

Article

PERFIL DE LA PRODUCCIÓN CIENTÍFICA SOBRE ANQUILOGLOSIA

Profile of Scientific Production on Ankyloglossia

ROBERTA LOPES DE CASTRO MARTINELLI 

Hospital Santa Therezinha – Brotas, São Paulo, Brasil

REINALDO JORDÃO GUSMÃO 

Universidade Estadual de Campinas, São Paulo, SP, Brasil.

MARÍA PAZ MOYA DAZA 

Facultad de Ciencias de la Salud, Universidad Autónoma de Chile.

IRENE QUEIROZ MARCHESAN 

CEFAC Saúde e Educação – São Paulo, São Paulo, Brasil

GIÉDRE BERRETIN-FELIX 

Universidade de São Paulo, Faculdade de Odontologia de Bauru - FOB, Bauru, São Paulo, Brasil.

*Autor de correspondencia: Roberta Lopes de Castro Martinelli
Hospital Santa Therezinha – Brotas, São Paulo, Brasil
robertalcm@gmail.com*

Receipt: 30/09/2020
Acceptance: 24/11/2020

RESUMEN

Este trabajo tiene como objetivo describir el perfil de la producción científica referente a anquiloglosia. Para ello fue realizada una investigación por medio de la búsqueda de artículos científicos indexados en las bases de datos electrónicas LILACS y PUBMED. Para la revisión bibliométrica fueron considerados y tabulados los datos referidos al año de publicación, tipo de estudio y nivel de evidencia. Los datos fueron discutidos sobre la óptica cuantitativa y de valores representativos. Los primeros resultados permitieron analizar 651 estudios publicados. La mayor parte de las investigaciones sobre anquiloglosia encontradas correspondieron a estudios de tipo descriptivo y serie de casos (49,31%) seguido de relato de caso, investigación in vitro, en animales y revisión de literatura (24,27%), cohorte y casos-controles (11,98%), opinión de experto (11,68%), ensayo clínico randomizado (1,54%) y revisión sistemática (1,22%). Pocos estudios abordaron

complicaciones durante o después de la realización de la cirugía para liberación del frenillo lingual. En conclusión, la producción científica sobre anquiloglosia ha mostrado un creciente aumento en los últimos 28 años, siendo publicados estudios con nivel de evidencia 1, 2 y 3, cuyo mayor enfoque fue realizado en la cirugía para la liberación del frenillo lingual.

Palabras clave: Frenillo lingual, Anquiloglosia, indicadores de producción científica.

1. Introducción

La anquiloglosia es causada por una falla embriológica en el proceso de separación de la lengua del piso de la boca (Schoenwolf *et al.*, 2014), siendo definida, actualmente, como una anomalía congénita, que ocurre cuando los tejidos embriológicos remanentes, que debieron haber sufrido apoptosis durante el desarrollo embrionario, permanecen en la cara inferior de la lengua, restringiendo sus movimientos (Knox, 2010). La prevalencia de anquiloglosia varía del 4,2 al 37,1% (Segal *et al.*, 2007; Vieira *et al.*, 2010; Martinelli *et al.*, 2013; González *et al.*, 2014). Las diferentes definiciones, clasificaciones y metodologías utilizadas en los estudios, pueden justificar esta variación.

Estudios genéticos realizados en humanos han sugerido que la anquiloglosia tiene carácter hereditario, ocurriendo con mayor frecuencia en el sexo masculino (Martinelli *et al.*, 2013; LeTran *et al.*, 2019), pudiendo estar relacionada con el cromosoma X y ser el resultado de mutaciones en el gen T-box, con herencia autosómica dominante y penetrancia incompleta (Klockars, 2007; Klockars & Pitkaranta, 2009; Klockars *et al.*, 2012; Han *et al.*, 2012; Devasya & Sarganpala, 2017). Su ocurrencia puede ser aislada (Lenormand *et al.*, 2018) o asociada a síndromes genéticos (Soman & Lingappa, 2015; Shetty *et al.*, 2015; Singh *et al.*, 2017; Srivastav *et al.*, 2019).

Diversas publicaciones han analizado la anquiloglosia y sus efectos. Al respecto, existe consenso en la literatura al afirmar que la anquiloglosia restringe los movimientos de la lengua; sin embargo las consecuencias de esta limitación, así como la indicación quirúrgica para su tratamiento, aún son inciertas.

En esa línea de ideas, un estudio realizado por dos otorrinolaringólogos (Messner & Lalakea, 2000) destaca el carácter controvertido de la anquiloglosia dentro y entre grupos de especialidades, mostrando la ausencia de consenso entre otorrinolaringólogos, pediatras, fonaudiólogos y asesores de lactancia materna, en cuanto a las implicaciones de la anquiloglosia, así como las indicaciones de su tratamiento.

