lingual encurtado pode levar a respiração bucal e ao desenvolvimento anormal da cavidade oral,^{10–12} aumenta o risco de colapsabilidade das Vias Aéreas Superiores (VAS) durante o sono.

A interação entre estímulo ao crescimento ósseo e ausência de respiração nasal pode levar ao desenvolvimento orofacial anormal e a redução do tamanho ideal das VAS, acarretar respiração anormal durante o sono ao longo do tempo, inicialmente com limitação de fluxo e depois com piora progressiva dos eventos obstrutivos, leva à apneia obstrutiva do sono.

Dessa forma, existem evidências da associação entre a presença de um frênulo lingual curto e alterações no

Tabela 1 Especificações do PECOS para a estratégia de pesquisa do presente estudo

PECOS	
Participants	População
Exposition	Apneia obstrutiva do sono
Comparison	Sem comparação
Outcomes	Estudos em que foi feita a avaliação do frênulo lingual.
Types of Studies	Estudos observacionais e intervencionais

crescimento craniofacial, com possíveis repercussões no calibre das VAS.

A anquiloglossia limita a mobilidade da língua¹³ e prejudica as funções de sucção, mastigação, deglutição e fala. Com a alteração das funções estomatognáticas, a estabilidade da forma não se mantém.¹⁴

Quando as alterações de frênulo lingual não são tratadas precocemente, podem levar ao comprometimento da amamentação, que tem importante papel no desenvolvimento das estruturas ósseas e na manutenção da respiração nasal.^{13,14}

Diversos estudos relatam que o frênulo lingual encurtado pode levar a alterações de crescimento craniofacial, com consequências respiratórias, entre elas a apneia obstrutiva do sono.^{15–17}

Objetivo

Investigar as evidências sobre a associação entre a anquiloglossia e a apneia obstrutiva do sono.

Métodos

Foi feita uma revisão de literatura integrativa nas seguintes bases de dados: Pubmed, Scopus, Embase, Web of Science, Lilacs e ProQuest. Para a estruturação da estratégia de busca, foi estabelecido o PECOS (P = Participantes; E = Exposição; C = Comparação; O = Desfechos, S = Tipos de estudos) trazido na [tabela 1](#).

As palavras-chave e os termos livres usados foram correspondentes ao PECOS estabelecido ([tabela 2](#)).

