

# PANORAMA GLOBAL DA ANQUILOGLOSSIA EM RECÉM-NASCIDOS: UMA ANÁLISE BIBLIOMÉTRICA

## *GLOBAL PANORAMA OF ANKYLOGLOSSIA IN NEWBORNS: A BIBLIOMETRIC ANALYSIS*

Luiz Mauricio Nogueira Nunes<sup>1</sup>; Juliana Miranda Bonelli<sup>2</sup>; Leonardo dos Santos Antunes<sup>12</sup>; Livia Azeredo Alves Antunes<sup>12</sup>.

<sup>1</sup> Universidade Federal Fluminense, Programa de Pós graduação em Odontologia – Faculdade de Odontologia, Niterói, RJ, Brasil.

<sup>2</sup> Universidade Federal Fluminense, Departamento de formação específica, Nova Friburgo, RJ, Brasil.

### Resumo

**Introdução:** A anquiloglossia é uma malformação congênita, que tem como consequência a limitação dos movimentos da língua. Essa condição, apesar de conhecida, ainda desperta muitas dúvidas em relação ao diagnóstico e tratamento, principalmente em neonatos, cujo impacto na amamentação ainda não foi bem estabelecido. **Objetivo:** Mapear o panorama global da anquiloglossia em recém-nascidos por meio de análise bibliométrica. **Metodologia:** Foi realizada uma busca com os termos “Newborn”, “Ankyloglossia” nas plataformas *Pubmed*, *Embase*, *Cochrane*, Biblioteca Virtual de Saúde, *Web of Science* e *Scopus*. **Resultados:** Após a remoção das duplicatas e aplicação dos critérios de elegibilidade, 431 estudos foram incluídos e importados para o software VOSviewer. O ano de 2019 registrou a maior quantidade de artigos sobre o tema (44). As palavras-chave “cirurgia” e “aleitamento” foram as que mais apareceram na pesquisa, com forte ligação entre si. Entretanto, nas publicações mais recentes, os termos “laser” e “complicações cirúrgicas” estão entre os mais citados. Dentre os 49 países pesquisados, os Estados Unidos foram o que mais publicaram sobre o assunto (104), seguidos pelo Reino Unido (46), Austrália (28) e Brasil (22). O estudo mais relevante no portfólio estudado foi “Ankyloglossia: assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad”, de Ballard e colaboradores. **Conclusão:** O estudo das alterações do frênulo lingual tem despertado um interesse crescente na comunidade científica e evidencia uma preocupação em desvendar o impacto da cirurgia na melhora do aleitamento materno, para a criação de bases sólidas que justifique a sua indicação, em detrimento dos riscos.

**Palavras-chave:** Anquiloglossia; Recém-nascido; Bibliometria, Aleitamento materno; Cirurgia.

## Abstract

**Introduction:** Ankyloglossia is a congenital malformation that results in limited tongue movement. Despite being a known condition, it still raises many questions regarding diagnosis and treatment, especially in neonates, where its impact on breastfeeding has not been well established. **Purpose:** To map the global landscape of ankyloglossia in newborns through bibliometric analysis. **Methodology:** A search was conducted using the terms "Newborn" and "Ankyloglossia" on the platforms Pubmed, Embase, Cochrane, Biblioteca Virtual de Saúde, Web of Science, and Scopus. **Results:** After removing duplicates and applying eligibility criteria, 431 studies were included and imported into the VOSviewer software. The year 2019 had the highest number of articles on the topic (44). The keywords "surgery" and "breastfeeding" were the most frequent in the research and showed a strong association. However, in more recent publications, the terms "laser" and "surgical complications" are among the most cited. Among the 49 countries surveyed, the United States published the most on the subject (104), followed by the United Kingdom (46), Australia (28), and Brazil (22). The most relevant study in the analyzed portfolio was "Ankyloglossia: assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad" by Ballard and colleagues. **Conclusion:** The study of lingual frenulum alterations has garnered increasing interest in the scientific community and underscores a concern to uncover the impact of surgery on improving breastfeeding, in order to establish a solid foundation justifying its indication in light of the associated risks.

**Keywords:** Ankyloglossia; Newborn; Bibliometric; Breastfeeding; Surgery.

Recebido em: 10/09/2023

Publicado em: 24/09/2024

### Autor correspondente

Lívia Azeredo Alves Antunes

R. Dr. Silvio Henrique Braune, 22 - Centro, Nova Friburgo - RJ, 28625-650

E-mail: [liviaazeredo@gmail.com](mailto:liviaazeredo@gmail.com)

Telefone: +55(21)26292352

## 1. Introdução

A língua é o órgão mais móvel do corpo e atua em diversas funções no sistema estomatognático como sucção, deglutição, mastigação e fala, contribuindo ainda para o desenvolvimento normal dos dentes e da mandíbula<sup>1</sup>. No embrião, sua

formação ocorre a partir da quarta semana de gestação, durante o desenvolvimento de outras estruturas da face. Nessa fase, a língua está fixada no assoalho bucal mas, à medida em que o seu desenvolvimento ocorre, suas células

sofrem apoptose, migrando distalmente para a região mediana do dorso da língua<sup>2</sup>.

O frênulo (ou freio) lingual é caracterizado como uma membrana que conecta a parte ventral da língua ao assoalho da boca. É uma estrutura dinâmica, formada por uma prega mediana em uma camada de fáscia que se insere ao redor do arco interno da mandíbula, formando uma estrutura semelhante a um diafragma no assoalho da boca<sup>3</sup>. Pode diferir em comprimento e espessura, assim como apresentar variações em relação ao seu local de inserção superior (língua) e inferior (assoalho).

A anquiloglossia, caracterizada por um frênulo anormalmente curto, constitui-se numa anomalia oral congênita, que ocorre quando restos remanescentes de tecido permanecem na face inferior da língua por apoptose insuficiente durante o desenvolvimento embrionário<sup>4</sup>. Tem um caráter hereditário e pode ser considerada como resultado da herança genética individual, e transmitida como um caráter autossômico dominante<sup>5</sup>.

Não existe, na literatura, um consenso em relação à prevalência da anquiloglossia na população. Em

recém-nascidos, as estimativas variam entre 4,2% e 15,5%<sup>6-8</sup>. Isso pode ser dito em relação à classificação. Alguns métodos foram propostos para definir a gravidade da anquiloglossia de acordo com critérios anatômicos e funcionais<sup>9-12</sup>. Todavia, ainda falta um sistema universalmente aceito para caracterizar os diversos fenótipos relacionados ao frênulo lingual<sup>13</sup> e o seu impacto nas funções orais.

Nos primeiros dias de vida, a anquiloglossia tem sido associada à dificuldade de amamentar devido à queixa materna como dor, fissura mamilar, infecção e baixo suprimento de leite. Em relação ao bebê, dificuldades na pega e a mecânica de sucção abaixo do ideal podem resultar em ineficaz transferência de leite, mamadas excessivamente longas, ganho de peso inadequado, o que é um fator de risco para o sucesso da amamentação<sup>14-16</sup>.

Embora o procedimento cirúrgico pareça conferir melhoras nos resultados de alimentação e desconforto materno, a compreensão de como distinguir bebês com anquiloglossia significativa e aqueles com outros fatores que afetam o sucesso da amamentação é limitado<sup>17</sup>. Dessa forma, a indicação cirúrgica carece de mais embasamento

científico, uma vez que existem poucos estudos de alta qualidade sobre o impacto da frenotomia lingual na amamentação<sup>18</sup>.

Considerando a relevância do tema, este estudo propõe uma análise contemporânea do panorama global da anquiloglossia em recém-nascidos por meio de uma revisão

bibliométrica. Essa metodologia de pesquisa foca na análise da produção científica existente sobre um determinado assunto<sup>19</sup>, com o objetivo de mapear o estado da arte mediante a construção de uma rede de conhecimento a partir do estudo de diversas variáveis de interesse, servindo, assim, como base para futuras pesquisas.