Webb *et al.* (2013), otorrinolaringólogos, concluyeron que la liberación del frenillo lingual mejora muchos aspectos de la lactancia materna, en la mayoría de los recién nacidos con anquiloglosia, además de reducir las molestias maternas, siendo un procedimiento relativamente simple y seguro, con tasas muy bajas de complicaciones y también reportaron la ausencia de datos en la literatura sobre una asociación significativa entre las dificultades del habla y la anquiloglosia en los niños. Otra revisión, realizada por un cirujano pediatra concluyó que la frenotomía lingual mejora las dificultades para amamantar en bebés con anquiloglosia (Ito, 2014).

Pese a lo anterior, otorrinolaringólogos y pediatras (Chinnadurai *et al.*, 2015) concluyeron que poseen reducido conocimiento sobre el tratamiento de la anquiloglosia, así como sobre los cambios positivos en la lactancia materna. Este mismo grupo informó que la evidencia sugiere que la frenotomía podría estar asociada con mejorías reportadas por la madre en la lactancia, especialmente dolor al amamantar, pero refiere que las metodologías de estudio son inconsistentes, con fuerza de evidencia baja a insuficiente (Francis *et al.*, 2015).

La opción quirúrgica es considerada con recurrencia, para tratar casos de anquiloglosia. En la población de neonatos y bebés, el método más utilizado es la frenotomía con instrumento frío (tijeras o bisturí), mientras que en la población de niños y adultos, diferentes técnicas e instrumentos difieren entre las publicaciones. La cirugía parece ser la conducta más eficaz para la mejora de los síntomas causados por la anquiloglosia, sin embargo el habla no siempre se restringe al patrón esperado post cirugía, lo que justifica el trabajo en un equipo interdisciplinario con médicos, odontólogos y fonoaudiólogos entrenados para la evaluación, diagnóstico e intervención en los casos en que sea necesario (Miranda *et al.*, 2016).

Con base a lo anteriormente mencionado, queda en evidencia que la anquiloglosia es un tema multidisciplinario complejo, con profesionales de diferentes áreas involucradas tanto en la evaluación como en el tratamiento, siendo importante recopilar sus experiencias, para comprender la anquiloglosia y su impacto en la vida de las personas.

En 2016, una revisión sistemática publicada por Cochrane concluyó que la frenotomía, a corto plazo, colaboraría en la reducción del dolor del pezón en las madres que amamantan, pero un efecto positivo inconsistente en los bebés. El reducido número de ensayos clínicos, junto con las deficiencias metodológicas de los estudios, limita la certeza de estos hallazgos (O'Shea *et al.*, 2017). No obstante, tal como manifestó el grupo de Emond *et al.* (2014), existe gran dificultad para realizar un estudio clínico controlado y aleatorizado, toda vez que las madres de bebés con anquiloglosia que continuaron teniendo dificultades en la lactancia materna durante más de cinco días, solicitaron la cirugía. En ese sentido Baxter *et al.* (2018), también sostienen que el potencial beneficio obtenido con la liberación del frenillo lingual provoca que sea poco ético negar este tratamiento a algunos individuos, debido a un estudio con un grupo control.

De acuerdo con el principio de la práctica basada en la evidencia, la toma de decisiones sobre la atención al paciente debe considerar el uso consciente y explícito de la mejor evidencia científica, asociada a la experiencia clínica profesional y las preferencias del paciente, con el fin de reducir los riesgos y ofrecer la mejor alternativa de tratamiento (Kyzas, 2008). En cambio, con respecto a la anquiloglosia, todavía existe una brecha entre la evidencia científica y la práctica clínica.

Para el proceso de evolución de la ciencia, es necesario comprender el estado del conocimiento sobre un tema, en un momento dado, para poder ordenar periódicamente el conjunto de información y resultados ya obtenidos. Según Carvalho *et al.* (2010), para determinar el perfil de una producción científica es necesario analizar varios trabajos publicados en un área determinada e identificar sus características. La localización y mapeo de los estudios publicados permite identificar tendencias y desarrollos en el conocimiento científico y así posibilitar el desarrollo de nuevas investigaciones. Dado lo anterior, un estudio bibliométrico puede colaborar en la tarea de sistematizar la investigación sobre anquiloglosia y mostrar hipótesis a investigar en futuras investigaciones.

Así, ante la dificultad de realizar estudios clínicos controlados y aleatorizados, combinada con la necesidad de un mayor conocimiento, el objetivo de este estudio fue describir el perfil de la producción científica en torno a la anquiloglosia, clasificando los estudios publicados según el tipo y nivel de evidencia científica.

2. Método

Se ha propuesto un estudio descriptivo-exploratorio del tipo revisión bibliométrica (Chueke & Amatucci, 2015), por lo que no se requirió aprobación por parte del Comité de Ética en Investigación.

