

# Frenillo lingual corto como factor de riesgo para los trastornos respiratorios del sueño en niños en edad escolar

Maria Pia Villa <sup>a,\*</sup>, Melania Evangelisti <sup>a</sup>, Mario Barreto <sup>a</sup>, Manuela Cecili <sup>a</sup>, Athanasios Kaditis <sup>b</sup>

*Palabras clave:* Frenillo lingual, maloclusión, trastornos respiratorios del sueño, apnea del sueño

## RESUMEN

**Antecedentes:** La evidencia reciente ha subrayado el papel de un frenillo lingual corto en la patogénesis de los trastornos respiratorios del sueño (TRS) en la infancia. La disfunción oral inducida por un frenillo corto podría promover un dismorfismo orofacial, reduciendo el lumen de la vía respiratoria superior y aumentando el riesgo de que esta colapse durante el sueño. El objetivo de este estudio fue evaluar la presencia de un frenillo lingual corto como factor de riesgo para los TRS en niños en edad escolar, con y sin ronquidos, seleccionados de la comunidad.

**Métodos:** Se seleccionaron a niños de entre 6 y 14 años de edad de una escuela de Roma. A todos los participantes se les rellenó el registro clínico del sueño (RCS) y se les realizaron una evaluación ortodóncica y una medición del frenillo lingual. También se evaluó en todos ellos la fuerza y la resistencia de la lengua mediante el instrumento de rendimiento oral de Iowa (IOPI). El TRS se definió mediante un RCS positivo ( $\geq 6,5$ ).

**Resultados:** Valoramos a 504 niños con una media de edad de  $9,6 \pm 2,3$  años, y en 114 de ellos (22,6%) se identificó un frenillo lingual corto. Los niños con frenillo lingual corto tenían un riesgo significativamente mayor de tener un RCS positivo en comparación con aquellos que tenían un frenillo de longitud normal (razón de momios = 2,980, intervalo de confianza del 95% = 1,260–6,997). No se encontraron diferencias en la fuerza o la resistencia de la lengua en participantes con un RCS positivo o negativo.

**Conclusión:** El frenillo lingual corto es un factor de riesgo para los TRS. Un enfoque multidisciplinar precoz y el cribado de los TRS están indicados cuando se reconoce esta anomalía anatómica.

## 1. Introducción

Los trastornos respiratorios del sueño (TRS) obstructivos se asocian con una mayor resistencia de la vía respiratoria superior y una colapsabilidad faríngea anormal, que provocan una obstrucción parcial o total de la vía respiratoria superior durante el sueño [1,2]. Los depósitos de tejido adiposo en las paredes de la vía respiratoria superior, una hipertrofia de dichas estructuras debida a tejido no adiposo, y ciertas características craneofaciales, en combinación con factores genéticos y ambientales, pueden contribuir a la restricción del espacio retropalatal y retrogloso [3–5].

Varios autores han descrito asociaciones entre maloclusiones y desórdenes funcionales de la cavidad oral y los músculos adyacentes [6]. Un desarrollo mandibular anormal y una maloclusión pueden influir en la función respiratoria, reduciendo el tamaño de la vía respiratoria superior [7,8].

Los niños que roncan de manera habitual y sufren de TRS a menudo tienen un crecimiento mandibular retrasado, lo que provoca una retroposición mandibular y un desplazamiento posterior de la lengua [9–11].

Un tratamiento de ortodoncia puede mejorar la alineación de los dientes y del maxilar y la mandíbula, lo que facilita la ampliación de la vía respiratoria superior y la resolución del TRS [8,12].