## 2. Metodologia

### Fonte de dados e estratégia de pesquisa

Uma busca avançada foi realizada nas plataformas *Pubmed*, *Embase*, *Cochrane*, Biblioteca Virtual de Saúde (BVS), *Web of Science* e *Scopus* utilizando as palavras-chave “*Newborn*” e “*Ankyloglossia*”, assim como seus sinônimos “*Infant*”,

“*Neonate*”, “*Tongue Tie*”, *Partial Ankyloglossia*”. (QUADRO 1). A pesquisa foi realizada no mês de abril de 2023. Não houve limitação em relação à língua ao ano de publicação. Artigos de diferentes línguas foram acessados pelo Google Tradutor.

QUADRO 1 - Estratégia de busca

Database	Search strategy
Medline via Pubmed	#1 (((((((Newborn Infant*[Title/Abstract]) OR (Newborn*[Title/Abstract])) OR (Neonate*[Title/Abstract])) OR (Infant[MeSH Terms])) OR (Newborn[MeSH Terms])) #2((((Ankyloglossia*[Title/Abstract]) OR (Tongue Tie*[Title/Abstract])) OR (Partial Ankyloglossia[Title/Abstract])) OR (Ankyloglossia[MeSH Terms])) #3 (((((Ankyloglossia*[Title/Abstract]) OR (Tongue Tie*[Title/Abstract])) OR (Partial Ankyloglossia[Title/Abstract])) OR (Ankyloglossia[MeSH Terms])) AND (((((Newborn Infant*[Title/Abstract]) OR (Newborn*[Title/Abstract])) OR (Neonate*[Title/Abstract])) OR (Infant[MeSH Terms])) OR (Newborn[MeSH Terms]))
Scopus	#1 ( TITLE-ABS-KEY ( newborn AND infant* ) OR TITLE-ABS-KEY ( newborn* ) OR TITLE-

	<p>ABS-KEY ( neonate* )</p> <p>#2 ( TITLE-ABS-KEY ( ankyloglossia* ) OR TITLE-ABS-KEY ( tongue AND tie* ) OR TITLE-ABS-KEY ( partial AND ankyloglossia ) )</p> <p>#3 ( ( TITLE-ABS-KEY ( ankyloglossia* ) OR TITLE-ABS-KEY ( tongue AND tie* ) OR TITLE-ABS-KEY ( partial AND ankyloglossia ) ) ) AND ( ( TITLE-ABS-KEY ( newborn AND infant* ) OR TITLE-ABS-KEY ( newborn* ) OR TITLE-ABS-KEY ( neonate* ) ) )</p>
<b>Web of Science</b>	<p>#1 Newborn Infant* (Topic) or Newborn* (Topic) or Neonate* (Topic)</p> <p>#2 Ankyloglossia* (Topic) or Tongue Tie* (Topic) or Partial Ankyloglossia (Topic)</p> <p>#3 #1 AND #2</p>
<b>BVS</b>	<p>((recém-nascido) OR (criança recém-nascida*) OR (lactente) OR (recém-nascido*) OR (neonato*) OR (recém-nascido (rn)) OR (infant) OR (newborn) OR (recién nacido) OR (nouveau-né) OR (neonate*)) AND ((ankyloglossia) AND (anquiloglossia) AND (anquiloglossia parcial) AND (língua presa) )</p>
<b>Cochrane</b>	<p>#1 (Ankyloglossia*):ti,ab,kw OR (Tongue Tie*):ti,ab,kw OR (Partial Ankyloglossia):ti,ab,kw</p> <p>#2 (Newborn*):ti,ab,kw OR (Newborn Infant*):ti,ab,kw OR (Neonate*):ti,ab,kw</p> <p>#3 #1 AND #2</p>
<b>Embase</b>	<p>#1 newborn:ti,ab,kw OR 'toddler'/exp OR 'infant'/exp</p> <p>#2 'ankyloglossia'/exp OR ankyloglossia:ti,ab,kw</p> <p>#3 #1 AND #2</p>

## Critérios de elegibilidade e seleção de artigos

Os resultados foram exportados na plataforma Zotero, em formato bibitex, incluindo dados relevantes como, palavras-chave, resumo e bibliografia. Após a remoção das duplicatas, dois pesquisadores (LMNN e JMB) iniciaram o processo de seleção e aplicação dos critérios de elegibilidade por meio da análise do título e do resumo com o intuito de selecionar artigos que abordassem a anquiloglossia em recém-nascidos.

Nessa fase, foram excluídos os estudos realizados em outras faixas etárias, em animais ou com temas não relacionados aos critérios estabelecidos inicialmente. Os estudos com resumo e título pouco claros foram lidos na íntegra para minimizar a possibilidade de desconsideração de estudos importantes e reaplicados os critérios de inclusão e exclusão. Os artigos que geraram discordância

entre os revisores foram discutidos e revisados por um terceiro autor

### **Análise bibliométrica**

O estudo bibliométrico foi realizado por meio do *software VOSviewer* versão 1.6.18. Assim, foi possível conhecer os diferentes aspectos das publicações relacionados ao tema de interesse. Foram analisadas as características das publicações, incluindo ano de publicação, países e autores que mais produziram, além de destacar os principais trabalhos, que foram dispostos em tabelas e mapas de rede ou de sobreposição.

Para otimizar o entendimento dos resultados e evitar a dispersão no mapa de termos com significados próximos, algumas palavras-chave foram unificadas por área de estudo (QUADRO SUPLEMENTAR 1). Como exemplo, as palavras *frenulectomy*, *frenulotomy*, *frenotomy*, *frenectomy*, *tongue-tie division* e *oral surgery* foram substituídas por *surgery*. O mesmo ocorreu com os termos *aleitamento materno*, *breastfeed*, e *breast feeding* que serão citados como *breastfeeding*.

Esse procedimento foi realizado utilizando a ferramenta *Thesaurus*, disponível no *VOSviewer*, com o intuito de evitar a contagem

(LAAA), chegando a um acordo.

individual de palavras-chave descritas de forma similares (singular e plural, por exemplo) ou sinônimas. Assim, essa unificação permitiu que o programa contabilizasse os dados corretamente, agrupando essas palavras. A observação desses quesitos nos estudos bibliométricos é de suma importância, e ignorar essa etapa pode causar um erro grave na interpretação dos resultados.

Uma vez que todas as buscas nas bases de dados foram relacionadas à “anquiloglossia” e “recém-nascidos”, tais termos foram estrategicamente removidos dos resultados, uma vez que todas as outras palavras mineradas nesta pesquisa estão intrinsicamente ligadas a elas.

Para verificar a publicação científica realizada por países e por co-citação, foram computados apenas os artigos disponíveis na base de dados *Scopus*, uma vez que o *VOSviewer* não permite a utilização desses recursos para a base de dados importada de gerenciador de referências. Para tal, um arquivo CSV foi exportado dessa base de dados contendo os metadados necessários, e,

posteriormente, importado para o software *VOSviewer* para realização da análise bibliométrica desses parâmetros.

Na visualização de rede, os itens são demonstrados por nós e arestas, e ainda classificados em *clusters*. O nó é a variável pesquisada (palavras-chave, publicações, pesquisadores, países, entre outros). Já as arestas indicam relações entre pares de nós. O

### 3. Resultados

A busca inicial nas bases pesquisadas identificou 1.323 artigos que foram exportados para o gerenciador de referências Zotero. A partir daí, foi realizada a remoção das duplicatas, restando 675 artigos eleitos para

tamanho do nó e da aresta de um item é determinado pelo seu grau de relevância. Ou seja, quanto maior o seu peso, maior será a aresta e o círculo que denota o item<sup>20</sup>. Clustering é um método para definir itens em grupos por similaridade e detectar itens intimamente associados<sup>21</sup>. Nesses mapas, clusters de itens são apresentados por cores diferentes para representar o grupo ao qual um nó foi alocado.

leitura dos resumos. Após essa fase, 244 artigos foram excluídos por não atenderem aos critérios de inclusão, resultando numa amostra final de 431 artigos selecionados para análise (FIGURA1).