En el período de enero de 2020 se realizó búsqueda de artículos indexados en las bases de datos electrónicas LILACS y PUBMED. Para componer la estrategia de búsqueda, se identificaron los siguientes descriptores de ciencias de la salud (DeCS) en portugués, inglés y español respectivamente: “Anquiloglossia / ankyloglossia / anquiloglosia y freio lingual / lingual frenum / frenillo lingual. También se utilizaron los siguientes términos libres: “língua presa, tongue-tie, lengua atada, frenotomía lingual / lingual frenotomy / frenotomía lingual y frenectomía lingual / lingual frenectomy / frenectomía lingual”, que a pesar de no ser un DeCS, se han utilizado en el título de los artículos y algunas revistas lo han aceptado como palabras clave, convirtiéndose en un término de búsqueda de artículos. Las referencias de los artículos seleccionados se verificaron manualmente para identificar otros artículos que cumplieran con los criterios de inclusión que no se habían encontrado en las bases de datos consultadas. Fueron incluidos los estudios disponibles íntegramente, publicados en inglés, portugués y español hasta diciembre de 2019.

La selección fue realizada inicialmente por el investigador principal, mediante la lectura de títulos y resúmenes. Los artículos fueron analizados por dos examinadores previamente entrenados y calibrados ($kappa = 0,90$), con el fin de analizar el tipo de estudio y determinar la evidencia científica. Luego de la lectura analítica y comprensiva de cada estudio, los artículos seleccionados fueron clasificados considerando año, tipo de estudio y nivel de evidencia científica.

El sistema de clasificación de evidencia adoptado consideró los estudios de manera jerárquica, en 6 niveles (Souza *et al.*, 2010):

- Nivel 1: revisiones sistemáticas con o sin metaanálisis
- Nivel 2: ensayos clínicos aleatorizados
- Nivel 3: estudios analíticos de cohorte y de casos y controles
- Nivel 4: estudios descriptivos y series de casos
- Nivel 5: informe de caso, in vitro, investigación con animales y revisión de la literatura
- Nivel 6: opinión de expertos

Fueron excluidos los estudios que no estaban completamente disponibles para el análisis, escritos en idiomas distintos a los propuestos en este estudio y cuyo contenido de estudio no se correspondía con el propósito de este estudio.

El análisis de datos utilizado fue descriptivo, utilizando hoja de cálculo MS-Excel, en su versión de MS-Office 365, para organizar los datos, y el software estadístico IBM SPSS (versión 25.0), para obtener los resultados.

3. Resultados

Con las estrategias adoptadas, se encontraron 1950 estudios en la base de datos PUBMED y 185 en la base de datos LILACS, tal como se observa en la Tabla I.

Tabla I

Número de artículos ubicados en las bases de datos PUBMED y LILACS, según descriptores y términos libres adoptados.

Descriptor/término libre	PUBMED	LILACS
“anquiloglossia, ankyloglossia, anquiloglosia”	513	45
“freio lingual, lingual frenum, frenillo lingual”	608	97
“língua presa, tongue-tie, lengua atada”	629	17
“frenectomia lingual, lingual frenectomy, frenectomía lingual”	75	18
“frenotomia lingual, lingual frenotomy, frenotomía lingual”	125	8
Total	1950	185

Tras eliminar los artículos duplicados, aquellos cuyo contenido no se relacionaba con el objetivo de este estudio, y los estudios publicados en otros idiomas, además de sumar los artículos recopilados a partir de las referencias de los artículos analizados, se analizaron en su totalidad un total de 651 estudios, considerando el intervalo de tiempo entre 1868 y 2019.

El número total de artículos publicados por tipo de estudio y nivel de evidencia se describe en la Tabla II.

Tabla II

Frecuencia y porcentaje de publicaciones, según análisis de evidencia científica según tipo de estudio.

Tipo de estudio	Nivel de evidencia	n	%
Revisiones sistemáticas	1	8	1,22
Ensayos clínicos randomizados	2	10	1,54
Cohorte y estudio de casos-contróles	3	78	11,98
Descriptivos y series de casos	4	321	49,31
Relato de caso, in vitro, en animales y revisión de literatura	5	158	24,27
Opinión de expertos	6	76	11,68
Total		651	100,00

Los gráficos 1 a 6 agrupan los tipos de estudios y niveles de evidencia publicados por año, siendo posible observar muchas publicaciones a lo largo de los años con niveles 4, 5 y 6 de evidencia científica (gráficos 4, 5 y 6). No obstante, como se observa en el Gráfico 2, a partir de 2005 comenzaron a aparecer los primeros ensayos clínicos aleatorizados, seguidos de las publicaciones de las primeras revisiones sistemáticas desde 2013 (Figura 1).

Figura 1

Distribución del número de estudios con nivel de evidencia 1 por año.



Figura 2

Distribución del número de estudios con nivel 2 de evidencia por año.



Figura 3

Distribución del número de estudios con nivel 3 de evidencia por año.