Tabela 2 Busca feita nas bases de dados e os respectivos resultados iniciais

Base	Busca	Achados iniciais
Pubmed	("Sleep Apnea, Obstructive" [MeSH Terms] OR "Apneas, Obstructive Sleep" OR "Obstructive Sleep Apneas" OR "Sleep Apneas, Obstructive" OR "Obstructive Sleep Apnea Syndrome" OR "Obstructive Sleep Apnea" OR "OSAHS" OR "Syndrome, Sleep Apnea, Obstructive" OR "Sleep Apnea Syndrome, Obstructive" OR "Apnea, Obstructive Sleep" OR "Sleep Apnea Hypopnea Syndrome" OR "Syndrome, Obstructive Sleep Apnea" OR "Upper Airway Resistance Sleep Apnea Syndrome" OR "Syndrome, Upper Airway Resistance, Sleep Apnea" OR "OSA" OR "OSAS" OR "Sleep Apnea Syndromes" [MeSH Terms] OR "Apnea Syndrome, Sleep" OR "Apnea Syndromes, Sleep" OR "Sleep Apnea Syndrome" OR "Sleep Hypopnea" OR "Hypopnea, Sleep" OR "Hypopneas, Sleep" OR "Sleep Hypopneas" OR "Apnea, Sleep" OR "Apneas, Sleep" OR "Sleep Apnea" OR "Sleep Apneas" OR "Sleep Apnea, Mixed Central and Obstructive" OR "Mixed Central and Obstructive Sleep Apnea" OR "Sleep Apnea, Mixed" OR "Mixed Sleep Apnea" OR "Mixed Sleep Apneas" OR "Sleep Apneas, Mixed" OR "Hypersomnia with Periodic Respiration" OR "Sleep-Disordered Breathing" OR "Breathing, Sleep-Disordered" OR "Sleep Disordered Breathing") AND ("Lingual Frenum" [MeSH Terms] OR "Lingual Frenulum" OR "Frenulum, Lingual" OR "Frenulums, Lingual" OR "Lingual Frenulums" OR "Frenum, Lingual" OR "Frenums, Lingual" OR "Lingual Frenums")	10
Scopus	("Sleep Apnea, Obstructive" OR "Apneas, Obstructive Sleep" OR "Obstructive Sleep Apneas" OR "Sleep Apneas, Obstructive" OR "Obstructive Sleep Apnea Syndrome" OR "Obstructive Sleep Apnea" OR "OSAHS" OR "Syndrome, Sleep Apnea, Obstructive" OR "Sleep Apnea Syndrome, Obstructive" OR "Apnea, Obstructive Sleep" OR "Sleep Apnea Hypopnea Syndrome" OR "Syndrome, Obstructive Sleep Apnea" OR "Upper Airway Resistance Sleep Apnea Syndrome" OR "Syndrome, Upper Airway Resistance, Sleep Apnea" OR "OSA" OR "OSAS" OR "Sleep Apnea Syndromes" OR "Apnea Syndrome, Sleep" OR "Apnea Syndromes, Sleep" OR "Sleep Apnea Syndrome" OR "Sleep Hypopnea" OR "Hypopnea, Sleep" OR "Hypopneas, Sleep" OR "Sleep Hypopneas" OR "Apnea, Sleep" OR "Apneas, Sleep" OR "Sleep Apnea" OR "Sleep Apneas" OR "Sleep Apnea, Mixed Central and Obstructive" OR "Mixed Central and Obstructive Sleep Apnea" OR "Sleep Apnea, Mixed" OR "Mixed Sleep Apnea" OR "Mixed Sleep Apneas" OR "Sleep Apneas, Mixed" OR "Hypersomnia with Periodic Respiration" OR "Sleep-Disordered Breathing" OR "Breathing, Sleep-Disordered" OR "Sleep Disordered Breathing") AND ("Lingual Frenum" OR "Lingual Frenulum" OR "Frenulum, Lingual" OR "Frenulums, Lingual" OR "Lingual Frenulums" OR "Frenum, Lingual" OR "Frenums, Lingual" OR "Lingual Frenums")	45
Embase	("sleep apnea, obstructive"/exp OR "sleep apnea, obstructive" OR "apneas, obstructive sleep" OR "obstructive sleep apneas" OR "sleep apneas, obstructive" OR "obstructive sleep apnea syndrome"/exp OR "obstructive sleep apnea syndrome" OR "obstructive sleep apnea"/exp OR "obstructive sleep apnea" OR "osahs" OR "syndrome, sleep apnea, obstructive" OR "sleep apnea syndrome, obstructive" OR "apnea, obstructive sleep" OR "sleep apnea hypopnea syndrome"/exp OR "sleep apnea hypopnea syndrome" OR "syndrome, obstructive sleep apnea" OR "upper airway resistance sleep apnea syndrome" OR "syndrome, upper airway resistance, sleep apnea" OR "osa" OR "osas" OR "sleep apnea syndromes"/exp OR "sleep apnea syndromes" OR "apnea syndrome, sleep" OR "apnea syndromes, sleep" OR "sleep apnea syndrome"/exp OR "sleep apnea syndrome" OR "sleep hypopnea" OR "hypopnea, sleep" OR "hypopneas, sleep" OR "sleep hypopneas" OR "apnea, sleep"/exp OR "apnea, sleep" OR "apneas, sleep" OR "sleep apnea"/exp OR "sleep apnea" OR "sleep apneas" OR "sleep apnea, mixed central and obstructive" OR "mixed central and obstructive sleep apnea" OR "sleep apnea, mixed" OR "mixed sleep apnea" OR "mixed sleep apneas" OR "sleep apneas, mixed" OR "hypersomnia with periodic respiration" OR "sleep-disordered breathing"/exp OR "sleep-disordered breathing" OR "breathing, sleep-disordered" OR "sleep disordered breathing"/exp OR "sleep disordered breathing") AND ("lingual frenum"/exp OR "lingual frenum" OR "lingual frenulum"/exp OR "lingual frenulum" OR "frenulum, lingual"/exp OR "frenulum, lingual" OR "frenulums, lingual" OR "lingual frenulums" OR "frenum, lingual" OR "frenums, lingual" OR "lingual frenums")	20

Tabela 2 (Continuação)