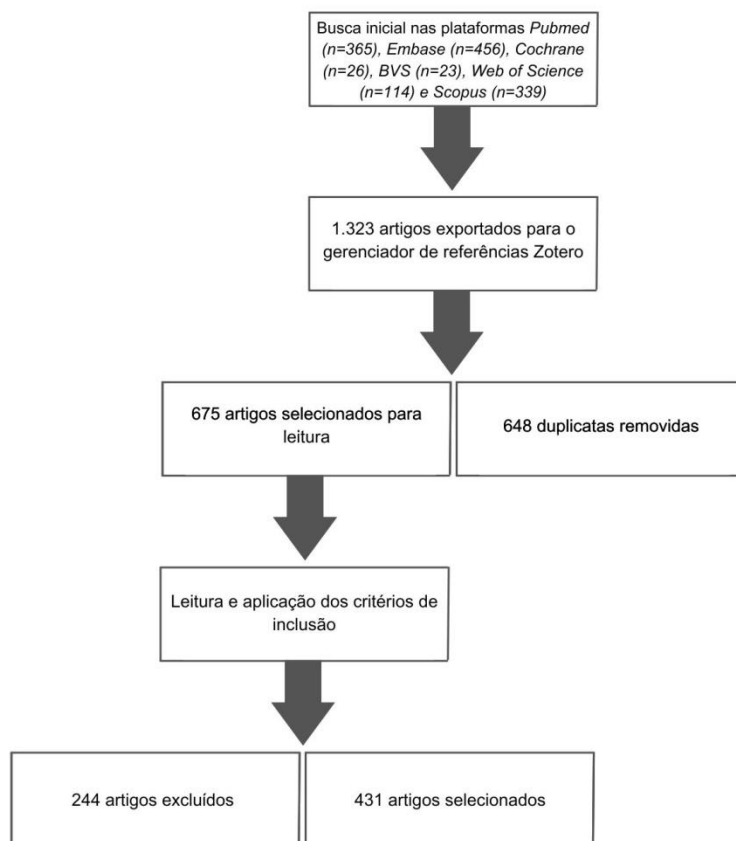


FIGURA 1 - Fluxograma de seleção dos artigos.

### Análise das publicações por ano

A publicação mais antiga data do ano de 1968. Nas duas décadas posteriores, é possível perceber uma baixa produção científica sobre o assunto (no máximo uma por ano). Entretanto, em 1990 ocorre um aumento substancial de trabalhos (9), apresentando uma curva ascendente nos anos

seguintes. A partir de 2010 (até dezembro de 2022), foram publicados 326 artigos, resultado numa média aproximada de 25 por ano. Vale destacar que, em 2019, esse número atingiu o seu pico, com 44 publicações (FIGURA 2).



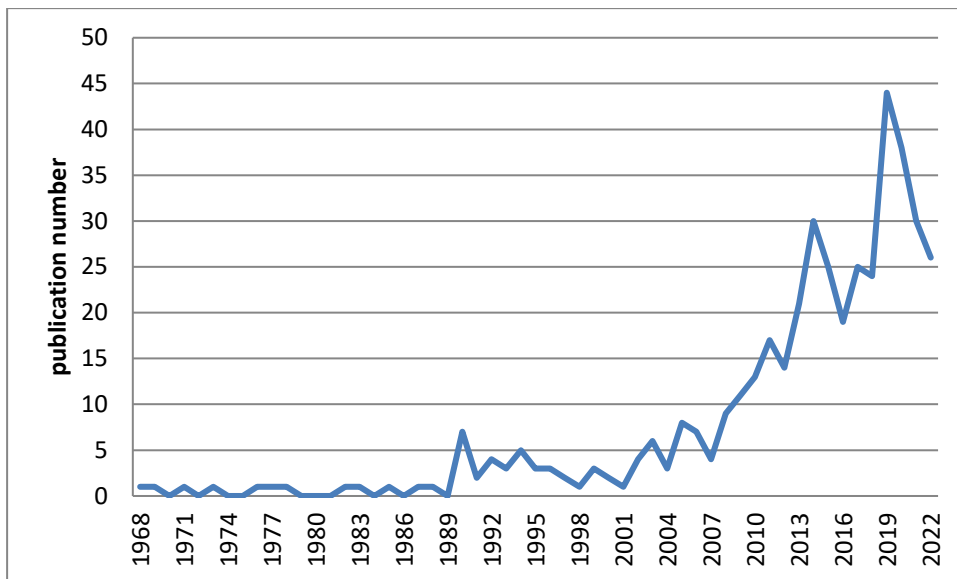
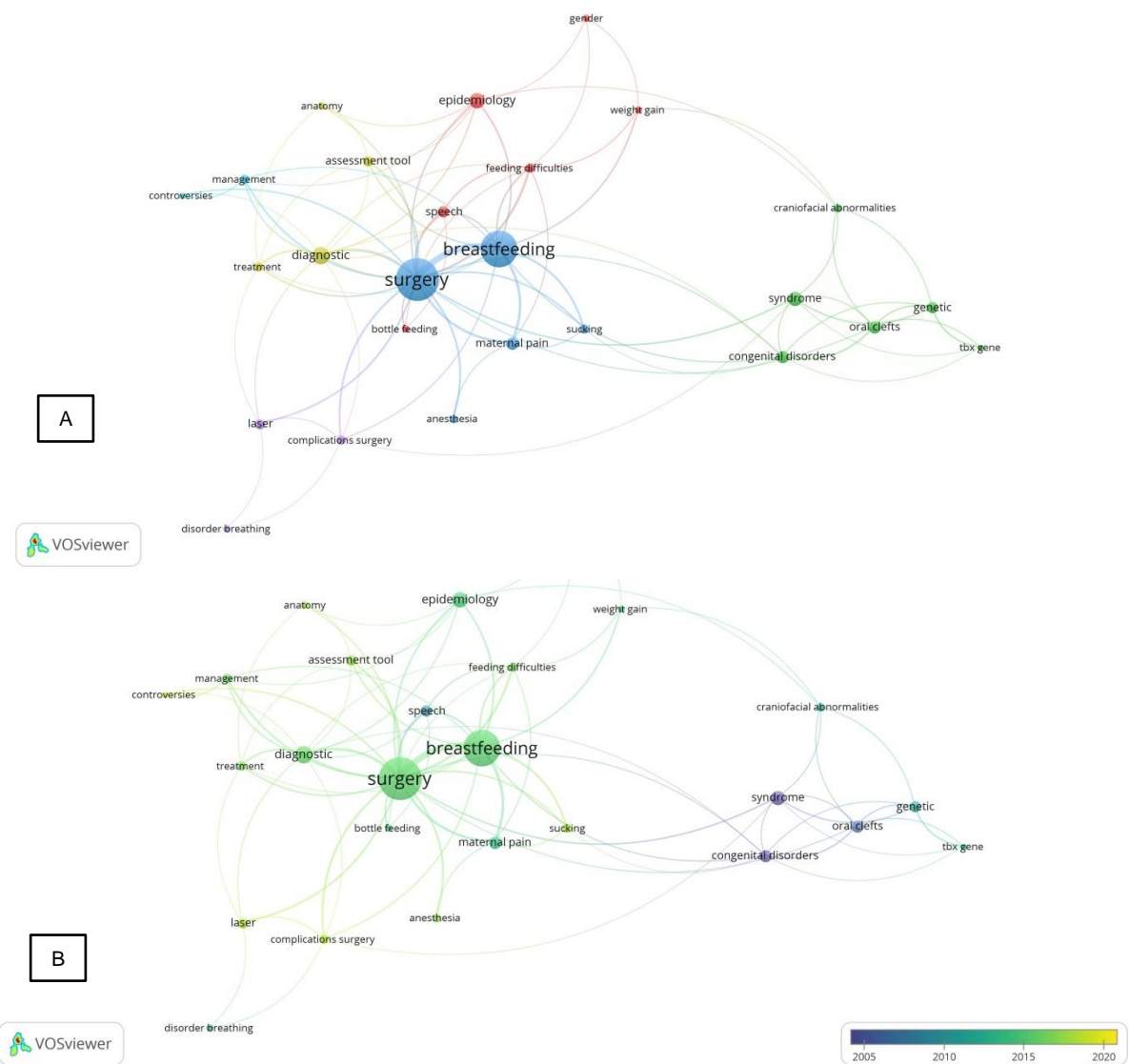