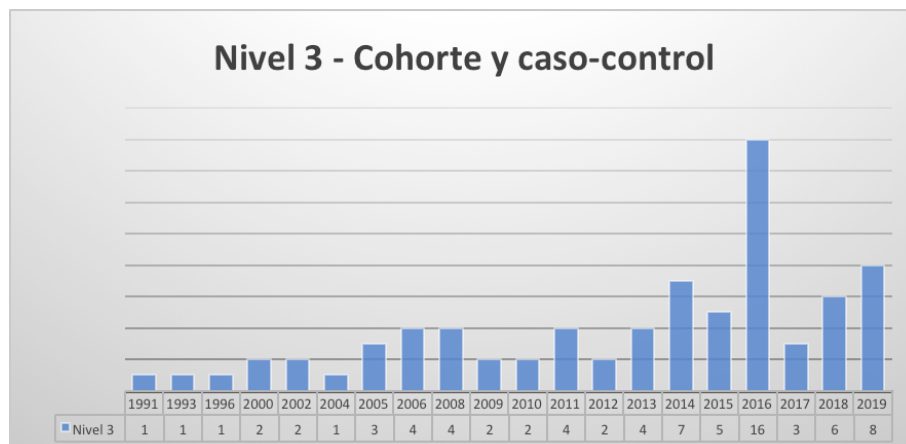


Figura 4

Distribución del número de estudios con distribución del número de estudios con nivel 4 de evidencia por año.



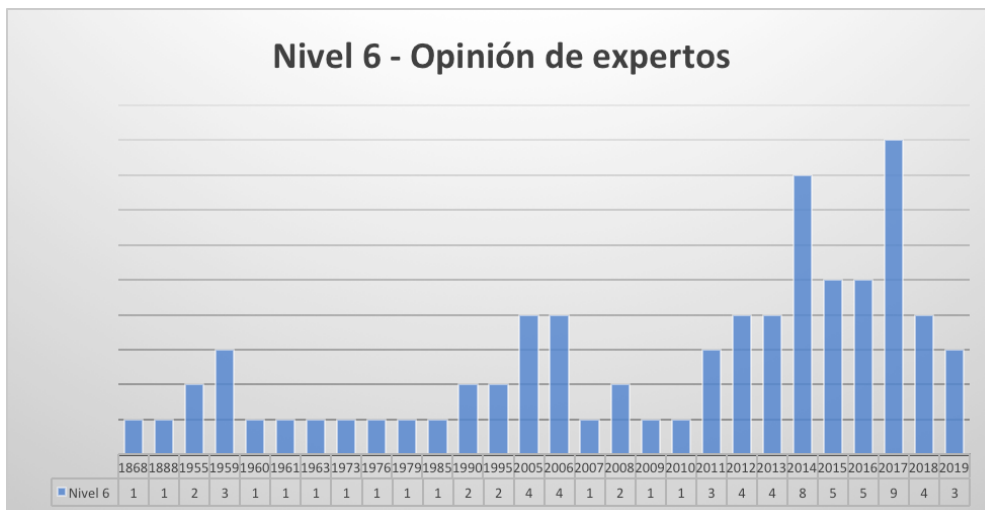
Figura 5

Distribución del número de estudios con nivel 5 de evidencia por año.



Figura 6

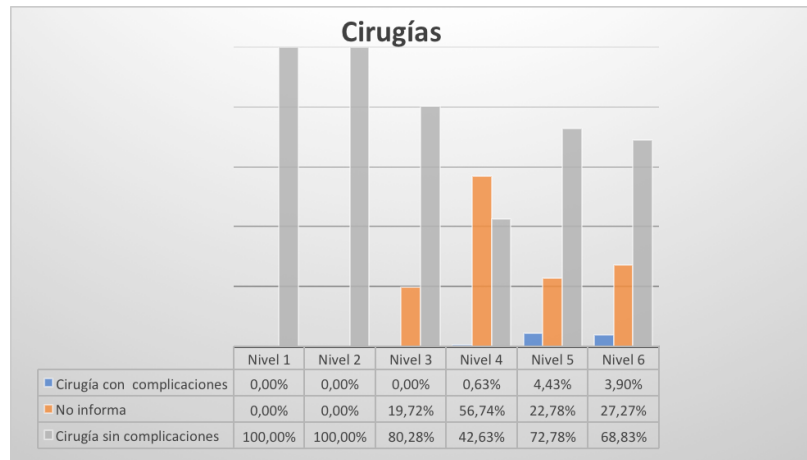
Distribución del número de estudios con nivel 6 de evidencia por año.



A partir del análisis de los estudios, se observó el predominio de publicaciones sobre cirugía, lo que permitió realizar revisión sobre los estudios que describen los procedimientos quirúrgicos (frenotomía y frenectomía lingual) en cuanto a la presencia o no de complicaciones, como se puede apreciar en la figura 7.

