

Frenotomia em crianças com anquiloglossia: um protocolo de revisão de escopo

Frenotomy in children with ankyloglossia: a scoping review protocol

Frenotomía en niños con anquiloglosia: un protocolo de revisión de alcance

Recebido: 16/08/2022 | Revisado: 26/08/2022 | Aceito: 27/08/2022 | Publicado: 04/09/2022

José Maria de Vasconcelos Filho

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-2419-2639>

Universidade Estadual do Ceará, Brasil

E-mail: josmar.vasconcelos@aluno.uece.br

Ana Valeska Siebra e Silva

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-3664-5073>

Universidade Estadual do Ceará, Brasil

E-mail: ana.valeska@uece.br

Samuel Miranda Mattos

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1837-9480>

Universidade Estadual do Ceará, Brasil

E-mail: profsamuelmattos@gmail.com

Resumo

Objetivo: Mapear e descrever as evidências científicas acerca da indicação de frenotomia em crianças com anquiloglossia. **Método:** Protocolo de revisão de escopo, registrado na Plataforma Open Science Framework nº osf.io/efnu4, conduzido de acordo com as recomendações do manual do Instituto Joanna Briggs, em cinco estágios: (1) identificação das questões de pesquisa; (2) identificação dos estudos relevantes; (3) seleção dos estudos; (4) análise dos dados; e (5) agrupamento, síntese e apresentação dos resultados e tem como pergunta norteadora: Quais as evidências científicas existentes acerca da indicação de frenotomia em crianças com anquiloglossia? Será utilizada a extensão do checklist Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-analyses Scoping Review. Para a busca dos artigos nas bases de dados: PubMed, Lilacs, via Biblioteca Virtual da Saúde, Scielo, Web of Science, via portal da Coordenação de Aperfeiçoamento de Pessoal de Nível Superior e literatura cinzenta. Para estudos elegíveis que atendam a todos os critérios de inclusão e exclusão, uma ferramenta de extração de dados para coletar e armazenar as principais características dos estudos será utilizada e os resultados serão apresentados através de síntese narrativa e de quadros e gráficos.

Palavras-chave: Anquiloglossia; Língua presa; Crianças; Frenotomia; Frenectomia.

Abstract

Objective: To map and describe the scientific evidence about the indication of frenotomy in children with ankyloglossia. **Method:** Scope review protocol, registered in Open Science Framework no. osf.io/efnu4, and conducted following the recommendations of the Joanna Briggs Institute manual, in five stages: (1) identification of research questions; (2) identification of relevant studies; (3) selection of studies; (4) data analysis; and (5) grouping, synthesis and presentation of results, with the guiding question: What is the existing scientific evidence regarding the indication of frenotomy in children with ankyloglossia? The Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-analyses Scoping Review checklist will be used to search for articles in the following databases: PubMed, Lilacs via Virtual Health Library, Scielo, Web of Science, via Higher Education Personnel Improvement Coordination portal and gray literature. For eligible studies that meet all inclusion and exclusion criteria, a data extraction tool to collect and store the main characteristics of the studies will be used and the results will be presented through narrative synthesis and tables and graphs.

Keywords: Ankyloglossia; Tongue-Tied; Children; Frenotomy; Frenectomy.

Resumen

Objetivo: Mapear y describir la evidencia científica sobre la indicación de frenotomía en niños con anquiloglosia. **Método:** Protocolo de revisión del alcance, registrado en la Open Science Framework nº osf.io/efnu4 que, siguiendo las recomendaciones del manual del Joanna Briggs Institute, en cinco etapas: (1) identificación de las preguntas de investigación; (2) identificación de estudios relevantes; (3) selección de estudios; (4) análisis de datos; y (5) agrupación, síntesis y presentación de resultados, con la pregunta orientadora: ¿Cuál es la evidencia científica existente respecto a la indicación de frenotomía en niños con anquiloglosia? Se utilizará la extensión de la lista de verificación Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-analyses Scoping Review (PRISMA-ScR) para buscar artículos en las siguientes bases de datos: PubMed, Lilacs vía Biblioteca Virtual en Salud, Scielo, Web of Science, vía portal Coordinación de Perfeccionamiento del Personal de Educación Superior y literatura gris. Para los estudios elegibles que cumplan con todos los criterios de inclusión y exclusión, se utilizará una herramienta de

extracção de dados para recopilar y almacenar las principales características de los estudios y los resultados se presentarán mediante síntesis narrativa y tablas y gráficos.

Palabras clave: Anquiloglossia; Frenillo; Niños; Frenotomía; Frenectomía.

