

Definición de la anatomía del frenillo lingual neonatal

Se sabe que el frenillo lingual tiene el potencial de limitar la movilidad de la lengua, lo que puede provocar dificultades de lactancia en algunos lactantes. Hay una amplia variación entre individuos en cuanto a la apariencia del frenillo lingual, pero la relación entre el aspecto del frenillo y la limitación funcional es ambigua. Cada vez se diagnostican más casos de anquiloglosia entre lactantes, y crece la incertidumbre sobre qué puede considerarse una anatomía "normal" del frenillo lingual. En este estudio, la microdissección del tejido fresco de cuatro cadáveres de bebés prematuros demuestra que el frenillo lingual es una estructura dinámica formada por capas: la mucosa oral y la fascia subyacente del suelo de la boca, que se moviliza en un pliegue de la línea media con la elevación y/o la retracción de la lengua. El geniogloso está sujeto a la fascia del suelo de la boca y, en algunos individuos, puede verse arrastrado hacia el pliegue del frenillo. Las ramas del nervio lingual están ubicadas de manera superficial en la cara ventral de la lengua, inmediatamente debajo de la fascia, por lo que son susceptibles de dañarse en procedimientos de frenotomía. Este trabajo de investigación pone en entredicho la arraigada creencia de que el frenillo lingual es una estructura de la línea media formada por una "banda" o "cuerda" submucosa y confirma que la estructura del frenillo lingual en neonatos coincide con la recientemente descrita en adultos. El presente artículo proporciona una construcción anatómica para comprender y describir la variabilidad en la morfología del frenillo lingual, y sienta las bases para que las próximas investigaciones valoren el impacto de variantes anatómicas específicas de la morfología del frenillo lingual sobre la movilidad de la lengua.

Palabras clave: anquiloglosia; frenillo de la lengua; frenillo lingual; suelo de la boca; fascia; neonato; frenotomía; neonatal; cirugía

INTRODUCCIÓN

El frenillo lingual apenas se menciona brevemente en los libros de texto de anatomía. En 1858, la primera edición de *Anatomía* del Dr. Henry Gray describe el frenillo lingual como un pliegue diferenciado de membrana formado debajo de la superficie de la lengua (Gray, 1858). No hay cambios significativos en cuanto a la descripción del frenillo en la edición más reciente de este libro de anatomía, lo que sugiere que, en los más de 150 años transcurridos desde entonces, no se han ampliado los conocimientos de la estructura del frenillo (Standring, 2015). Las descripciones más recientes de la estructura del frenillo lingual en las redes sociales y los libros especializados han conceptualizado el frenillo lingual como una estructura de tejido conectivo submucoso de la línea media, descrita como una cuerda, banda o "mástil" (Ghaheri, 2014; Baxter, 2018), pero no se identifica la fuente para el desarrollo de dicha construcción anatómica.

La anquiloglosia es un diagnóstico clínico en el que se considera que el frenillo lingual restringe la movilidad de la lengua. Sin embargo, dado que todavía no se ha establecido la relación entre estructura y limitación funcional, el diagnóstico de anquiloglosia sigue siendo subjetivo. Desde que en las redes sociales se habla ampliamente del tema de la anquiloglosia, el término "lengua anclada" ha ganado popularidad en referencia tanto a la restricción de la movilidad de la lengua como al propio frenillo lingual. Los actuales sistemas de clasificación para la anquiloglosia utilizan una única característica de la apariencia del frenillo: la altura de la fijación del frenillo sobre la superficie ventral de la lengua (Kotlow, 1999; Coryllos et al., 2004). Dado que estos sistemas de clasificación abarcan todas las variantes morfológicas posibles del frenillo

lingual, permiten que cualquier tipo de frenillo se asocie con un grado de anquiloglosia y, por tanto, sea considerado "anormal." El uso de estos sistemas de clasificación y la escasez de conocimientos sobre la estructura anatómica del frenillo parecen haber generado confusión sobre la anatomía de un frenillo "normal". Dado que el frenillo lingual se observa en casi todos los recién nacidos (Haham et al., 2014), la presencia de un frenillo en sí misma no debería considerarse una anomalía ni un diagnóstico de anquiloglosia. Asimismo, no se ha establecido una correlación directa entre estos sistemas de clasificación y la presencia de dificultades de lactancia o posibles resultados tras una frenotomía. Esto sugiere que hay todo un rango de variables anatómicas que influyen en la movilidad y el funcionamiento de la lengua más allá de esta única característica del aspecto del frenillo lingual considerada por separado.