Base	Busca	Achados iniciais
Web of Science	("Sleep Apnea, Obstructive" OR "Apneas, Obstructive Sleep" OR "Obstructive Sleep Apneas" OR "Sleep Apneas, Obstructive" OR "Obstructive Sleep Apnea Syndrome" OR "Obstructive Sleep Apnea" OR "OSAHS" OR "Syndrome, Sleep Apnea, Obstructive" OR "Sleep Apnea Syndrome, Obstructive" OR "Apnea, Obstructive Sleep" OR "Sleep Apnea Hypopnea Syndrome" OR "Syndrome, Obstructive Sleep Apnea" OR "Upper Airway Resistance Sleep Apnea Syndrome" OR "Syndrome, Upper Airway Resistance, Sleep Apnea" OR "OSA" OR "OSAS" OR "Sleep Apnea Syndromes" OR "Apnea Syndrome, Sleep" OR "Apnea Syndromes, Sleep" OR "Sleep Apnea Syndrome" OR "Sleep Hypopnea" OR "Hypopnea, Sleep" OR "Hypopneas, Sleep" OR "Sleep Hypopneas" OR "Apnea, Sleep" OR "Apneas, Sleep" OR "Sleep Apnea" OR "Sleep Apneas" OR "Sleep Apnea, Mixed Central and Obstructive" OR "Mixed Central and Obstructive Sleep Apnea" OR "Sleep Apnea, Mixed" OR "Mixed Sleep Apnea" OR "Mixed Sleep Apneas" OR "Sleep Apneas, Mixed" OR "Hypersomnia with Periodic Respiration" OR "Sleep-Disordered Breathing" OR "Breathing, Sleep-Disordered" OR "Sleep Disordered Breathing") AND ("Lingual Frenum" OR "Lingual Frenulum" OR "Frenulum, Lingual" OR "Frenulums, Lingual" OR "Lingual Frenulums" OR "Frenum, Lingual" OR "Frenums, Lingual" OR "Lingual Frenums" OR "Lingual Frenums")	9
Lilacs	("Sleep Apnea, Obstructive" OR "Apneas, Obstructive Sleep" OR "Obstructive Sleep Apneas" OR "Sleep Apneas, Obstructive" OR "Obstructive Sleep Apnea Syndrome" OR "Obstructive Sleep Apnea" OR "OSAHS" OR "Syndrome, Sleep Apnea, Obstructive" OR "Sleep Apnea Syndrome, Obstructive" OR "Apnea, Obstructive Sleep" OR "Sleep Apnea Hypopnea Syndrome" OR "Syndrome, Obstructive Sleep Apnea" OR "Upper Airway Resistance Sleep Apnea Syndrome" OR "Syndrome, Upper Airway Resistance, Sleep Apnea" OR "OSA" OR "OSAS" OR "Sleep Apnea Syndromes" OR "Apnea Syndrome, Sleep" OR "Apnea Syndromes, Sleep" OR "Sleep Apnea Syndrome" OR "Sleep Hypopnea" OR "Hypopnea, Sleep" OR "Hypopneas, Sleep" OR "Sleep Hypopneas" OR "Apnea, Sleep" OR "Apneas, Sleep" OR "Sleep Apnea" OR "Sleep Apneas" OR "Sleep Apnea, Mixed Central and Obstructive" OR "Mixed Central and Obstructive Sleep Apnea" OR "Sleep Apnea, Mixed" OR "Mixed Sleep Apnea" OR "Mixed Sleep Apneas" OR "Sleep Apneas, Mixed" OR "Hypersomnia with Periodic Respiration" OR "Sleep-Disordered Breathing" OR "Breathing, Sleep-Disordered" OR "Sleep Disordered Breathing" OR "Apneia Obstrutiva do Sono" OR "Apneia do Sono Obstrutiva" OR "Apneia do Sono Tipo Obstrutiva" OR "Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono" OR "Síndrome de Apneia do Sono por Resistência das Vias Aéreas Superiores" OR "Apnea Obstrutiva del Sueño" OR "Síndromes da Apneia do Sono" OR "Apneia do Sono" OR "Hipersonia com Respiração Periódica" OR "Respiração Desordenada Durante o Sono" OR "Síndromes de la Apnea del Sueño") AND ("Lingual Frenum" OR "Lingual Frenulum" OR "Frenulum, Lingual" OR "Frenulums, Lingual" OR "Lingual Frenulums" OR "Frenum, Lingual" OR "Frenums, Lingual" OR "Lingual Frenums" OR "Freio Lingual" OR "Frenillo Lingual" OR "Frênulo da Língua")	3
ProQuest	("Sleep Apnea, Obstructive" OR "Apneas, Obstructive Sleep" OR "Obstructive Sleep Apneas" OR "Sleep Apneas, Obstructive" OR "Obstructive Sleep Apnea Syndrome" OR "Obstructive Sleep Apnea" OR "OSAHS" OR "Syndrome, Sleep Apnea, Obstructive" OR "Sleep Apnea Syndrome, Obstructive" OR "Apnea, Obstructive Sleep" OR "Sleep Apnea Hypopnea Syndrome" OR "Syndrome, Obstructive Sleep Apnea" OR "Upper Airway Resistance Sleep Apnea Syndrome" OR "Syndrome, Upper Airway Resistance, Sleep Apnea" OR "OSA" OR "OSAS" OR "Sleep Apnea Syndromes" OR "Apnea Syndrome, Sleep" OR "Apnea Syndromes, Sleep" OR "Sleep Apnea Syndrome" OR "Sleep Hypopnea" OR "Hypopnea, Sleep" OR "Hypopneas, Sleep" OR "Sleep Hypopneas" OR "Apnea, Sleep" OR "Apneas, Sleep" OR "Sleep Apnea" OR "Sleep Apneas" OR "Sleep Apnea, Mixed Central and Obstructive" OR "Mixed Central and Obstructive Sleep Apnea" OR "Sleep Apnea, Mixed" OR "Mixed Sleep Apnea" OR "Mixed Sleep Apneas" OR "Sleep Apneas, Mixed" OR "Hypersomnia with Periodic Respiration" OR "Sleep-Disordered Breathing" OR "Breathing, Sleep-Disordered" OR "Sleep Disordered Breathing" OR "Apneia Obstrutiva do Sono" OR "Apneia do Sono Obstrutiva" OR "Apneia do Sono Tipo Obstrutiva" OR "Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono" OR "Síndrome de Apneia do Sono por Resistência das Vias Aéreas Superiores" OR "Apnea Obstrutiva del Sueño" OR "Síndromes da Apneia do Sono" OR "Apneia do Sono" OR "Hipersonia com Respiração Periódica" OR "Respiração Desordenada Durante o Sono" OR "Síndromes de la Apnea del Sueño") AND ("Lingual Frenum" OR "Lingual Frenulum" OR "Frenulum, Lingual" OR "Frenulums, Lingual" OR "Lingual Frenulums" OR "Frenum, Lingual" OR "Frenums, Lingual" OR "Lingual Frenums" OR "Freio Lingual" OR "Frenillo Lingual" OR "Frênulo da Língua")	10