1. Introdução

A anquiloglossia é uma alteração congênita que pode ocorrer em recém nascidos e se caracteriza pelo frênulo lingual curto, apertado e grosso, causando assim limitação no movimento lingual (Oliveira et al., 2019; Marchesan, 2005). O frênulo lingual é uma prega de membrana mucosa que vai do assoalho da boca até a linha média da parte inferior da língua e tem como função, a estabilização da base da língua, sem nenhuma interferência nos seus movimentos. (Marchesan, 2005).

A etiologia da anquiloglossia, comumente conhecida por “língua presa” é de natureza hereditária, autossômica dominante, com transmissão entre as gerações através do cromossomo X. Também a associam com a utilização de cocaína por mulheres grávidas, sendo três vezes maior o risco da doença entre os filhos de usuárias da droga, quando comparadas com as não usuárias e ainda existem àqueles que afirmam que a etiologia da anquiloglossia é de origem desconhecida (Berg, 1990; Harris et al., 1992; Coryllos et al., 2004; Han et al., 2012).

As taxas de incidência variam de 2% a 10%, sendo mais frequentes em recém nascidos, e a prevalência da doença é de 0,02% a 12%. Estudos apontam maior ocorrência da anomalia entre os homens (3:1) e não foi encontrada associação racial (Suter & Bornstein, 2009; Walsh & Benoit, 2019; Hill et al., 2021). A taxa de prevalência de anquiloglossia no Brasil, é de 4,3% o que corrobora com as tendências mundiais (Vilarinho et al., 2022).

As principais repercussões da anquiloglossia para a criança, estão relacionadas às práticas da amamentação, tendo em vista a limitação do movimento da língua. Esta limitação causa o selamento não adequado da boca da criança junto ao peito da mãe e conseqüentemente a sucção ineficaz. Podem ainda ocorrer problemas tanto na deglutição, como na respiração do bebê e nas dores no mamilo da mãe (Marchesan, 2005; Jackson, 2012; Oliveira et al., 2019).

O aumento no diagnóstico e tratamento da anquiloglossia foi observado nos últimos anos, com diferenças e variabilidade em vários países (Walsh et al., 2017; Lisonek et al., 2017; Kapoor et al., 2018). A frenotomia tem sido o tratamento recomendado, sendo um procedimento simples, eficaz e seguro, com poucas complicações e muitos benefícios para a criança; A frenotomia consiste na incisão do frênulo lingual (Francis et al., 2015; O’Shea et al., 2017).

No Brasil a obrigatoriedade da triagem foi instituída em todas as maternidades, com a Lei nº 13.002/2014, que estabelece a realização do Teste da Linguinha, que tem como objetivo o diagnóstico precoce da anquiloglossia nos recém nascidos, com vistas na indicação do tratamento precoce (Brasil, 2014).

Com o intuito de ampliar conhecimentos e identificar as evidências disponíveis sobre a frenotomia, suas indicações e repercussões na vida das crianças e familiares, surgiu a motivação para realizar o presente protocolo de revisão de escopo que tem como objetivo mapear as evidências sobre a frenotomia em crianças portadoras de anquiloglossia, desde diagnóstico, assim como técnicas de tratamento, complicações e possíveis benefícios. Com isso, essa revisão sintetizará o conhecimento existente para a condução de futuros estudos primários visando uma prática mais adequada à saúde do binômio mãe-filho.

2. Metodologia

As revisões de escopo têm o objetivo de sintetizar evidências e avaliar o escopo do conhecimento produzido a respeito de um determinado assunto (Tricco et al., 2018). A metodologia de revisão de escopo, utilizada para este protocolo, será do Joanna Briggs Institute (JBI), Reviewers Manual 2020 (Aromataris & Munn, 2020), que estabelece cinco etapas: (1) identificação das questões de pesquisa; (2) identificação dos estudos relevantes; (3) seleção dos estudos; (4) análise dos dados; e (5) agrupamento, síntese e apresentação dos resultados seguindo as recomendações do Preferred Reporting Items for

Systematic Reviews and Meta-analyses Scoping Review (PRISMA-ScR). O protocolo foi registrado no Open Science Framework (OSF), vide n°. osf.io/efnu4.

A pergunta da pesquisa foi orientada pela estratégia PCC (P: População, C: Conceito, C: Contexto), sendo “P” a população (recém-nascidos e lactentes), “C” o conceito (anquiloglossia com indicação de frenotomia/frenectomia), e “C” o contexto (mundial) e indaga a seguinte questão: Quais as evidências científicas existentes acerca da indicação de frenotomia em crianças com anquiloglossia?