FIGURA 2 - Visualização de número de publicações por ano.

### Análise das palavras-chave

O primeiro parâmetro a ser estudado foi o de coocorrência de palavras-chave de todos os artigos selecionados, e foram encontradas 300 palavras. Todavia, por meio do uso do *Thesaurus*, esse número foi reduzido para 154 palavras. Para definir os termos mais relevantes, foram selecionados apenas aqueles

que apareceram, ao menos, 5 vezes na pesquisa, gerando 27 itens. Assim, a palavra-chave mais citada no conjunto de publicações analisadas foi “cirurgia” (198), seguida de “aleitamento materno” (151). É possível visualizar também que esses dois elementos estão ligados fortemente entre si (FIGURA 3A).



**FIGURA 3** - Cooorrência de palavras-chave. A: visualização de Rede das palavras-chave pela força (número de citações). B: Visualização com sobreposição (análise temporal).

O Temo “diagnóstico” ocupou o terceiro lugar com 35 citações, enquanto o estudo da “epidemiologia” (26) e a relação da anquiloglossia com “síndromes” (22) foram a quarta e quinta palavras mais citadas, respectivamente. Na TABELA SUPLEMENTAR 1 é possível notar que, entre os 10 dos assuntos mais

relacionados com a língua presa em neonatos, figuram ainda as palavras “desordem congênita” (16), “dor materna” (6), “fissuras orais” (16), “fala” (15) e “genética” (14).

Quando é feita a análise temporal das publicações, ficam evidentes no mapa (FIGURA 3B) os *clusters* em amarelo, mostrando que os temas mais

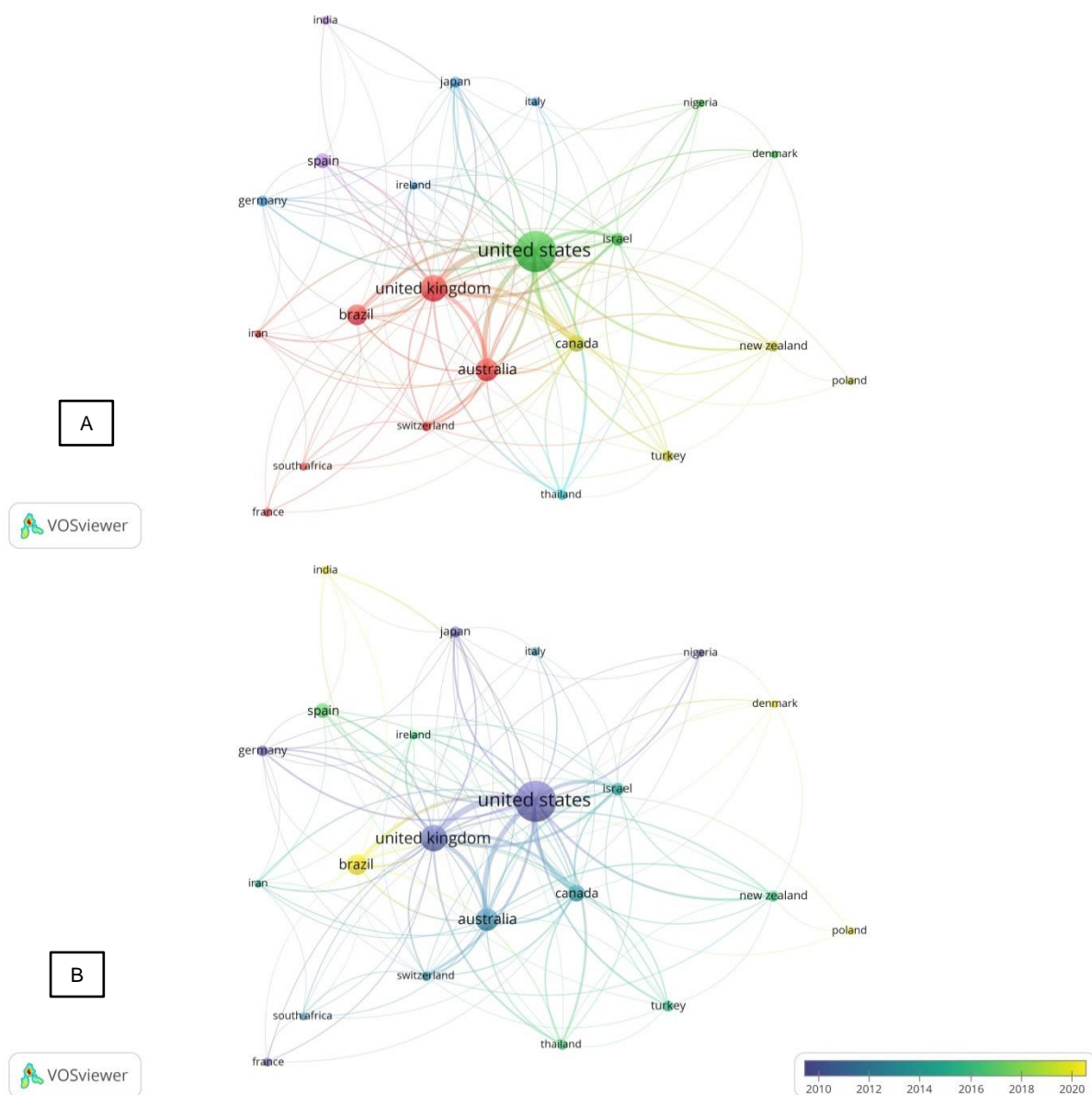
pesquisados atualmente estão relacionados ao uso do “laser” no tratamento da anquiloglossia, às controvérsias em relação ao diagnóstico e ao tratamento cirúrgico,

assim como as suas complicações. As palavras “ferramenta de avaliação” e “anatomia” também se destacam entre os temas publicados mais recentemente.

### **Análise das publicações por país**

Esta busca identificou 55 países com publicações sobre o tema, de acordo com a nacionalidade dos seus autores. Foram selecionados apenas aqueles países com um mínimo de 4 publicações, reduzindo este número para 20 países. Os Estados Unidos encabeçam a lista com 104 artigos e o segundo lugar foi ocupado pelo Reino

Unido, com 46. A Austrália (28), o Brasil (22) e o Canadá (17) ocupam o terceiro, quarto e quinto lugar, respectivamente (FIGURA 4A, TABELA SUPLEMENTAR 2). Entretanto, países como o Brasil, Dinamarca, Índia e Polônia têm sido responsáveis pelas publicações mais recentes na área, conforme demonstrado na FIGURA 4B.



**FIGURA 4** - Mapa de rede dos países que mais publicaram sobre o tema. A: visualização dos países pela força (número de trabalhos). B: visualização com sobreposição (análise temporal).