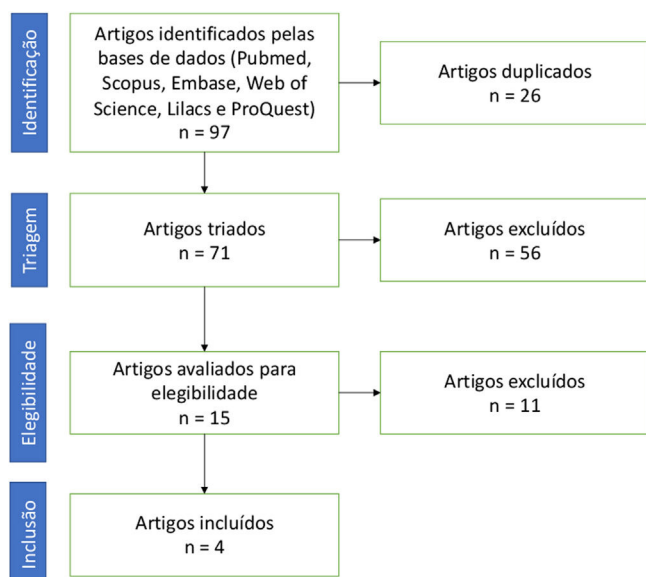


Figura 1 Diagrama de fluxo de seleção do estudo.

Foram incluídos estudos observacionais e intervencionais em que foi feita a avaliação do frênulo de língua em crianças com distúrbios respiratórios do sono. Como critérios de exclusão, foram excluídos estudo em animais, *in vitro*, carta ao editor, opinião de expert, outras revisões (estudos secundários). Não houve limitação de idioma ou ano de publicação.