La anquiloglosia, una reducción de la porción de lengua libre, es una condición anatómica caracterizada por la restricción del movimiento lingual, lo que afecta a su función y a la forma de los arcos dentales, y en consecuencia, a su oclusión [13]. Durante la embriogénesis de la lengua, las células del frenillo lingual pasan por el proceso de apoptosis y migran en forma distal a la región media del dorso lingual. La anquiloglosia se debe a la falta total o parcial de la migración de dichas células, lo que provoca un frenillo lingual corto. En un informe reciente, Guillemineault et al investigaron de manera retrospectiva a 150 niños consecutivos con síndrome de apnea obstructiva del sueño (SAOS), 63 de los cuales tenían un frenillo lingual corto, según

se observó; y se concluyó que hay una asociación entre no tratar un frenillo lingual tras el nacimiento y la aparición del SAOS en una edad posterior [1]. Un segundo artículo del mismo grupo de trabajo informó de 150 niños consecutivos estudiados al mismo tiempo que la investigación anterior sobre el SAOS, y se halló que el 42% de estos niños tenía un frenillo corto que siempre iba asociado con un desarrollo anormal de la cavidad oral en los primeros años de vida [14]. Por tanto, el objetivo de este estudio fue evaluar la presencia de un frenillo lingual corto como factor de riesgo para los TRS en niños en edad escolar, con y sin ronquidos, seleccionados de la comunidad.

## **2. Pacientes y métodos**

### *2.1. Participantes*

La Junta de revisión institucional de la Universidad de La Sapienza aprobó el estudio y se solicitó el consentimiento informado por escrito a los padres de los niños. Se seleccionaron de manera prospectiva a niños de entre 6 y 14 años de edad de una escuela de Roma. Los criterios de exclusión fueron los siguientes: un historial positivo de enfermedad cardiorrespiratoria o neuromuscular aguda o crónica; enfermedad inflamatoria crónica; anomalías craneofaciales importantes; síndromes cromosómicos; y epilepsia.

### *2.2. Evaluación de TRS*

Para cada participante, se obtuvo el historial médico y se realizó un examen físico en busca de síntomas y signos relacionados con TRS, y se rellenó el registro clínico del sueño (RCS). Los detalles del RCS, una herramienta clínica para detectar niños con alto riesgo de TRS, se han descrito en otros sitios [15]. En pocas palabras, se calcula la puntuación del RCS después de considerar las siguientes variables: anomalías en la nariz, oclusión orofaríngea, dental y craneofacial; índice SAOS de Brouillette [16]; y la presencia de síntomas de déficit de atención e hiperactividad. Una puntuación RCS total  $\geq 6,5$  se considera positiva y está asociada a un riesgo

alto de SAOS, definido como un índice de apnea-hipopnea obstructiva (IAH) >1 episodio/h [15].

Más específicamente, la maloclusión dental/esquelética incluye una desviación de la mandíbula respecto a la oclusión normal, como retrognatia, prognatismo, mordida abierta, profunda y cruzada, y sobremordida vertical y horizontal. Un valor de sobremordida horizontal >4,0 mm se consideró aumentada, y la sobremordida vertical normal se determinó como la cobertura de un tercio de los incisivos inferiores por parte de los superiores. El término "mordida abierta" se utilizó en casos en los que no había superposición vertical ni contacto entre los incisivos anteriores cuando la mandíbula estaba cerrada. La mordida cruzada hacía referencia a la bucoversión de los dientes mandibulares respecto a los maxilares. Un paladar ojival se definió como una curvatura anormalmente pronunciada hacia arriba a lo largo de la línea central palatina.

La gravedad de la desviación del tabique nasal se clasificó en 3 categorías. En el grado I, el tabique desviado no llegaba al cornete nasal inferior; en el grado II, el tabique desviado llegaba al cornete nasal inferior; y en el grado III, el tabique desviado llegaba a la pared lateral y comprimía el cornete nasal inferior. En el RCS, la presencia de las anomalías indicadas anteriormente se puntuaba bien con 2 puntos (signo positivo), bien con 0 puntos (signo negativo).

### *2.3. Evaluación de la fuerza y la resistencia de la lengua*

Para caracterizar el frenillo de un participante como de longitud normal, medimos la longitud de la lengua libre [17]. Kotlow definió la longitud de la lengua libre como la distancia entre la inserción del frenillo lingual en la base de la lengua y la punta de la lengua. El frenillo se considera corto si la longitud de lengua libre es  $\leq 16$  mm [17].