Quando o quesito a ser analisado é o número de citações obtidas, os mesmos três países com maior volume de produções científicas (Estados Unidos, Reino Unido e Austrália) se mantêm no topo, na mesma colocação, com 2548, 1276 e

629 citações, respectivamente. Entretanto, não ocorre da mesma forma com o Brasil que, apesar de ser o quarto país com o maior volume de publicação, ocupa o décimo terceiro lugar, citado 55 vezes (TABELA SUPLEMENTAR 3).

## Análise dos principais autores em número de trabalhos e citações (pelo conjunto da obra)

A busca realizada encontrou 945 pesquisadores com trabalhos publicados abordando diversos aspectos da anquiloglossia em recém-nascidos. Para descrever os mais assíduos, foram selecionados aqueles que publicaram a partir de 3 artigos. Dessa forma, apenas 24 autores atenderam ao critério de seleção. Com 6 trabalhos cada, se

destacaram, em primeiro lugar, 2 autores: Geddes DT. e Todd DA. Em seguida, com 4 publicações cada, foram encontrados 9 autores: Botzer E; Dollberg S; Douglas PS; Griffiths DM; Harley EH; Hartmann PE.; Hogan MJ.; Martinelli RLC.; Walsh J, conforme descrito na TABELA 1.

**TABELA 1** - Relação de autores por trabalhos publicados e citações (conjunto da obra).

Autor	documentos	citações
Geddes DT	6	219
Todd DA	6	123
Botzer E	4	181
Dollberg S	4	181
Douglas PS	4	54
Griffiths DM	4	347
Harley EH	4	63
Hartmann PE	4	191
Hogan MJ	4	189
Martinelli RLC	4	16
Walsh J	4	173

No portfólio pesquisado, o autor com maior número de citações, pelo conjunto da obra publicada foi Griffiths DM, que teve seus 4 trabalhos referenciados em 347 artigos, seguido de Geddes DT,

cujos trabalhos (6) foram citados 219 vezes (TABELA 1). A FIGURA SUPLEMENTAR 1 mostra que os autores estão divididos em 4 grandes grupos (clusters),

diferenciados por cor, permitindo

visualizar a interação entre eles.

### Análise dos trabalhos mais citados

Para determinar os artigos mais importantes sobre o assunto de interesse, foram selecionados aqueles com um mínimo de 50 citações. Dessa forma, 27 trabalhos atenderam ao critério estabelecido. Na TABELA 3, é possível visualizar que o principal

trabalho, com 217 citações, foi publicado em 2002, por Ballard J.L. e colaboradores sob o título “Ankyloglossia: assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad”.

TABELA 3- Relação dos 10 trabalhos mais citados.

Ordem	Referência da publicação	Número de citações
1	Ballard JL, Auer CE, Khoury JC. Ankyloglossia: assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad. <i>Pediatrics</i> . 2002 Nov; 110(5): 63-69. doi: 10.1542/peds.110.5.e63	217
2	Messner AH, Lalakea ML, Janelle A, Macmahon K, Bair E. Ankyloglossia: Incidence and associated feeding difficulties. <i>Arch Otolaryngol Head and Neck Surg</i> . 2000 Jan; 126(1): 36-39. doi: 10.1001/archotol.126.1.36	206
3	Hogan M, Westcott C, Griffiths, M. Randomized, controlled trial of division of tongue-tie in infants with feeding problems. <i>Journal of paediatrics and child health</i> . 2005 Oct; 41(5): 246-250. doi: 10.1111/j.1440-1754.2005.00604.x	170
4	Geddes DT, Langton DB, Gollow I, Jacobs LA, Hartmann PE, Simmer K. Frenulotomy for breastfeeding infants with ankyloglossia: Effect on milk removal and sucking mechanism as imaged by ultrasound. <i>Pediatrics</i> . 2008 Jan; 122(1):188-194. doi: 10.1542/peds.2007-2553	145
5	Buryk M, Bloom, D, Shope T. Efficacy of neonatal release of ankyloglossia: a randomized trial. <i>Pediatrics</i> . 2011 Jan; 128(2) 280-288. doi: 10.1542/peds.2011-0077	134
6	Segal LM, Stephenson R, Dawes M, Feldman, P. Prevalence, diagnosis, and treatment of ankyloglossia: Methodologic review. <i>Canadian Family Physician</i> . June 2007; 53(6): 1027-1033. PMID: 17872781	126
7	Dollberg S, Botzer, E, Grunis E, Mimouni FB. Immediate nipple pain relief after frenotomy in breast-fed infants with ankyloglossia: a randomized, prospective study. <i>Journal of pediatric surgery</i> . 2006; 41(9): 1598-1600. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2006.05.024	122

8	Ricke LA, Baker NJ, Madlon-Kay DJ, DeFor TA. Newborn tongue-tie: Prevalence and effect on breast-feeding. <i>Journal of the American Board of Family Practice</i> . 2005 Oct; 18(1): 1-7. doi:10.3122/jabfm.18.1.1	118
9	Jorgenson RJ, Shapiro SD, Salinas CF, Levin LS. Intraoral findings and anomalies in neonates. <i>Pediatrics</i> . 1982; 69(5): 577-582.	93
10	Berry J, Griffiths M, Westcott C. A double-blind, randomized, controlled trial of tongue-tie division and its immediate effect on breastfeeding. <i>Breastfeeding Medicine</i> . 2012; 7(3): 189-193. doi:10.1089/bfm.2011.0030	91

Dentre os 10 trabalhos mais referenciados é possível perceber que a maioria deteve-se em avaliar o impacto da cirurgia na amamentação (1, 3, 4, 5, 7, 10). Temas relacionados à avaliação anatômica e diagnóstico da anquiloglossia foram abordados por 5

publicações (1, 2, 6, 8, 9). A investigação sobre a epidemiologia da língua presa foi descrita em 2 artigos (1, 6) e a dificuldade da anquiloglossia na amamentação foi o tema de outros dois trabalhos (2, 8).

#### 4. Discussão

A primeira publicação relacionada ao escopo deste estudo foi registrada no final da década de 60<sup>22</sup> e mostra a multidisciplinaridade do tema, uma vez que abordou o papel do fonoaudiólogo na indicação de frenulotomia em casos de anquiloglossia. Na referida época, o assunto não era tão estudado apresentando, no máximo, uma publicação por ano. Essa realidade começou a mudar em 1990, quando foram registrados, nas bases pesquisadas, 9 trabalhos. Desde então, é possível notar uma curva

ascendente nas publicações, gerando, na última década, uma média aproximada de 27 trabalhos por ano.

Em relação à palavra-chave, os termos “cirurgia” e “aleitamento materno” figuram entre os mais evidentes quando o assunto é anquiloglossia. Ainda chama atenção o fato de estas palavras estarem fortemente conectadas entre si, o que demonstra o interesse em conhecer o real impacto da cirurgia na amamentação de recém-nascidos portadores de anquiloglossia.

No artigo mais citado<sup>23</sup>, foram examinados 3.036 lactentes para estudar a anquiloglossia, determinar sua incidência e medir a eficácia do procedimento de frenuloplastia na melhora do aleitamento materno. Nesse estudo, os autores defendem que uma avaliação cuidadosa da função lingual, seguida de frenuloplastia quando indicada, parece ser uma abordagem bem-sucedida para facilitar a amamentação. Relatam ainda que o procedimento cirúrgico é de baixo risco.

Todavia, os estudos mais recentes apontam a falta de evidência científica para a indicação cirúrgica e a necessidade de um consenso para o tratamento da anquiloglossia em neonatos. Algumas revisões sistemáticas já foram conduzidas<sup>7,24,25</sup> sem, no entanto, conseguirem associar a realização de frenotomia com a melhora no aleitamento materno em recém-nascidos. Já a dor mamilar parece obter melhora após a intervenção, apesar do baixo grau de evidências<sup>7</sup>.