Os artigos localizados foram exportados para o Endnote Web e, posteriormente, para o gerenciador Rayyan, onde foi feita a primeira fase, com leitura dos títulos e resumos. A leitura e seleção foram feitas por dois revisores, de modo cego. Em casos com conflito, um terceiro revisor foi acionado. Os artigos adicionados na primeira fase foram lidos na íntegra para seleção final.

Os artigos selecionados foram analisados quanto ao desenho do estudo, casuística, caracterização da avaliação do frênulo lingual e do sono, além dos principais resultados e conclusões.

Protocolo registrado no Prospero sob o número CRD42020206899.

Resultados

Foram localizados 97 artigos. Após avaliação de duplicidades, foram excluídos 16. Dessa forma, foram lidos pelos revisores 71 títulos e resumos na primeira fase. Desses, 10 foram incluídos por ambos e 6 apresentaram conflito. Após a avaliação do terceiro revisor, foram incluídos 15 artigos para leitura integral. Dos 15 artigos, 11 foram excluídos pelos autores, por não se enquadrarem nos critérios de inclusão ou por apresentarem desenho de estudo que se enquadrava nos critérios de exclusão. Ao fim, 4 artigos foram incluídos no trabalho (fig. 1).

O artigo de Guillemainault et al.¹⁸ incluiu 150 crianças de 3 a 12 anos num estudo retrospectivo que comparou crianças com frênulo lingual curto com crianças de frênulo lingual normal. Para a medida do frênulo lingual foi feita medida da abertura máxima do incisivo inferior esquerdo até o

incisivo superior esquerdo, depois feita medida com a boca bem aberta e a ponta da língua tocando a papila incisiva. Essa medida foi considerada normal se a diferença entre as duas fosse < 50%. Houve significância estatística entre o índice de Apneia/Hipopneia (IAH) de $13,06 \pm 4,17$ no grupo de frênulo lingual curto versus $11,36 \pm 5,39$ no grupo de frênulo lingual normal ($p = 0,025$). O frênulo lingual curto foi preditivo de um maior IAH em homens ($p = 0,0069$), mas não em mulheres ($p = 0,8615$). O estudo concluiu que o frênulo lingual curto não tratado ao nascimento está associado à SAOS quando idade mais avançada.

Em outro estudo retrospectivo, Villa et al.¹⁹ incluíram 504 crianças de 6–14 anos e avaliaram critérios subjetivos e objetivos para SAOS, com critérios de Kotlow²⁰ para medida de frênulo lingual, mediram o comprimento livre da língua (a distância entre a inserção do frênulo lingual na base da língua e a ponta da língua), consideraram o frênulo lingual curto se o comprimento fosse menor do que 16 mm. Nesse estudo concluíram que das 42 crianças com alto risco para SAOS em avaliação subjetiva, 18 (42,8%) tinham frênulo lingual curto, a incidência no estudo foi de 114 pacientes (22,6%). Em modelo de regressão logística multivariada, o risco para SAOS em crianças com frênulo lingual curto mostrou-se significativamente maior do que outros possíveis fatores, como obesidade, idade, sexo, tônus lingual.

No único estudo prospectivo incluído nesta revisão, Baxter et al.²¹ acompanharam 37 crianças dos 13 meses aos 12 anos. Para avaliação do frênulo lingual seguiu-se o protocolo de Kotlow.²⁰ Vinte de quatro delas apresentaram ronco antes da frenectomia lingual, 16 delas com melhoria do ronco após a cirurgia. O estudo concluiu que, além da melhoria do sono, houve melhoria na fala e deglutição para sólidos, relatado pelos pais.

Em uma coorte retrospectiva, Zaghi et al.²² acompanharam indivíduos de todas as idades, inclusive 110 crianças. O frênulo lingual foi avaliado por escala de frênulo lingual e mobilidade de língua.²³ em que há comparação das medidas de abertura máxima de boca e abertura com a ponta da língua em papila palatina, considerando normal medida inferior a 50% de diferença entre elas. O estudo concluiu que a frenuloplastia lingual com terapia miofuncional é segura e potencialmente efetiva para tratamento de respiração oral, ronco e tensão miofacial.

Discussão

Há concordância entre os quatro estudos analisados que a alteração de frênulo lingual interfere no crescimento das estruturas anatômicas, leva a alterações funcionais respiratórias e de sucção, mastigação e fala. Marchesan (2005)²⁴ relata que dentre as alterações causadas por um frênulo lingual alterado os mais comuns são os relacionados à fala, alimentação, com especial atenção à amamentação e deglutição. Há consenso na literatura que as funções estomatognáticas são afetadas pelas alterações de frênulo lingual.