Las características de la lengua también pueden influir en el riesgo de SAOS, y se evaluaron mediante el instrumento de rendimiento oral de Iowa (IOPI; IOPI Medical) [18]. El IOPI mide de manera objetiva la fuerza y la resistencia de la lengua [18]. La fuerza de la lengua se expresa como la presión máxima (en kPa) que se ejerce cuando un individuo empuja con la lengua un balón lingual desechable contra el techo de la boca. El procedimiento estándar y los valores de

referencia según la edad ya habían sido validados por Potter et al [19]. La presión máxima de la lengua se midió por triplicado; cada esfuerzo se mantuvo durante aproximadamente 1 segundo, y se dejó un periodo de descanso de 1 minuto entre cada medición. Para medir la resistencia se pidió a los participantes que mantuvieran el 50% de la presión máxima durante el máximo tiempo posible, y la duración de la medición de resistencia se expresó en segundos.

#### *2.4. Análisis estadístico*

El RCS positivo fue la medida del resultado primario, y el frenillo lingual corto fue la principal variable explicativa. Se comparó a los niños con y sin un RCS positivo en términos de longitud del frenillo lingual, frecuencia de frenillo lingual corto y otras variables que podrían influir en el riesgo de SAOS y que no se incluyen en el RCS, en concreto edad, sexo, desviación estándar del índice de masa corporal, obesidad, fuerza y resistencia de la lengua. Para evaluar la asociación entre frenillo lingual corto y riesgo de SAOS, se realizó una regresión logística multivariante para calcular la razón de momios y un intervalo de confianza del 95% para la presencia de un RCS positivo en niños con frenillo lingual corto frente a los que no lo tenían, después de realizar los ajustes correspondientes por edad, sexo, fuerza de la lengua y presencia de obesidad.

Se probó la normalidad en todas las variables. Por consiguiente, las variables se expresan como número y porcentaje (%) para las variables categóricas, media  $\pm$  desviación estándar (SD) para variables continuas de distribución normal, y mediana y rango intercuartil (percentiles 25–75) para variables continuas de distribución no normal. Se aplicó una prueba  $\chi^2$  o prueba exacta de Fisher para las comparaciones de variables categóricas, y la prueba  $t$  para muestras independientes o la prueba de la U de Mann–Whitney para comparaciones de variables continuas según la distribución normal de los datos. Todas las pruebas fueron bilaterales, y se consideró significativo un valor  $P < 0,05$ . Para todos los análisis se utilizó el paquete PASW Statistics de SPSS para Windows, versión 23.0) (SPSS Inc, Chicago, IL).

### **3. Resultados**

#### *3.1. Características de los participantes*

Inicialmente se seleccionó a un total de 532 niños; de estos, no se evaluó a 28 niños ya que cumplían con uno o más de los criterios de exclusión. Por tanto, se evaluaron 504 niños con una media de edad de 9,6 ( $\pm$  2,3) años, el 11,7% de los cuales eran obesos. De los 504 niños, 42 (8,3%) presentaban un alto riesgo de SAOS, según lo indicado por una puntuación del RCS  $\geq$ 6,5. Las anomalías que posiblemente contribuyen a la obstrucción de la vía respiratoria superior en niños con y sin un RCS positivo se presentan en las Tablas 1 y 2.

Los niños con un RCS positivo tenían una mayor prevalencia de maloclusión, desviación del tabique nasal, paladar ojival, respiración bucal, hipertrofia adenoamigdalara y frenillo lingual corto que los niños con un RCS negativo (Tablas 1 y 2). No se identificaron diferencias en edad, distribución por sexo, obesidad y mediciones del IOPI en los 2 grupos de participantes.

#### *3.2. Riesgo de RCS positivo en niños con frenillo lingual corto*

Se detectó un frenillo lingual corto en 114 niños (22,6%). Los niños con un frenillo lingual corto tenían un riesgo significativamente mayor de un RCS positivo en comparación con aquellos que tenían un frenillo lingual de longitud normal, cuando se consideraban los demás factores que podían influir en el riesgo de SAOS (edad, sexo, fuerza de la lengua, obesidad) (Tabla 3).