La naturaleza subjetiva del diagnóstico de anquiloglosia es un gran dilema tanto para la práctica clínica como para la investigación, además de que puede generar confusión entre los progenitores. Se ha convertido en motivo de conflictos en los grupos de apoyo a la lactancia materna, cuando chocan las creencias sobre el diagnóstico de anquiloglosia y la promoción de la frenotomía. Según informan amplias auditorías de diversos países (Joseph et al., 2016; Lisonek et al., 2017; Kapoor et al., 2018), la tasa de diagnósticos de anquiloglosia y la inherente intervención quirúrgica están en espectacular aumento, y preocupa que esto refleje una tendencia de un potencial sobrediagnóstico, es decir, que se está recomendando una cirugía a un número de lactantes cuyas anatomía y función lingual son normales.

El concepto popular de la estructura del frenillo lingual como una cuerda, banda o "mástil" submucoso de la línea media (Watson-Genna, 2013; Ghaheri, 2014; Baxter, 2018) se ha sustituido

recientemente por el concepto de que el frenillo lingual adulto está formado por una capa de fascia que cubre el suelo de la boca (SB) (Mills et al., 2019). El movimiento de la lengua crea tensión en la fascia, provocando que esta y la mucosa oral suprayacente se eleven de manera dinámica y formen un pliegue en la línea media, lo que se identifica como el frenillo lingual. Esta investigación ha proporcionado una explicación estructural del espectro de la morfología del frenillo lingual. La variabilidad en el deslizamiento relativo de las capas de fascia y mucosa con el movimiento de la lengua (junto con el geniogloso sujeto de manera subyacente) altera la transparencia, el grosor y la forma del frenillo lingual. Sin embargo, no hay trabajos ni publicaciones de anatomía comparativa del frenillo lingual in situ en fetos, neonatos y adultos, por lo que permanece la duda de si esta nueva construcción anatómica del frenillo lingual puede aplicarse a lactantes y niños pequeños. Dado que los estudios embriológicos han demostrado que la mucosa oral y sus tejidos conectivos asociados se desarrollan antes de las 22 semanas de gestación (Winning y Townsend, 2000), hemos formulado la hipótesis de que la fascia del suelo de la boca está presente en el nacimiento y que la estructura del frenillo lingual será similar a la observada en cadáveres adultos. Utilizando tejido fresco de cadáveres de neonatos, este estudio evalúa la estructura anatómica del frenillo lingual in situ para identificar variaciones individuales en la morfología, lo que posibilita la comparación con la anatomía adulta y la discusión sobre las potenciales implicaciones para la cirugía del frenillo lingual.

MATERIALES Y MÉTODOS

Las cuatro muestras de tejidos fresco de cadáveres de neonatos fueron donadas al Departamento de Anatomía de la Universidad de Pretoria. Se obtuvo el consentimiento ético (autorización ética: 540/2018) del Comité de Ética de la Investigación de Pretoria de la Facultad de Ciencias de la Salud con el cumplimiento para uso de tejido con fines de investigación según el Acta Nacional Sanitaria de Sudáfrica (2003).

Datos demográficos básicos

La muestra está compuesta por dos cadáveres neonatales de niñas y dos de niños, tres de ellos fallecidos en el parto y uno a los 13 días tras el nacimiento. El peso, la longitud de la cabeza y la talla se indican en la Tabla 1. La edad gestacional no estaba disponible pero se ha calculado a partir de datos antropométricos. Ninguno de los bebés tenía rasgos dismórficos ni malformaciones craneofaciales. No había más información clínica sobre los cadáveres.

Recogida, disección y fotografía de las muestras

Todas las disecciones se llevaron a cabo por el autor principal, quien tiene 20 años de experiencia clínica en cirugía otolaringológica y 3 años de experiencia como disector anatómico profesional.

Todas las disecciones se realizaron con un microscopio Zeiss Superlux 301, bisturí (con hojas n.º 11) y tijeras finas Iris. Las fotografías se hicieron con una cámara Canon EOS500D con objetivo macro EF 100 mm y flash anular Amaran HC100 Halo. Se utilizó un calibre SPi 2000 con escala de 0,1 mm para todas las mediciones lineales y una regla de plástico flexible con escala de 1 mm para la medición de superficies curvas.

Paso 1. Se hicieron fotografías laterales (de perfil) y frontales de todos los cadáveres para permitir la medición a escala de:

1. Longitud de la cabeza (imagen frontal): de la coronilla a la barbilla.
2. Posición del maxilar vs. mandíbula (imagen de perfil): mediciones del tejido blando tomadas en el borde bermellón del labio superior (maxilar) y del labio inferior (mandíbula).

Paso 2. Se realizó una división bilateral de:

1. La mandíbula, inmediatamente antes del ramo.
2. Todos los músculos extrínsecos posteriores en el cuerpo lateral de la lengua.
3. Todas las fijaciones musculares extrínsecas en el borde superior del hioides.