Em face aos resultados encontrados no estudo retrospectivo de Guillemainault et al. (2016), em que foram estudados dois grupos, um com frênulo lingual curto e outro com frênulo lingual normal, onde observaram-se diferenças anatômicas significativas entre os dois grupos, o grupo

com frênulo lingual curto apresentou palato alto e atresia maxilar, favoreceu a colapsabilidade das vias aéreas. Uma pergunta surge: o tratamento precoce surtiria efeito, melhoraria os sintomas e potencialmente evitaria que um quadro mais grave de distúrbio obstrutivo se instalasse?

Zaghi et al. (2018) publicaram um estudo coorte retrospectivo cujo objetivo foi explorar a segurança e eficácia da frenuloplastia lingual e terapia miofuncional em pacientes com mobilidade restrita da língua. Foram incluídos 348 pacientes que apresentavam queixas de um ou mais dos seguintes sintomas: respiração pela boca ($n = 226$), ronco ($n = 151$), padrão disfuncional de deglutição ($n = 130$), aperto ($n = 44$) e/ou dor ou tensão miofascial ($n = 151$) e que foram tratados com frenuloplastia lingual e terapia miofuncional. Em 41 dos pacientes (11,7%) foi feita a frenectomia lingual anterior, com complementação em outro lugar quando foram identificadas restrições persistentes na mobilidade da língua. Foi feito um protocolo de terapia miofuncional um mês pré-operatório e 2 meses pós-frenulotomia lingual. A severidade da dor e as complicações foram classificadas em uma escala visual analógica de 10 pontos. Mudanças na qualidade geral relacionada à saúde de vida e satisfação geral foram avaliadas com a Escala de Likert. A queixa de ronco e qualidade de sono foram também avaliadas com as escalas acima, não foi feito exame de monitoramento noturno. Os resultados obtidos foram de 87% de melhoria na qualidade de vida por meio da melhoria da respiração oral (78,4%), ronco (72,9%), apertamento dental (91,0%) e/ou tensão miofascial (77,5%). Os autores afirmam que a frenuloplastia lingual associada a terapia miofuncional é segura e potencialmente eficaz para o tratamento da respiração oral, do ronco e da tensão miofascial, mais estudos são necessários para identificar os candidatos ideais para esse tratamento.

Baxter et al. em 2020 publicaram um estudo prospectivo de frenectomia lingual com LightScalpel laser de CO₂, seguido por terapia miofuncional feita em 37 pacientes (idade média de 4,2 anos, com variação de 13 meses a 12 anos), 62% meninos e 38% meninas. O grau de restrição da mobilidade lingual foi avaliado com a escala de classificação de Kotlow. A pesquisa compreendeu avaliação da fala, alimentação, sono e outros sintomas relacionados relatados em uma base sim/não. Os resultados apresentados na primeira semana, foram que 76% dos pais relataram melhoria na fala, 69% notaram melhoria na alimentação e 85% observaram que melhorou o sono dos filhos. Em um mês, 89% dos pais relataram melhoria na fala, 83% notaram alimentação melhorada e 83% testemunharam melhoria do sono. Segundo os relatos, as crianças dormiram menos em posições estranhas ($p < 0,001$), chutavam e se movimentaram menos à noite ($p < 0,001$). Eles dormiam mais profundamente ($p < 0,001$), acordavam menos cansados ($p = 0,002$), tiveram menos ranger de dentes ($p = 0,002$), menos respiração bucal ($p < 0,001$) e menos ronco ($p < 0,001$). Curiosamente, mudanças adicionais foram observados pelos pais, pois as crianças relataram menos dor no pescoço ($p < 0,031$), menos dores de cabeça ($p = 0,008$), menos reflexo de vômito ($p = 0,002$), menos respiração pela boca ($p < 0,001$), menos refluxo ($p = 0,002$), menos hiperatividade e desatenção ($p < 0,001$) e menos constipação ($p = 0,004$). Os autores afirmaram que esses resultados devem estimular os profissionais de saúde que tratam de

crianças com distúrbios de fala, alimentação e problemas de sono a avaliar possíveis restrições de mobilidade da língua desses pacientes.