Serão pesquisadas publicações nas seguintes bases de dados: Web of Science, PubMed; Literatura Latino-Americana e do Caribe em Ciências da Saúde (LILACS), via Biblioteca Virtual em Saúde (BVS), Scientific Electronic Library Online (SciELO) e a literatura cinzenta será explorada em sites do Ministério da Saúde, Organização Mundial da Saúde (OMS) e Google Academics.

A estratégia de busca será feita a partir de descritores cadastrados no Descritores em Ciências de Saúde DeCS e Medical Subject Headings MeSH para compor o maior número de palavras chave, como apresentado no Quadro 1 (Araujo, 2020).

Quadro 1 – Estratégia de busca da revisão de escopo.

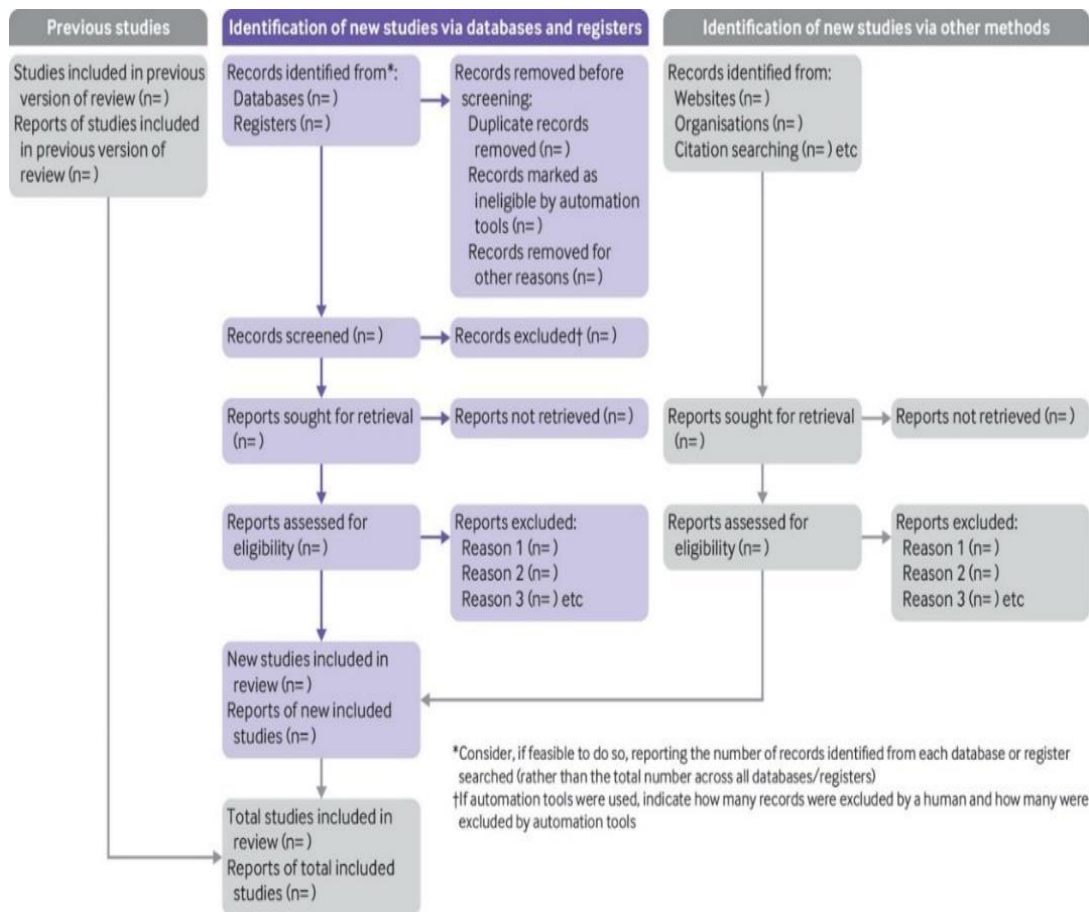
Extração	População	Conceito	Contexto
	Recém nascidos e Crianças	Frenotomia/frenectomia	Mundial
Conversão	Newborn, child, infant	Frenotomy/frenectomy	-
Combinação	Newborn, child, infant	Frenotomy/frenectomy	-
Construção	Newborn or child or infant	Frenotomy or frenectomy	-
Uso	Newborn OR child OR infant AND Frenotomy OR frenectomy		

Fonte: Autores.