Ainda assim, o número de cirurgias tem aumentado, gerando uma preocupação na comunidade científica, devido à falta de comprovação sobre a sua eficácia<sup>26-29</sup>

e pela falta de protocolo para justificar sua indicação. Ao mesmo tempo, alguns autores ressaltam a possibilidade de complicações pós-cirúrgicas<sup>30,31</sup>, como dificuldade de alimentação, dor, hemorragia e perda de peso.

É evidente que qualquer intervenção cirúrgica, mesmo a mais simples, pode ocasionar riscos. Quando esta envolve recém-nascidos, com baixo peso corpóreo e sem histórico de doenças, o cuidado deve ser redobrado. Seguindo essa lógica, um importante estudo dissecou cadáver de recém-nascidos para conhecer a estrutura anatômica do frênulo lingual e verificou a proximidade de estruturas nobres, como o nervo lingual<sup>3</sup>. Com isso, o procedimento cirúrgico somente deve ser indicado com bases sólidas.

Nesse mesmo sentido, existe um aumento da preocupação dos pesquisadores em desenvolver opções para diminuição desse risco. Como resultado, é possível observar que o tema “laser” se destacou na análise temporal sobre as palavras-chave utilizadas nas publicações mais recentes<sup>32,33</sup>, provavelmente devido às vantagens apresentadas como a hemostasia, facilitando a visualização durante o procedimento cirúrgico, e



diminuindo a possibilidade de hemorragia pós-operatória.

O país com maior produção de artigos foram os EUA com 104 trabalhos produzidos, seguido do Reino Unido (46) e da Austrália (28). Em relação ao número de citações, a ordem de colocação dos países permaneceu a mesma. O investimento sólido e constante em pesquisas nas diversas áreas do conhecimento pode explicar o protagonismo dos EUA em relação à produção científica.

Comparando os 20 países que mais se destacaram na busca, chama atenção que o Brasil, apesar de ser o quarto

país mais ativo, com 22 publicações, ficou posicionado na décima terceira colocação quanto ao número de citações, a mesma classificação da Nigéria, com apenas 5 trabalhos publicados (TABELA SUPLEMENTAR 3). Uma justificativa plausível poderia ser em função de o país contar com as produções mais recentes, conforme demonstrado na FIGURA 4B. Assim, essa realidade tende a mudar nos próximos anos. Vale lembrar que o país é o único no mundo a ter uma lei que determina a aplicação de protocolo para a avaliação do frênulo lingual em todos recém-nascidos em seu território<sup>34</sup>.

### **Tendências futuras das pesquisas**

Várias lacunas ainda persistem em relação à anquiloglossia em recém-nascidos e devem despertar o interesse dos pesquisadores na busca de respostas em estudos futuros. Temas como amamentação e cirurgia foram as palavras mais evidenciadas na pesquisa e devem permanecer no radar dos autores como assunto principal a ser estudado. Entretanto, o diagnóstico, a classificação e a etiologia dos freios orais são temas relevantes e que também necessitam de mais pesquisas e, por isso, devem

ocupar lugar de destaque nas futuras publicações.

O fenótipo do frênulo lingual é o somatório de todas as suas características anatômicas, como forma, composição e inserção. Desse modo, a natureza subjetiva do seu diagnóstico é um grande desafio para a comunidade científica. Por isso existe a necessidade de desenvolvimento e/ou aprimoramento de ferramentas de avaliação do frênulo lingual. Para

Hatami et al <sup>35</sup> os modelos existentes não são eficazes para auxiliar no diagnóstico em relação aos critérios para indicar a realização de procedimento cirúrgico.

De igual modo pode ser dito em relação à classificação do frênulo lingual. Segundo Mills et al (2019)<sup>3</sup>, a anquiloglossia é um diagnóstico clínico e os sistemas de classificação para anquiloglossia mais utilizados atualmente<sup>11,12</sup> têm como base a observação de uma única característica anatômica relacionada à aparência do frênulo, ou seja, à altura da sua inserção na superfície ventral da língua. Para ele, como a associação entre estrutura e limitação funcional ainda é incerta, o diagnóstico de anquiloglossia permanece subjetivo.

A respeito da etiologia, a presença do frênulo lingual é justificada pela

## 5. Conclusão

Os resultados deste estudo evidenciam o crescente interesse que a temática dos freios orais em recém-nascidos tem despertado na comunidade científica, com os Estados Unidos liderando em relação ao número de publicações e citações

ausência de apoptose, que é um mecanismo de morte celular geneticamente programado e fundamental para remodelação dos tecidos, durante o desenvolvimento embrionário. Portanto, estudos abrangentes, baseados no sequenciamento completo do exoma (WES, whole exome sequencing) e genoma (WGS, whole genome sequencing) devem ser incentivados, uma vez que são as principais estratégias para desvendar variantes causais para diversas alterações, incluindo as malformações dos freios orais <sup>36</sup>. Afinal, estudos de sequenciamento genômico, muito utilizados para investigar outras malformações orais e síndromes, ainda são inéditos em relação às anomalias dos freios, e não foi encontrado na base PUBMED nenhum estudo de WGS envolvendo o tema.

nesta área de pesquisa. Os termos mais frequentemente mencionados neste estudo, nomeadamente "cirurgia" e "aleitamento materno," destacam a necessidade premente de uma compreensão mais profunda do

impacto da cirurgia na melhoria da amamentação.

Além disso, as palavras-chave que emergiram como relevantes nas publicações mais recentes, como "complicações cirúrgicas," "controvérsias," e "laser," sugerem a importância de estabelecer uma base sólida para abordagens cirúrgicas, junto à implementação de técnicas destinadas a minimizar os riscos associados a esse procedimento.

Esses achados indicam que, embora haja uma vasta produção de

conhecimento sobre o tema, ainda persiste uma lacuna em relação à abordagem cirúrgica da anquiloglossia, assim como o seu real efeito na amamentação. As direções futuras de pesquisa devem focar em estudos longitudinais para avaliar os resultados em longo prazo dessas intervenções. Promover colaborações internacionais também poderá ampliar o entendimento global e fornecer uma base mais robusta para práticas clínicas padronizadas.

## 6. Conflito de interesses

Os autores declaram a inexistência de conflito de interesse com o presente artigo.

## 7. Referências

BOMMARITO, S.; ZANATO, L.E.; VIEIRA, M.M.; ANGELIERI, F. Aglossia: Case Report. **International Archives of Otorhinolaryngology**, v. 20, n. 01, p. 087-092, 2016.

KATCHBURIAN, E.; ARANA, V. **Histologia e embriologia oral: texto, atlas, correlações clínicas**. 3rd. ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan, 2012.

MILLS, N.; GEDDES, D.T.; PRANSKY, S.M.; MIRJALILI, S.A. Defining the anatomy of the neonatal lingual frenulum. **Clinical Anatomy**, v. 32, n. 6,

p. 824-835, 2019.

NOX, I. Tongue tie and frenotomy in the breastfeeding newborn. **NeoReviews**, v. 11, n. 9, p. 513-518, 2010.

KLOCKARS, T. Familial ankyloglossia (tongue-tie). **International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology**, v. 71, n. 8, p. 1321-1324, 2007.

MESSNER, A. H.; LALAKEA, M.L.; ABY, J.; MACMAHON, J.; BAIR, E. Ankyloglossia: Incidence and associated feeding difficulties.

*Archives of Otolaryngology - Head and Neck Surgery*, v. 126, n. 1, p. 36-39, 2000.