### **4. Discusión**

Se ha demostrado la asociación entre un frenillo lingual corto y un mayor riesgo de TRS según lo expresado por un RCS positivo en una población de edad escolar, después de considerar el efecto de otros factores de desviación, como edad y obesidad. El presente es un estudio epidemiológico basado en población que ha evaluado la prevalencia y los factores de riesgo de

los TRS en niños, y el papel potencial de un frenillo lingual corto en la patogénesis de la obstrucción nocturna de la vía respiratoria superior fue una de las hipótesis probadas del estudio.

Un frenillo lingual corto modifica la posición de la lengua e impide el desarrollo orofacial, especialmente en los primeros años de vida. Más específicamente, se ha asociado con dificultades en la succión, la deglución y el habla [20,21]. La evidencia reciente indica que un frenillo lingual corto podría provocar dismorfismo orofacial. Se ha demostrado que los cambios orofaciales provocan respiración bucal, debido a la modificación de la posición de la lengua, y anomalías ortodóncicas secundarias como una mordida cruzada anterior y posterior, un crecimiento desproporcionado de la mandíbula y un crecimiento anormal del maxilar. Todos estos cambios anatómicos afectan al tamaño de la vía respiratoria superior y aumentan el riesgo de colapso faríngeo durante el sueño [1,22].

Los factores genéticos y la disposición de los tejidos blandos en la región orofacial se han sugerido como factores etiológicos de la maloclusión [23]. La función primaria del frenillo lingual es mantener un equilibrio entre los huesos en crecimiento y la musculatura de la lengua y los labios durante el desarrollo fetal, así como limitar el movimiento de los tejidos musculares, como los labios, la lengua y las mejillas [24]. El crecimiento de los tejidos blandos influye considerablemente en el crecimiento de los tejidos duros [24,25]. La lengua es un componente tan importante del tejido blando que puede afectar al crecimiento del maxilar y la mandíbula [24,26]. El equilibrio entre la lengua y los músculos buccinadores es responsable del desarrollo de la anchura normal de los arcos maxilar y mandibular [27]. El tamaño, la posición, la estructura y el funcionamiento de la lengua también tienen un papel potencial en la etiología de la maloclusión [24].

Algunos investigadores han informado de la relación entre la maloclusión y un frenillo lingual corto [24–28]. Defabianis et al propusieron que la anquiloglosia limita el movimiento de elevación de la lengua, lo que impide la formación del sello labial durante la deglución y causa la interposición lingual y la mordida abierta [28]. Además, el movimiento de elevación de la

lengua es necesario para conseguir la anchura normal del paladar duro. La incapacidad de subir la lengua provoca la actividad ilimitada de los músculos buccinadores y la constricción del arco maxilar, una anchura intercanina e intermolar reducida en el maxilar, y una anchura intercanina reducida en la mandíbula [24,28]. Defabianis et al demostraron que la constricción del arco maxilar, la protrusión maxilar, el apiñamiento y la mordida abierta eran más comunes en individuos con un frenillo lingual corto que la mordida profunda y el espaciamiento dental [23,28].

Una mayor resistencia nasal y la respiración bucal en niños con TRS provoca una posición anormal de la lengua en reposo y durante el sueño, lo que a su vez reduce el movimiento de la lengua y probablemente induce a una hipotonía lingual [14,18]. Estos factores se asocian con maloclusión esquelética, y cuando la lengua no está en la posición normal (es decir, en contacto con los incisivos superiores y el paladar duro) sino que descansa sobre el suelo de la boca, se reduce su efecto modelador en la cavidad oral con cada deglución [25,29–32].

En un estudio anterior, demostramos que los niños con TRS tenían una menor fuerza lingual, según la medición del IOPI, que los niños sanos, un hallazgo que no se ha reproducido en el presente estudio [18]. Por lo tanto, la medición de la fuerza de la lengua no nos aportó información adicional sobre el papel patofisiológico de un frenillo lingual corto. Sin embargo, en el estudio anterior, el diagnóstico de los TRS se basó en un método distinto, la polisomnografía.