Serão incluídos artigos científicos completos que descrevam efeitos da frenotomia em crianças com anquiloglossia sem restrições a modelo de estudo, idioma ou local de pesquisa. Como referencial temporal, serão considerados artigos publicados desde 20/06/2014, data da lei de obrigatoriedade do teste da linguinha em território nacional. Estudos em animais, estudos de laboratório, resumos de congressos e outros tipos de publicações não científicas não serão considerados para esta revisão. Trabalhos que abordem frenotomia em população não infantil, ou que se relacione a anquiloglossia sem relação com frenotomia/frenectomia também serão excluídos.

Adicionalmente, será utilizado o fluxograma PRISMA (*Preferred Reporting Items for Systematic Review and Meta-Analyses*) (Figura 1).

Figura 1 – Diagrama do Preferred Reporting Items for Systematic Review and Meta-Analyses (PRISMA) versão 2020.



Fonte: Page et al. (2021).

Para realizar a seleção dos estudos, remoção de duplicadas e triagem, será utilizado o gerenciador de referências Rayyan QCRI versão *on-line* (Ouzani *et al.*, 2016). A organização dos dados será realizada através do programa Microsoft Word, contendo os seguintes atributos: título da publicação, autores, fonte de publicação, ano, objetivo, tipo de estudo, resultados. A triagem dos estudos será realizada por dois revisores independentes, assim como a extração dos dados. Caso haja discordância entre os dois avaliadores, será convocado um terceiro avaliador.

Os estudos serão classificados de acordo com suas características, que terão sido coletados por meio de gráficos, tabelas e mapas visuais, assim como uma discussão qualitativa dos resultados encontrados. Isso será feita de forma agregada, em vez de fornecer uma avaliação de qualidades de estudo individuais, para fornecer uma visão geral do campo de pesquisa e onde está atualmente, em última análise, em um esforço para identificar as lacunas de conhecimento que existam atualmente.

Quadro 2 – Quadro de extração de dados.

Título	Autores	Ano	Fonte de publicação	Objetivo	Tipo de estudo	Resultados

Fonte: Autores.

3. Resultados esperados

A frenotomia é uma técnica que vem sendo utilizada em crianças com anquiloglossia, já tendo sido comprovados seus efeitos benéficos para o binômio mãe-filho. Com a realização desta pesquisa pretende-se conhecer o que está sendo publicado sobre essa temática, sintetizando os conhecimentos atuais, tornando possível a realização de novos estudos, como também a difusão entre os profissionais direta e indiretamente envolvidos com crianças portadoras de anquiloglossia e indicação de frenotomia.

Agradecimentos

Este artigo será desenvolvido durante o Curso de Mestrado Profissional em Saúde da Criança e do Adolescente.