Figura 7

Análisis de estudios sobre cirugías realizadas (frenotomía y frenectomía lingual).



4. Discusión

La publicación de artículos científicos juega un papel importante en la transferencia de conocimiento entre investigadores y clínicos. Así, la caracterización del perfil de las publicaciones sobre un tema determinado otorga mayor comprensión del avance de la ciencia, permitiendo observar la situación actual y trazar nuevos caminos para el desarrollo de la investigación en el área de estudio (Carvalho *et al.*, 2010).

Los resultados de la búsqueda en las bases de datos electrónicas indicaron un número considerable de artículos publicados ($n = 651$) a lo largo de los años, lo que refleja el interés de los investigadores por el tema de la anquiloglosia. De acuerdo con Chueke & Amatucci (2015), para realizar un estudio bibliométrico consistente, lo ideal sería analizar entre 15 y 20 años de publicación sobre un tema.

En cuanto a la búsqueda de artículos, para todos los descriptores y términos libres utilizados, se encontró un mayor número de publicaciones en la base de datos PUBMED (Tabla 2). Este dato se puede explicar por el hecho de que esta base de datos es considerada una de las mejores plataformas para búsqueda en el área biomédica (Puccini *et al.*, 2015).

Es interesante destacar que la anquiloglosia se ha estudiado desde 1868, es decir, durante al menos 151 años. La mayoría de las investigaciones son estudios descriptivos y series de casos (49,31%), seguidos de informes de casos, investigación *in vitro*, en animales y revisión de la literatura (24,27%), cohortes y casos-contróles (11,98 %), opinión de expertos (11,68%), ensayos clínicos aleatorizados (1,54%) y revisiones sistemáticas (1,22%). A partir de 2005, las publicaciones comenzaron con ensayos clínicos controlados aleatorios y —a partir de 2013— aparecieron las primeras revisiones sistemáticas.

Considerando la totalidad de estudios publicados mediante el análisis de las gráficas 1 a 6, podemos observar que, de 1868 a 1990 (122 años), solo se encontraron 37 artículos publicados (promedio de 0,3 artículos por año). En cambio, de 1991 a 2019 (28 años), el número de estudios publicados ascendió a 614 (promedio de 22 artículos por año), mostrando que la publicación anual aumentó, en promedio,

7333,3%. Estos datos pueden explicar el aumento de las tasas de diagnóstico de anquiloglosia y la realización de frenotomía lingual en Estados Unidos (Walsh *et al.*, 2017), Australia (Kapoor *et al.*, 2018) y Canadá (Lisonek *et al.*, 2017), tomando en consideración lo reportado por Kapoor *et al.* (2018), quienes consideraron que el impacto de la anquiloglosia en la lactancia materna fue descuidado durante años.

Mediante el análisis de la figura 7, se logró observar que solo el 0,63% de los estudios de nivel 4 de evidencia científica (estudios descriptivos y series de casos), el 4,43% de los estudios de nivel 5 (relato de caso, *in vitro*, investigación en revisión de animales y literatura) y el 3,90% de los estudios de nivel 6 (opinión de expertos) informaron alguna complicación relacionada con la cirugía. Mientras que los estudios de nivel 1, 2 y 3, considerados niveles con mayor solidez de evidencia científica no reportaron complicaciones durante y después del procedimiento quirúrgico de liberación del frenillo lingual. Estos datos corroboran lo indicado por estudios que muestran que la cirugía es un procedimiento sencillo, rápido y seguro (Dollberg *et al.*, 2006; Buryk, *et al.*, 2011; Berry *et al.*, 2012; Emond *et al.*, 2014)

Una revisión sistemática mostró que la frenotomía redujo el dolor en la papila mamaria de las madres lactantes (O'Shea *et al.*, 2017). McClellan *et al.* (2015) demostraron que los bebés cuyas madres sintieron dolor al amamantar fueron introducidos al biberón antes que aquellos cuyas madres no informaron dolor. Según Kent *et al.* (2015), el dolor persistente en la papila mamaria es una de las razones más comunes citadas por las madres para interrumpir la lactancia materna exclusiva. Estos datos permiten inferir que, si la frenotomía reduce el dolor al amamantar, puede evitar la introducción de biberón y el destete precoz.

La misma revisión sistemática concluyó que el reducido número de ensayos clínicos, junto con las deficiencias metodológicas, limita la certeza de estos hallazgos (O'Shea *et al.*, 2017). Una revisión sistemática evaluó los hallazgos de 1016 revisiones sistemáticas Cochrane, publicadas hasta 2003, de ensayos clínicos aleatorios con respecto a las recomendaciones para la práctica clínica y la investigación científica. Los autores concluyeron que la mayoría de las revisiones sistemáticas Cochrane no ofrecen evidencia suficiente para la toma de decisiones en la práctica clínica, y los autores de estas revisiones sugieren la realización de mayor número de ensayos clínicos aleatorizados sobre el tema estudiado (El Dib *et al.*, 2007). En 2011, fueron analizadas una vez más las conclusiones de las revisiones sistemáticas y, nuevamente, demostraron que la mayoría de estas revisiones no apoyan ni refutan el uso de determinadas intervenciones, y los autores continúan en la sugerencia de realizar estudios para dar respuesta a las preguntas clínicas abordadas por estas revisiones (Villas Boas *et al.*, 2013).