Además del método de Kotlow para identificar un frenillo lingual corto, se han descrito otras herramientas. La herramienta de evaluación de Hazelbaker para la función del frenillo lingual se utilizó para los niños pequeños, y Marchesan et al informaron de la relación entre la apertura interincisal máxima de la boca y el movimiento de la punta de la lengua hacia la papila incisal [33–36]. Yoon et al validaron las herramientas anteriores en una cohorte grande que incluía participantes de 6 a 70 años de edad [37].

## **5. Conclusiones**

En conclusión, en el presente estudio se ha demostrado una asociación entre un frenillo lingual corto y un TRS, según lo expresado por un RCS positivo. Es necesario instaurar un enfoque multidisciplinar para permitir la detección temprana y un tratamiento oportuno de los cambios craneofaciales y, potencialmente, prevenir los TRS.

**Tabla 1.**

Anomalías que contribuyen a una obstrucción de la vía respiratoria superior y están incluidas en el registro clínico del sueño (RCS).

	RCS negativo (n = 462)	RCS positivo (n = 42)	<i>P</i>
Maloclusión	207 (44,8%)	37 (88,1%)	<0,001
Desviación del tabique nasal	35 (7,5%)	10 (23,8%)	<0,001
Paladar ojival	230 (49,7%)	40 (95,2%)	<0,001
Respiración bucal	47 (10,2%)	26 (61,9%)	<0,001
Hipertrofia adenoamigdalar	79 (17,1%)	18 (42,8%)	<0,001

**Tabla 2.**

Características adicionales que potencialmente influyen en el riesgo de trastornos respiratorios del sueño y que no están incluidas en el registro clínico del sueño (RCS).

	RCS negativo (n = 462)	RCS positivo (n = 42)	<i>P</i>
Edad, años	10,1 ± 2,0	10,2 ± 3,1	NS
Sexo, masculino (%)	199 (43,0%)	23 (54,7%)	NS
Percentil de IMC	67,4 ± 32,5	61,1 ± 35,5	NS
Obesidad, %	64 (13,9)	8 (18,1)	NS
Fuerza de la lengua, KPa	46,4 ± 13,5	44,9 ± 12,8	NS
Resistencia de la lengua, seg	14,5 ± 6,6	15,2 ± 8,2	NS
Longitud del frenillo, <sup>a</sup> mm	18,5 ± 4,4	18,6 ± 4,0	NS
Frenillo lingual corto (%)	96 (20,8%)	18 (42,8%)	<0,002

IMC, índice de masa corporal; NS, no significativo.

<sup>a</sup>Medición de Kotlow.

**Tabla 3.**

Modelo de regresión logística multivariante que evalúa la asociación entre un frenillo lingual corto y el riesgo de trastorno respiratorio del sueño (registro clínico del sueño positivo) después de realizar los ajustes correspondientes por edad, sexo, fuerza de la lengua y presencia de obesidad.

Variable dependiente: registro clínico del sueño positivo	B	EE	P	Razón de momios	Intervalo de confianza del 95%	
					Inferior	Superior
Sexo	-0,620	0,438	0,157	0,538	0,228	1,268
Edad	-0,023	0,112	0,834	0,977	0,784	1,216
Obesidad	0,092	0,601	0,878	1,097	0,338	3,559
Fuerza media de la lengua (medida por IOPI)	-0,009	0,018	0,625	0,991	0,957	1,027
Frenillo lingual corto	1,092	0,436	0,012	2,980	1,269	6,997
Constante	-1,887	0,956	0,049	0,152		

IOPI, Instrumento de rendimiento oral de Iowa; EE, error estándar.

## Aspectos destacados

- La evidencia reciente ha centrado la atención en la presencia de un frenillo lingual corto en niños con trastornos respiratorios del sueño (TRS).
- En el presente estudio se ha demostrado una asociación entre un frenillo lingual corto y un TRS, según lo expresado por un registro clínico del sueño positivo.
- Es necesario instaurar un enfoque multidisciplinar para permitir la detección temprana y un tratamiento oportuno de los cambios craneofaciales y, potencialmente, prevenir los TRS.