O'SHEA, J.E.; FOSTER J.P.; O'DONNELL, C.P.; BREATHNACH, D.; JACOBS, S.E.; TODD, D.A.; DAVIS, P.G. Frenotomy for tongue-tie in newborn infants. *Cochrane Database of Systematic Reviews*, v. 3, n. 3, p.1-36, 2017.

ROWAN-LEGG, A.; CANADIAN PAEDIATRIC SOCIETY; COMMUNITY PAEDIATRICS COMMITTEE. Ankyloglossia and breastfeeding. *Paediatrics & Child Health*, v. 20, n. 4, p. 209-213, 2015.

AMIR, L. H.; JAMES, J. P.; DONATH, S. M. Reliability of the Hazelbaker Assessment Tool for Lingual Frenulum Function. *International Breastfeeding Journal*, v. 1, n. 1, p. 1-6, 2006.

BRZEĆKA, D.; GARBACZ, M.; MICAŁ, M.; ZYCH, B.; LEWANDOWSKI, B. Diagnosis, classification and management of ankyloglossia including its influence on breastfeeding. *Developmental Period Medicine*, v. 23, n. 1, p. 79-87, 2019.

CORYLLOS, E.; GENNA, C.; SALLOUM. Congenital tongue-tie and its impact on breastfeeding. *American Academy of Pediatrics Section on Breastfeeding Newsletter*, p.1-6, 2004.

KOTLOW, L. A. Ankyloglossia (tongue-tie): a diagnostic and treatment quandary. *Quintessence International (Berlin, Germany: 1985)*, v. 30, n. 4, p. 259-262, 1999.

MESSNER, A. H.; LALAKEA, M. L. The effect of ankyloglossia on speech in

children. *Otolaryngology-Head and Neck Surgery: Official Journal of American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery*, v. 127, n. 6, p. 539-545, 2002.

CAMPANHA, S. M. A.; MARTINELLI, R. L. C.; PALHARES, D. B. Association between ankyloglossia and breastfeeding. *CoDAS*, v. 31, n. 1, p.1-7, 2019.

GARBIN, C. P.; SAKALIDIS, V.S.; CHADWICK, L.M.; WHAN, E.; HARTMANN, P.E.; GEDDES, D.T. Evidence of improved milk intake after frenotomy: A case report. *Pediatrics*, v. 132, n. 5, p. 1413-1417, 2013.

GHAHERI, B. A.; COLE, M.; FAUSEL, S.C.; CHUOP, M.; MACE, J.C. Breastfeeding improvement following tongue-tie and lip-tie release: A prospective cohort study. *Laryngoscope*, v. 127, n. 5, p. 1217-1223, 2017.

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. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery (United States)*, v. 156, n. 4, p. 735-740, 2017.

RUFFOLI, R. GIAMBELLUCA, M.A.; SCAVUZZO, M.C.; BONFIGLI, D.; CRISTOFANI, R.; GABRIELE, M.; GIUCA, M.R.; GIANNESI, F. Ankyloglossia: a morphofunctional investigation in children. *Oral Diseases*, v. 11, n. 3, p. 170-174, 2005.

ARAÚJO, C. A. V. Bibliometria: evolução histórica e questões atuais. *Em Questão*, v. 12, n. 1, p. 11-32, 2006. Disponível em:

[<http://hdl.handle.net/20.500.11959/brapci/10124>](<http://hdl.handle.net/20.500.11959/brapci/10124>). Acesso em: 10 set. 2023.

VAN ECK, N. J.; WALTMAN, L. Software survey: VOSviewer, a computer program for bibliometric mapping. *Scientometrics*, v. 84, n. 2, p. 523-538, 2010.

VAN ECK, N. J.; WALTMAN, L. Visualizing Bibliometric Networks. In: DING, Y.; ROUSSEAU, R.; WOLFRAM, D. (Eds.). *Measuring Scholarly Impact*. Cham: Springer International Publishing, 2014. p. 285-320.

BLOCK, J. R. The role of the speech clinician in determining indications for frenulotomy in cases of ankyloglossia. *The New York State Dental Journal*, v. 34, n. 8, p. 479-481, 1968.

BALLARD, J. L.; AUER, C. E.; KHOURY, J. C. Ankyloglossia: assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad. *Pediatrics*, v. 110, n. 5, p. 1-6, 2002.

BRUNNEY, T. L.; SCIME, N.V.; MADUBUEZE, A.; CHAPUT, K.H. Systematic review of the evidence for resolution of common breastfeeding problems-Ankyloglossia (Tongue Tie). *Acta Paediatrica (Oslo, Norway: 1992)*, v. 111, n. 5, p. 940-947, 2022.

CHINNADURAI, S.; FRANCIS D.O.; EPSTEIN, R.A.; MORAD, A.; KOHANIM, S.; MCPHEETERS, M. Treatment of ankyloglossia for reasons other than breastfeeding: A systematic review. *Pediatrics*, v. 135, n. 6, p. 1467-1474, 2015.

BAWAZIR, O.A.; BAWAZIR, A.O.; BAWAZIR, R.O.; BAWAZIR, F.A.;

HALABI, N.F. Experiences and outcomes of frenotomy in children with ankyloglossia in multiple tertiary centers in Saudi Arabia. *Journal of Clinical Neonatology*, v. 10, n. 2, 103-107, 2021.

BROOKES, A.; BOWLEY, D. M. Tongue tie: the evidence for frenotomy. *Early Human Development*, v. 90, n. 11, p. 765-768, 2014.

BUNDOGJI, N.; ZAMORA, S.; BRIGGER, M.; JIANG, W. Modest benefit of frenotomy for infants with ankyloglossia and breastfeeding difficulties. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*. v.133, p.1-6, 2020.

MATTHEWS, E.; CHOUDHRY, M. An audit of impacts of frenulectomy in breast feeding. *Archives of Disease in Childhood*, v. 97, A475, 2012.

HALE, M.; MILLS, N.; EDMONDS, L.; DAWES, P.; DICKSON, N.; BARKER, D.; WHEELER, B.J. Complications following frenotomy for ankyloglossia: A 24-month prospective New Zealand Paediatric Surveillance Unit study. *Journal of Paediatrics and Child Health*, v. 56, n. 4, p. 557-562, 2020.

KIM, D. H.; DICKIE, A.; SHIH, A.C.H.; GRAHAM, M.E. Delayed Hemorrhage following Laser Frenotomy Leading to Hypovolemic Shock. *Breastfeeding Medicine*, v. 16, n. 4, p. 346-348, 2021.

DELL'OLIO, F.; BALDASSARRE, M.E., RUSSO, F.G et al. Lingual laser frenotomy in newborns with ankyloglossia: a prospective cohort study. *Italian Journal of Pediatrics*, v. 48, n. 1, p.1-10, 2022.

MAZZONI, A.; NAVARRO, R.S.;

FERNANDES, K.P.S.; MESQUITA-FERRARI, R.A.; HORLIANA, A.C.R.T.; SILVA, T.; SANTOS, E.M. et al. Comparison of the Effects of High-Power Diode Laser and Electrocautery for Lingual Frenectomy in Infants: a Blinded Randomized Controlled Clinical Trial. **Journal of Clinical Medicine**, v. 11, n. 13, p. 1-12, 2022.

BRASIL. Presidência da República. 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**, 23 jun.

2014, Sec. 1, p. 4.

HATAMI, A.; DREYER, C.W.; MEADE, M.J.; KAUR, S. Effectiveness of tongue-tie assessment tools in diagnosing and fulfilling lingual frenectomy criteria: a systematic review. **Australian Dental Journal**, v. 67, n. 3, p.212-219, 2022.

NUNES, L. M. N.; DIAS, G.M.; ANTUNES, L.S.; ANTUNES, L.A.A. Fatores genéticos associados aos freios orais. In: PAULA, V.C; TOSTES, M.A. **Freios Orais** - Prática Clínica e Evidência Científica. São Paulo: Santos Publicações, 2023, p. 16-32.