Dado que la anquiloglosia se ha tratado quirúrgicamente durante siglos, actualmente existe dificultad para realizar ensayos clínicos aleatorizados, ya que las madres de bebés con anquiloglosia que continuaron amamantando durante más de cinco días solicitaron que el bebé se someta a cirugía (Emond *et al.*, 2014). El beneficio logrado con la liberación del frenillo lingual hace que sea poco ético negar este tratamiento a algunos individuos debido a un estudio con un grupo de control (Baxter *et al.*, 2018). Por ello, resulta necesario crear estrategias dada la ausencia de ensayos clínicos o con evidencia insuficiente en esta área para responder preguntas sobre la eficacia, efectividad, eficiencia y seguridad de determinadas conductas.

El análisis de la producción científica publicada puede ser una alternativa para responder preguntas, en ausencia de ensayos clínicos. No es un sustituto del ensayo clínico aleatorizado, estándar de oro, pero resulta ser una alternativa provisional para la investigación clínica y los profesionales deben sopesar los beneficios y riesgos de este análisis.

Este estudio ha podido caracterizar el avance de la ciencia en relación con la anquiloglosia y orientar el inicio de nuevas investigaciones en esta área. Ante el aumento de información disponible en la literatura, es importante buscar, analizar y aplicar la mejor evidencia disponible para la toma de decisiones clínicas, siendo este el principio de la práctica basada en la evidencia.

5. Conclusión

La producción científica sobre anquiloglosia ha mostrado un aumento creciente en los últimos 28 años, con la cirugía como foco principal. Los estudios descriptivos y series de casos fueron más frecuentes, con nivel 4 de evidencia científica, sin embargo, han comenzado a surgir estudios de cohortes y casos-contróles, con nivel 3 de evidencia. A partir de 2005, se publicaron los primeros ensayos clínicos aleatorios, con revisiones sistemáticas posteriores.

Referencias

- Baxter R., Musso M., Hughes L., Lahey L., Fabbie P., Lovvorn M., Emanuel M., Agarwal R. (2018) Tongue-Tied: How a Tiny String Under the Tongue Impacts Nursing, Speech, Feeding, and more. Alabama Tongue Tie Center: Alabama.
- Berry J., Griffiths M., Westcott C. (2012). A double-blind, randomized, controlled trial of tongue-tie division and its immediate effect on breastfeeding. *Breastfeed Med.* Jun;7(3):189-93. <https://doi.org/10.1089/bfm.2011.0030>
- Buryk M, Bloom D, Shope T. (2011). Efficacy of neonatal release of ankyloglossia: a randomized trial. *Pediatrics.* Aug;128(2):280-8. <https://doi.org/10.1542/peds.2011-0077>
- Carvalho K, Saraiva Junior A, Frezatti F; Costa R. (2010). A contribuição das Teorias do Ciclo de Vida Organizacional para a pesquisa em contabilidade gerencial. *RAM.*;11(4):98-130. <https://doi.org/10.1590/S1678-69712010000400005>
- Chinnadurai S, Francis DO, Epstein RA, Morad A, Kohanim S, McPheeters M. Treatment of ankyloglossia for reasons other than breastfeeding: a systematic review. *Pediatrics.* 2015 Jun;135(6): e1467-74. <https://doi.org/10.1542/peds.2015-0660>
- Chueke GV, Amatucci M. (2015) O que é bibliometria? Uma introdução ao Fórum. *InterNext*;11(2):1-5. <https://doi.org/10.18568/1980-4865.1021-5>
- Devasya A, Sarganpala M. (2017) Familial Ankyloglossia – a rare report of three cases in a Family. *Journal of Clinical and Diagnostic Research.* 11(2): ZJ03-ZJ04. <https://doi.org/10.7860/JCDR/2017/24035.9308>
- Dollberg S, Botzer E, Grunis E, Mimouni FB. (2006) Immediate nipple pain relief after frenotomy in breast-fed infants with ankyloglossia: a randomized, prospective study. *J Pediatr Surg.* Sep;41(9):1598-600 <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2006.05.024>
- El Dib RP, Atallah AN, Andriolo RB. Mapping the Cochrane evidence for decision making in health care. *J Eval Clin Pract.* 2007 Aug;13(4):689-92 <https://doi.org/10.1111/j.1365-2753.2007.00886.x>
- Emond A, Ingram J, Johnson D, Blair P, Whitelaw A, Copeland M, Sutcliffe A. (2014) Randomised controlled trial of early frenotomy in breastfed infants with mild-moderate tongue-tie. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed.* 2014 May;99(3): F189-95. <https://doi.org/10.1136/archdischild-2013-305031>