Em 2020, Villa et al. fizeram um estudo com o objetivo de avaliar a presença de frênulo lingual curto como fator de risco para o desenvolvimento de Distúrbios Respiratórios do Sono (DRS) em crianças em idade escolar, que apresentassem ou não ronco. Foram incluídas 504 crianças, entre 6 e 14 anos, que foram avaliadas com uma ferramenta clínica usada na detecção de crianças de alto risco para DRS, denominada *Sleep Clinical Record* (SCR).²⁵ A pontuação total do SCR é calculada considerando anormalidades no nariz, orofaringe, dentárias, craniofaciais e oclusão. Uma pontuação total de SCR maior ou igual a 6,5 é considerada positiva e está associada com alto risco de AOS definido como um Índice de Apneia/Hipopneia obstrutiva (IAH) > 1 episódio/hora. Das 504 crianças avaliadas nesse estudo, 42 (8,3%) apresentaram alto risco para AOS, conforme indicado por um escore SCR $> 6,5$. Dessas crianças, 18 (42,8%) tinham um frênulo lingual curto. Entre todas as 504 crianças, um frênulo lingual curto foi encontrado em 114 (22,6%). O modelo de regressão logística multivariada mostrou que crianças com frênulo lingual curto apresentaram risco significativamente maior para um SCR positivo e, portanto, um maior risco para desenvolvimento de AOS, em comparação àquelas com um frênulo lingual normal, e que esse risco maior foi mais significativo mesmo quando outros fatores, possivelmente afetando o risco de AOS (idade, sexo, força da língua, obesidade), foram levados em consideração. Os autores concluíram que foi demonstrada uma associação entre frênulo lingual curto e DRS e que uma abordagem multidisciplinar é necessária para permitir detecção precoce e tratamento oportuno de alterações craniofaciais e potencialmente prevenir DRS.

Os estudos de Zaghi et al.²² e Baxter et al.²¹, mostraram que a associação da terapia miofuncional à frenectomia lingual trouxe benefícios aos pacientes tratados, mostraram a importância da atuação multidisciplinar. Em estudo feito em 2016, com 101 pacientes, Ferrés-Amat et al. submeteram 96% dos pacientes à terapia miofuncional, iniciaram uma semana antes da frenectomia lingual com o objetivo de aumentar a mobilidade e reduzir dores.²⁶

Os quatro estudos mostram significância na relação da alteração de frênulo lingual com a AOS. Novos estudos se fazem necessários com intervenção cirúrgica e exame polissonográfico pré e pós-frenectomia lingual em uma amostra maior da população.

Conclusão

Os resultados desses estudos sugerem que a fala, a mastigação, a respiração e o sono podem ser afetados por uma língua restrita e que sua adequada liberação cirúrgica associada a terapia miofuncional pode resultar em melhoria funcional e da qualidade de vida. A melhoria da qualidade de sono foi expressiva nos pacientes incluídos nos estudos nos quais foi feita intervenção, pois, após o tratamento, a língua foi capaz de descansar no palato em vez de descansar no assoalho da mandíbula. A possibilidade de elevação da língua, e liberação da restrição para que a elevação normalize, é a razão da melhoria observada.

Os estudos incluídos na presente revisão contribuem para corroborar a associação entre anquiloglossia e apneia obstrutiva do sono.

Financiamento

Esta pesquisa não recebeu nenhum financiamento específico de agências de fomento nos setores público, comercial ou sem fins lucrativos.

Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

Referências

1. Zinchuk A, Gentry M, Concato J, Yaggi K. Phenotypes in obstructive sleep apnea: a definition, examples and evolution of approaches. *Sleep Med Rev.* 2017;35:113–23.
2. Osman AM, Carter SG, Carberry JC, Eckert DJ. Obstructive sleep apnea: current perspectives. *Nat Sci Sleep.* 2018;10:21–34.
3. Eckert DJ, White DP, Jordan AS, Malhotra A, Wellman A. Defining phenotypic causes of obstructive sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med.* 2013;88:996–1004.
4. McKeown P, O'Connor-Reina C, Plaza G. Breathing re-education and phenotypes of sleep apnea: a review. *J Clin Med.* 2021;10:471.
5. Sabrumani Y, Singh M, Wong J, Kushida CA, Malhotra A, Chung F. Understanding phenotypes of obstructive sleep apnea: applications in anesthesia, surgery, and perioperative medicine. *Anesth Analg.* 2017;124:179–91.
6. Klockars T. Familial ankyloglossia (tongue-tie). *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2007;71:1321–4.
7. Packham EA, Brook JD. T-box genes in human disorders. *Hum Mol Genet.* 2003;12:R37–44.
8. Braybrook C, Ligo S, Doudney K, Henderson D, Marcano ACB, Strachan T, et al. Craniofacial expression of human and murine TBX22 correlates with the cleft palate and ankyloglossia phenotype observed in CPX patients. *Hum Mol Genet.* 2002;11:2793–804.
9. Kantaputra PN, Paramee M, Kaewkhampa A, Hoshino A, Lees M, McEntagart M, et al. Cleft lip with cleft palate, ankyloglossia, and hypodontia are associated with TBX22 mutations. *J Dent Res.* 2011;90:450–5.
10. Pola MJG, García MG, Martín JMG, Gallas M, Lestón JS. A study of pathology associated with short lingual frenum. *ASDC J Dent Child.* 2002;69:59–62.
11. Defabianis P. Ankyloglossia and its influence on maxillary and mandibular development. (A seven year follow-up case report). *Funct Orthod.* 2000;17:25–33.
12. Martinelli RLC, Marchesan IQ, Berretin-Felix G. Longitudinal study of the anatomical characteristics of the lingual frenulum and comparison to literature. *CEFAC.* 2014;16:1202–7.
13. Messner AH, Walsh J, Rosenfeld RM, Schwartz SR, Ishman SL, Baldassari C, et al. Clinical Consensus Statement: Ankyloglossia in Children. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2020;162:597–611.
14. Pompéia LE, Ilinsky RS, Ortolani CLF, Faltin JK. Ankyloglossia and its influence on growth and development of the stomatognathic system. *Rev Paul Pediatr.* 2017;35:216–21.
15. Srinivasan B, Chitharanjan AB. Skeletal and dental characteristics in subjects with ankyloglossia. *Prog Orthod.* 2013;14:44.
16. Bertrand M, Alexandre B. Influence of a short lingual frenulum and a lack of tonicity of the lingual and suprahyoid muscles in apneic teenager: report of a case. *J Oral Med Oral Surg.* 2019;25:41.
17. Huang Y, Quo S, Berkowski JA, Guilleminault C. Short lingual frenulum and obstructive sleep apnea in children. *Int J Pediatr Res.* 2015;1:1.
18. Guilleminault C, Huseni S, Lo L. A frequent phenotype for paediatric sleep apnoea: Short lingual frenulum. *ERJ Open Res.* 2016;0:43.
19. Villa MP, Evangelisti M, Barreto M, Cecili M, Kaditis A. Short lingual frenulum as a risk factor for sleep-disordered breathing. *Sleep Med.* 2020;119–22.
20. Kotlow LA. Ankyloglossia (tongue-tie): a diagnostic and treatment quandary. *Quintessence Int.* 1999;30:259–62.
21. Baxter R, Merkel-Walsh R, Baxter BS, Lashley A, Rendell NR. Functional improvements of speech, feeding, and sleep after lingual frenectomy tongue-tie release: a prospective cohort study. *Clin Pediatr (Phila).* 2020;59:885–92.
22. Zaghi S, Valcu-Pinkerton S, Jabara M, Norouz-Knutsen L, Govardhan C, Moeller J, et al. Lingual frenuloplasty with myofunctional therapy: exploring safety and efficacy in 348 cases. *Laryngoscope Invest Otolaryngol.* 2019;26(4):489–96.
23. Yoon A, Zaghi S, Weitzman R, Ha S, Law CS, Guilleminault C, et al. Toward a functional definition of ankyloglossia: validating current grading scales for lingual frenulum length and tongue mobility in 1052 subjects. *Sleep Breath.* 2017;21:767–75.
24. Marchesan IQ. Lingual frenulum: quantitative evaluation proposal. *Int J Orofacial Myology.* 2005;31:39–48.
25. Villa MP, Paolino MC, Castaldo R, Vanacore N, Rizzoli A, Miano S, et al. Sleep Clinical Record: An Aid to Rapid and Accurate Diagnosis of Paediatric Sleep Disordered Breathing. *Eur Respir J.* 2013;41:1355–61.
26. Ferrés-Amat E, Pastor-Vera T, Ferrés-Amat E, Mareque-Bueno J, Prats-Armengol J, Ferrés-Padró E. Multidisciplinary management of ankyloglossia in childhood. Treatment of 101 cases. A protocol. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2016;21:39–47.