Referências

- Aromataris, E. & Munn, Z. (2020). JBI Manual for Evidence Synthesis. Joanna Briggs Institute. <https://doi.org/10.46658/JBIMES-20-01>.
- Araújo, W. C. O. (2020). Recuperação da informação em saúde. *ConCI: Convergências em Ciência da Informação*, 3(2), 100-34. <https://doi.org/10.33467/conci.v3i2.13447>.
- Berg, K. L. (1990). Tongue-tie (ankyloglossia) and breastfeeding: a review. *J Hum Lact*, 6(3):109-12. 10.1177/089033449000600315.
- Brasil. *Lei nº 13.002, de 20 de junho de 2014*. Obriga a realização do Protocolo de Avaliação do Frênulo da Língua em Bebês. Diário Oficial da União. http://www.planalto.gov.br/ccivil_03/_ato2011-2014/2014/lei/113002.htm#:~:text=LEI%20N%C2%BA%2013.002%2C%20DE%2020%20DE%20JUNHO%20DE%202014.&text=Obriga%20a%20realiza%C3%A7%C3%A3o%20do%20Protocolo,Fr%C3%AAnulo%20da%20L%C3%ADngua%20em%20Beb%C3%AAs.
- Camargo, B. V. & Justo, A. M. (2013). IRAMUTEQ: Um software gratuito para análise de dados textuais. *Temas em Psicologia*, 21(2), 513-8. <https://doi.org/10.9788/TP2013.2-16>
- Coryllos, E.; Genna, C. W. & Salloum, A. C. (2004). *Congenital tongue tie and its impact on breastfeeding*. American Academy of Pediatrics. <https://www.yumpu.com/en/document/view/41715212/congenital-tongue-tie-and-its-impact-on-breastfeeding-new->.
- Francis, D. O.; Chinnadurai, S.; Morad, A.; Epstein, R. A.; Kohanim, S.; Krishnaswami, S. . . . McPheeters M, L. (2015). Treatments for ankyloglossia and ankyloglossia with concomitant lip-tie. Agency for Healthcare Research and Quality. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/26065053/>.
- Han, S. H.; Kim, M. C.; Choi, Y. S.; Lim, J. S. & Han, K. T. (2012). A study on the genetic inheritance of ankyloglossia based on pedigree analysis. *Arch Plast Surg.*, 39(4), 329-32. <https://doi.org/10.5999%2Faps.2012.39.4.329>.
- Harris, E. F.; Friend, G. W. & Tolley, E. A. (1992). Enhanced prevalence of ankyloglossia with maternal cocaine use. *Cleft Palate Craniofac J*, 29(1), 72-6. 10.1597/1545-1569_1992_029_0072_epoawm_2.3.co_2.
- Hill, R. R.; Lee, C. S. & Pados, B. F. (2021). The prevalence of ankyloglossia in children aged <1 yr: A systemic review and meta-analysis. *Pediatr Res*, 90(2), 259–66. 10.1038/s41390-020-01239-y.
- Jackson, R. (2012). Improving breastfeeding outcomes: the impact of tongue-tie. *Community Practitioner*, 85(6), 42-4. 10.1002/lary.26306.
- Kapoor, V.; Douglas, P. S.; Hill, P. S.; Walsh, L. W. & Tennant, M. (2018). Frenotomy for tongue-tie in Australian children 2006–2016: An increasing problem. *Med J Aust.*, 208(2), 88–9. 10.5694/mja17.00438.
- Lisonek, M.; Liu, S.; Dzakpasu, S.; Moore, A. M. & Joseph, K. S. (2017). Canadian perinatal surveillance system (Public Health Agency of Canada). Changes in the incidence and surgical treatment of ankyloglossia in Canada. *Paediatr Child Health*, 22(7), 382–6. <https://doi.org/10.1093/pch/pxx112>.
- Marchesan, I. Q. (2005). Lingual frenulum: quantitative evaluation proposal. *International Journal of Orofacial Myology*, 31, 39-48. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/16739711/>.
- Oliveira, A. J.; Duarte, D. A. & Diniz, M. B. (2019). Oral Anomalies in Newborns: an Observational Cross-Sectional Study. *J Dent Child (Chic)*, 86(2), 75-80. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31395111/>.
- O’Shea, J. E.; Foster, J. P.; O’Donnell, C. P.; Breathnach, D.; Jacobs, S. E.; Todd, D. A. . . . Davis, P. G. (2017). Frenotomy for tongue-tie in newborn infants. *Cochrane Database of Systemic Reviews*, 11(3). <https://doi.org/10.1002/14651858.CD011065.pub2>.
- Ouzzani, M.; Hammady, H.; Fedorowicz, Z. & Elmagarmid, A. (2016). Rayyan — a web and mobile app for systematic reviews. *Systematic Reviews*, 5(1), 210. <https://doi.org/10.1186/s13643-016-0384-4>.
- Page, M. J.; McKenzie, J. E.; Bossuyt, P. M.; Boutron, I.; Hoffmann, T. C.; Mulrow, C. D. . . . Moher, D. (2021). *The PRISMA 2020 statement: an updated guideline for reporting systematic reviews*. *BMJ*, 372(71). <https://doi.org/10.1136/bmj.n71>
- Suter, V. G. A. & Bornstein, M. M. (2009). Ankyloglossia: facts and myths in diagnosis and treatment. *J Periodontol.*, 80(8), 1204-19. <https://doi.org/10.1902/jop.2009.090086>.

Tricco, A. C.; Lillie, E.; Zarin, W.; O'Brien, K. K.; Colquhoun, H.; Levac, D. . . . Straus, S. E. (2018). PRISMA Extension for Scoping Reviews (PRISMA-ScR): Checklist and Explanation. *Annals of Internal Medicine*, 169(7), 467-473. <https://doi.org/10.7326/M18-0850>

Vilarinho, S.; Dantas-Neta, N. B.; Duarte, D. A. & Imparato, J. C. P. (2022). Prevalence of ankyloglossia and factors that impact on exclusive breastfeeding in neonates. *Rev. CEFAC.*, 24(1), e5121. <https://doi.org/10.1590/1982-0216/20222415121>.

Walsh, J.; Links, A.; Boss, E. & Tunkel, D. (2017). Ankyloglossia and lingual frenotomy: National trends in inpatient diagnosis and management in the United States, 1997–2012. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 156(4), 735–40. [10.1177/0194599817690135](https://doi.org/10.1177/0194599817690135).

Walsh, J. & Benoit, M. M. (2019). Ankyloglossia and other oral ties. *Otolaryngol Clin North Am.*, 52(5), 795–811. <https://doi.org/10.1016/j.otc.2019.06.008>.