- Francis DO, Krishnaswami S, McPheeters M. (2015). Treatment of ankyloglossia and breastfeeding outcomes: a systematic review. *Pediatrics*. Jun;135(6): e1458-66. <https://doi.org/10.1542/peds.2015-0658>
- González Jiménez D, Costa Romero M, Riaño Galán I, González Martínez MT, Rodríguez Pando MC, Lobete Prieto C. *An Pediatr (Barc)*. 2014 Aug;81(2):115-9. <https://doi.org/10.1016/j.anpedi.2013.10.030>
- Han SH, Kim MC, Choi YS, Lim JS, Han KT. (2012) A study on the Genetic inheritance of ankyloglossia based on pedigree analysis. *Arch Plast Surg*; 39:329-332. <https://doi.org/10.5999/aps.2012.39.4.329>
- Ito Y. (2014). Does frenotomy improve breastfeeding difficulties in infants with ankyloglossia? *Pediatr Int*. 2014 Aug;56(4):497-505. <https://doi.org/10.1111/ped.12429>
- Kapoor V, Douglas PS, Hill PS, Walsh LJ, Tennant M. Frenotomy for tongue-tie in Australian children, 2006-2016: an increasing problem. *Med J Aust*. 2018 Feb 5;208(2):88-89. <https://doi.org/10.5694/mja17.00438>
- Kent JC, Ashton E, Hardwick CM, Rowan MK, Chia ES, Fairclough KA, Menon LL, Scott C, Mather-McCaw G, Navarro K, Geddes DT. (2015). Nipple Pain in Breastfeeding Mothers: Incidence, Causes and Treatments. *Int J Environ Res Public Health*. 2015 Sep 29;12(10):12247-63. <https://doi.org/10.3390/ijerph121012247>
- Klockars T. Familial ankyloglossia (tongue-tie). *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2007;71(8):1321-4. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2007.05.018>
- Klockars T, Kytönen S, Ellonen P. TBX22 and Tongue-tie. *Cleft Palate Craniofac J*. 2012, 49(3):378-9. <https://doi.org/10.1597/11-114>
- Klockars T, Pitkaranta A. (2009). Inheritance of ankyloglossia (tongue-tie). *Clin Genet*.75:98-9.
- Knox I. (2010). Tongue Tie and Frenotomy in the Breastfeeding Newborn. *NeoReviews*;11(9):513-9.
- Kyzas PA. Evidence-Based Oral and Maxillofacial Surgery. *J Oral Maxillofac Surg*. 66 (3): 973-986, 2008. <https://doi.org/10.1016/j.joms.2008.01.024>
- Lenormand A, Khonsari R, Corre P, Perrin JP, Boscher C, Nizon M, Pichon O, David A, Le Caignec C, Bertin H, Isidor B. (2018) Familial autosomal dominant severe ankyloglossia with tooth abnormalities. *Am J Med Genet A*. Jul;176(7):1614-1617.
- LeTran V, Osterbauer B, Buen F, Yalamanchili R, Gomez G. (2019) Ankyloglossia: Last three-years of outpatient care at a tertiary referral center. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2019 Nov;126: 109599. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2019.109599>
- Lisonek M, Liu S, Dzakpasu S, Moore AM, Joseph KS; Canadian Perinatal Surveillance System (Public Health Agency of Canada). Changes in the incidence and surgical treatment of ankyloglossia in Canada. *Paediatr Child Health*. 2017 Oct;22(7):382-386. <https://doi.org/10.1093/paquete/pxx112>
- Martinelli RLC, Marchesan IQ, Berretin-Felix G. Protocolo de avaliação do frênulo lingual para bebês: relação entre aspectos anatômicos e funcionais. *Rev CEFAC*. 2013;15(3):599-610. <https://doi.org/10.1590/S1516-18462013005000032>