## Arquivos Suplementares

QUADRO SUPLEMENTAR 1 - Visualização das palavras-chave e os termos utilizados para seu agrupamento no software VOSviewer.

Palavras chaves	Unificação dos termos
analgesia	anesthesia
analgesic agent	anesthesia
analgesic effect	anesthesia
anesthesia	anesthesia
general anesthesia	anesthesia
topical benzocaine	anesthesia
aleitamento materno	breastfeeding
breast feeding	breastfeeding
breastfeeding	breastfeeding
craniofacial abnormalities	craniofacial abnormalities
craniofacial abnormalities/genetics	craniofacial abnormalities
craniofacial malformation	craniofacial abnormalities
craniofacial synostosis	craniofacial abnormalities
mouth abnormalities	craniofacial abnormalities
oral anomalies	craniofacial abnormalities
diagnosis	diagnostic
diagnostic	diagnostic
diagnóstico	diagnostic
disease severity	diagnostic
clinical consensus	diagnostic
early diagnosis	diagnostic
overdiagnosis	diagnostic
demography	epidemiology
incidence	epidemiology
prevalence	epidemiology
prevalência	epidemiology
feeding behaviour	feeding difficulties
feeding difficulties	feeding difficulties
feeding difficulty	feeding difficulties
feeding disorder	feeding difficulties
dna sequence	genetic
dna/genetics	genetic
gene	genetic
gene mutation	genetic
genes	genetic
genes, recessive	genetic
genetic	genetic
genetic diseases	genetic

genetic linkage	genetic
genetic variability	genetic
x chromosome	genetic
x chromosome linkage	genetic
diode laser	laser
laser frenotomy	laser
laser surgery	laser
lasers	laser
lasers semicondutores/uso terapêutico	laser
breast diseases	maternal pain
breast feeding pain	maternal pain
mastalgia	maternal pain
nipple pain	maternal pain
pain	maternal pain
pain assessment	maternal pain
cleft face	oral clefts
cleft lip	oral clefts
cleft palate	oral clefts
congenital midline cervical cleft	oral clefts
psychological aspect	psychological aspect
psychology	psychological aspect
neonatal screening	screening
screening method	screening
screening tool	screening
language development	speech
speech	speech
speech disorder	speech
speech disorders	speech
speech outcomes	speech
speech therapy	speech
sucção	sucking
sucking	sucking
sucking behavior	sucking
sucking training	sucking
anquiloglossia/cirurgia	surgery
frenectomy	surgery
frenotomy	surgery
frenotomy	surgery
frenotomy	surgery
frenulectomy	surgery
frenulotomy	surgery
lingual frenum/surgery	surgery
oral surgery	surgery
surgery	surgery
surgery techniques	surgery



surgical	surgery
surgical approach	surgery
surgical management	surgery
surgical technique	surgery
tongue-tie division	surgery
complication	surgery complication
complications	surgery complication
complications surgery	surgery complication
hypovolemic shock	surgery complication
infection	surgery complication
major complications	surgery complication
hemorrhage	surgery complication
submandibular abscess	surgery complication
cohen syndrome	syndrome
goldenhar syndrome	syndrome
hanhart syndrome i	syndrome
hutchinson-gilford progeria syndrome (hgps)	syndrome
malformation syndrome	syndrome
multiple malformation syndrome	syndrome
orofaciodigital syndromes	syndrome
pierre robin syndrome	syndrome
trisomy 13	syndrome
ulnar mammary syndrome	syndrome
t box transcription factor tbx22	tbx gene
t-box domain proteins	tbx gene
tbx22	tbx gene
tbx22 gene	tbx gene
tbx22 protein	tbx gene
tbx3 gene	tbx gene

TABELA SUPLEMENTAR 2 - Visualização das palavras-chave por ordem.

Item	Palavras (inglês)	ocorrência
1	surgery	198
2	breastfeeding	151
3	diagnostic	35
4	epidemiology	26
5	syndrome	22
6	congenital disorders	17
7	maternal pain	16
8	oral clefts	16
9	speech	15
10	genetic	14

**TABELA SUPLEMENTAR 2** - Países que mais publicaram, por ordem de número de artigos publicados.

Item	País	Nº Artigos	Nº citação
1	United States	104	2548
2	United Kingdom	46	1276
3	Australia	28	629
4	Brazil	22	55
5	Canada	17	438
6	Spain	12	109
7	India	10	20
8	Israel	10	243
9	Switzerland	8	295
10	Germany	7	97
11	New Zealand	7	89
12	Thailand	7	101
13	Turkey	7	42
14	France	6	78
15	Italy	6	39
16	Japan	6	96
17	China	5	23
18	Nigeria	5	55
19	Iran	4	33
20	Poland	4	10

**TABELA SUPLEMENTAR 3** - Países que mais publicaram, por ordem de número de citações.

Item	País	Nº citação	Nº Artigos
1	United States	2548	104
2	United Kingdom	1276	46
3	Australia	629	28
4	Canada	438	17
5	Switzerland	295	8
6	Israel	243	10
7	Spain	109	12
8	Thailand	101	7
9	Germany	97	7
10	Japan	96	6
11	New Zealand	89	7

12	France	78	6
13	Brazil	55	22
14	Nigeria	55	5
15	Turkey	42	7
16	Italy	39	6
17	Iran	33	4
18	China	23	5
19	India	20	10
20	Poland	10	4

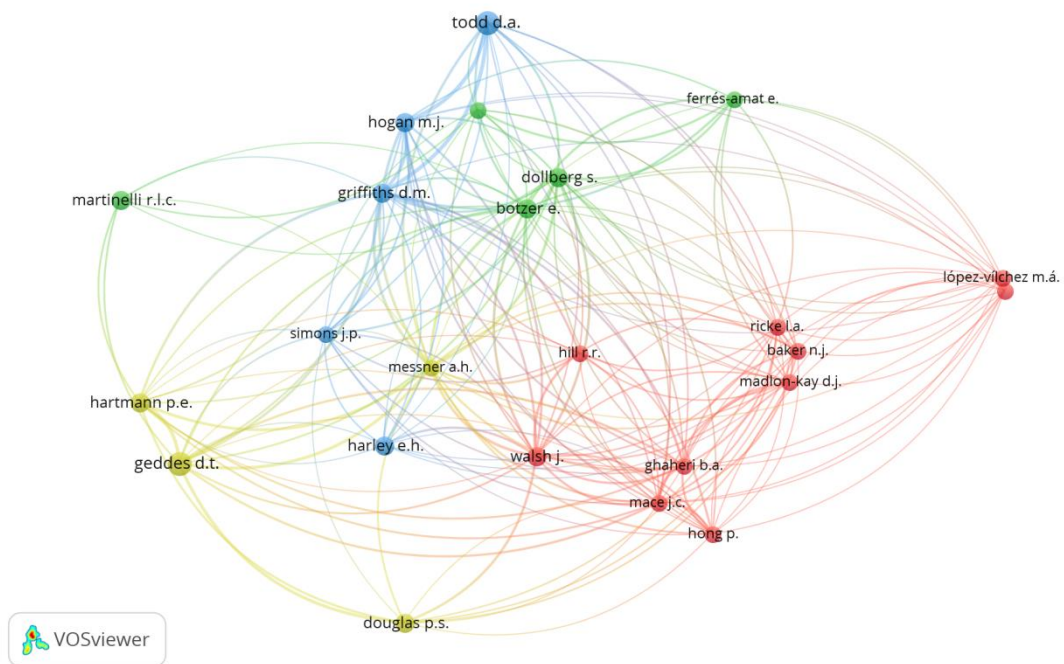


FIGURA SUPLEMENTAR 1- Visualização dos autores que mais publicaram sobre o tema proposto.