- McClellan HL, Kent JC, Hepworth AR, Hartmann PE, Geddes DT. (2015) Persistent Nipple Pain in Breastfeeding Mothers Associated with Abnormal Infant Tongue Movement. *Int J Environ Res Public Health*. 2015 Sep 2;12(9):10833-45. <https://doi.org/10.3390/ijerph120910833>
- Messner AH, Lalakea M L. (2000). Ankyloglossia: controversies in management. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. Aug 31;54(2-3):123-31. [https://doi.org/10.1016/s0165-5876\(00\)00359-1](https://doi.org/10.1016/s0165-5876(00)00359-1)
- Miranda PP, Cardoso CL, Gomes E. (2016) Interventions in the Alteration on Lingual Frenum: Systematic Review. *Int Arch Otorhinolaryngol*. 2016 Jul;20(3):275-80. <https://doi.org/10.1055/s-0035-1568135>
- O'Shea JE, Foster JP, O'Donnell CP, Breathnach D, Jacobs SE, Todd DA, Davis PG.(2017) Frenotomy for tongue-tie in newborn infants. *Cochrane Database Syst Rev*. Mar 11;3(3):CD011065. <https://doi.org/10.1002/14651858.CD011065.pub2>
- Puccini LRS, Giggoni MGP, Silva SF, Utagawa CY. (2015). Comparativo entre as bases de dados PubMed, SciELO e Google Acadêmico com o foco na temática Educação Médica. *Cadernos UniFOA* ;28:75-82. <http://revistas.unifoa.edu.br/index.php/cadernos/article/view/301>
- Schoenwolf GC Bleyl SB, Brauer PR, Francis-West PH.(2014). *Larsen's human embryology*. 5th ed. Philadelphia: Elsevier Churchill Livingstone; <https://www.elsevier.com/books/larsens-human-embryology/schoenwolf/978-1-4557-0684-6>
- Segal LM, Stephenson R, Dawes M, Feldman P. (2007). Prevalence, diagnosis and treatment of ankyloglossia. *Can Fam Physician*;53(6):1027-33. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/17872781/>
- Shetty P, Shetty D, Priyadarshana OS, Bhat S. (2015). A rare case report of Ellis Van Creveld syndrome in an Indian patient and literature review. *J Oral Biol Craniofac Res*. 2015 May-Aug;5(2):98-101. <https://doi.org/10.1016/j.jobcr.2015.05.003>
- Singh A, Bhatia HP, Sood S, Sharma N, Mohan A. (2017). A novel finding of oligodontia and ankyloglossia in a 14-year-old with Floating-Harbor syndrome. *Spec Care Dentist*. Nov;37(6):318-321. <https://doi.org/10.1111/scd.12257>
- Soman C, Lingappa A. (2015). Robinow Syndrome: a rare case report and review of literature. *Int J Clin Pediatr Dent*;8(2):149-52. <https://doi.org/10.5005/jp-journals-10005-1303>
- Souza MT, Silva MD, Carvalho R. (2010)- Revisão integrativa: o que é e como fazer. *Einstein*;8(1):102-6.
- Srivastav A, Verma N, Gupta S, Soni R, Kumar PN.(2019). Popliteal Petrygium Syndrome: A Rare Case Report with Hypodontia. *J Adv Med Dent Scie Res*;7(2):81-83. <https://doi.org/10.21276/jamdsr>
- Vieira EMM, Salineiro FS, Hespanhol D, Musis CR, Jardim Junior EG. Frequência de anquiloglossia em uma comunidade indígena brasileira. *Rev Gaúcha Odontol*. 2010;58(2):215-18. http://revodonto.bvsalud.org/scielo.php?pid=S1981-86372010000200012&script=sci_arttext&tlng=pt
- Villas Boas PJ, Spagnuolo RS, Kamegasawa A, Braz LG, Polachini do Valle A, Jorge EC, Yoo HH, Cataneo AJ, Corrêa I, Fukushima FB, do Nascimento P Jr, Módolo NS, Teixeira MS, de Oliveira Vidal EI, Daher SR, El Dib R. Systematic reviews showed insufficient evidence for clinical practice in 2004: what about in 2011? The next appeal for the evidence-based medicine age. *J Eval Clin Pract*. 2013 Aug;19(4):633-7.
- Walsh J, Links A, Boss E, Tunkel D. Ankyloglossia and Lingual Frenotomy: National Trends in Inpatient Diagnosis and Management in the United States, 1997-2012. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2017 Apr;156(4):735-740. <https://doi.org/10.1177/0194599817690135>

Webb AN, Hao W, Hong P. The effect of tongue-tie division on breastfeeding and speech articulation: A systematic review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2013 May;77(5):635-46. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2013.03.008>

ABSTRACT

This work aims to describe the profile of scientific production referring to ankyloglossia. For this an investigation was carried out by searching for scientific articles indexed in the electronic databases LILACS and PUBMED. For the bibliometric review, the data referring to the year of publication, type of study and level of evidence were examined and tabulated. The data were discussed on the quantitative and representative values optics. The first results allowed to analyze 651 published studies were analyzed. Most of the research on tongue tie found correspond to descriptive studies and case series (49.31%), followed by case reports, in vitro research, in animals and literature review (24.27%), cohort and cases and controls (11.98%), specialist opinion (11.68%), randomized clinical trials (1.54%) and systematic reviews (1.22%). Few studies addressed complications during or after lingual frenulum release surgery. In conclusion Scientific production on ankyloglossia has shown an increasing increase in the last 28 years, with studies with evidence levels 1, 2 and 3 being published, whose main focus was the performance of surgery to release the lingual frenulum.

Descriptors: Lingual Frenum, Ankyloglossia, Indicators of Scientific Production