A continuación, el cuerpo de la mandíbula, la lengua y la epiglotis se retiraron en bloque.

Paso 3. Una vez retiradas la mandíbula y la lengua, se hicieron fotografías del paladar duro y el blando, y de la muestra extirpada. Se midieron y registraron las dimensiones del paladar y la lengua (Tabla 2):

Paladar duro y blando (Fig. 1):

1. Longitud del paladar duro (línea media, desde el margen gingival a la unión del paladar duro y blando).
2. Anchura del paladar duro (anchura interior y exterior del paladar medio, y anchura exterior del paladar posterior).
3. Longitud del paladar blando (línea media, desde la unión del paladar duro y blando a la base de la úvula).

Lengua: con una regla flexible con escala de 1 mm (Fig. 2):

1. Longitud total (base de la vallécula a la punta de la lengua).
2. Anchura de la lengua (anchura máxima del dorso).
3. Longitud de la porción anterior de la lengua (superficie ventral de la lengua: conexión con el suelo de la boca a la punta de la lengua).
4. Longitud "libre" anterior (desde la fijación del frenillo
5. en la superficie ventral a la punta).
6. Altura de la fijación del pliegue del frenillo lingual en la superficie ventral de la lengua.

A continuación se realizaron fotografías del suelo de la boca y el frenillo lingual, sujetando la lengua en posición elevada para tensar el frenillo lingual. Se tomaron notas sobre la morfología general de la lengua y el frenillo.

TABLA 1. Detalles de los cadáveres

Cadáver	Sexo	Peso (g)	Talla (longitud del cuerpo) (mm)	Longitud de la cabeza (mm)	Edad gestacional estimada (semanas)	Edad postnatal al morir (días)
1	M	600	350	85	23	0
2	F	400	300	85	21	0
3	M	800	350	75	26	0
4	F	1.600	395	105	30	13

Paso 4. Con un microscopio Zeiss, se realizó la disección para retirar la mucosa del suelo de la boca. Se hicieron más fotografías con la lengua en posición elevada para tensar el frenillo. A continuación se extirpó la fascia (bien parcialmente, para crear una "ventana"; bien completamente, para exponer toda la superficie ventral de la lengua). Se determinó la relación del geniogloso, el conducto submandibular y las glándulas sublinguales con la fascia del suelo de la boca. Se localizó el nervio lingual en el lateral, pasando por debajo del conducto submandibular. A continuación se diseccionó a su paso por el centro, para seguir las ramas que pasan de manera superficial hacia la línea media. Se fotografió la posición del nervio lingual.

RESULTADOS

Descripción de características anatómicas topográficas de los cadáveres

Todos los cadáveres eran bebés prematuros. El peso estaba entre 400 y 1600 g. La edad gestacional según lo detallado en la Tabla 1 se estimó a partir de la mediana del peso al nacer según los datos de edad gestacional (Callaghan y

Dietz 2010), y variaba entre 21 y 30 semanas de gestación.

Apariencia de la lengua, el suelo de la boca y el frenillo antes de la disección

Todos los tejidos eran suaves y flexibles, lo que permitió el movimiento pasivo de la porción anterior de la lengua para realizar las mediciones, valorar el rango de la movilidad y hacer las fotografías (Fig. 3). Las dimensiones del paladar duro y el blando se documentan en la Tabla 2, y las mediciones de la lengua y el frenillo lingual, en las Tablas 3 y 4.

Con la lengua apoyada en el suelo de la boca, el contorno del suelo de la boca era horizontal, sin que se viera el frenillo en ninguna de las muestras. Con la lengua elevada, se levantaba un pliegue visible en la línea media que formaba el frenillo lingual. La altura de la fijación de la fascia en la superficie ventral de la lengua alteraba la prominencia visual del frenillo cuando estaba en tensión. La variabilidad en el deslizamiento relativo de los pliegues de la mucosa y de la fascia también creaba diferencias en la morfología del frenillo, según lo ilustrado en la Figura 4. Los conductos submandibulares se pueden ver en todas las muestras, con sus orificios arrastrados junto con la mucosa y la fascia, extendidos visiblemente en los laterales del pliegue que forma el frenillo.

TABLA 2. Dimensiones del paladar duro y el paladar blando

Cadáver	Posición de la mandíbula relativa al maxilar	Paladar duro (mm)					Longitud del paladar blando (mm)
	Grado de retrognatia (mm)	Longitud	Interno, paladar medio	Externo, paladar medio	Externo, posterior	Altura del arco	
1	8	15,1	12,0	22,8	21,5	5	19,5
2	5	14,9	13,9	25,8	24,0	7	10,1
3	3	16,1	15,2	22,3	20,8	6	10,0
4	2	20,2	16,6	16,6	29,1	5	12,2

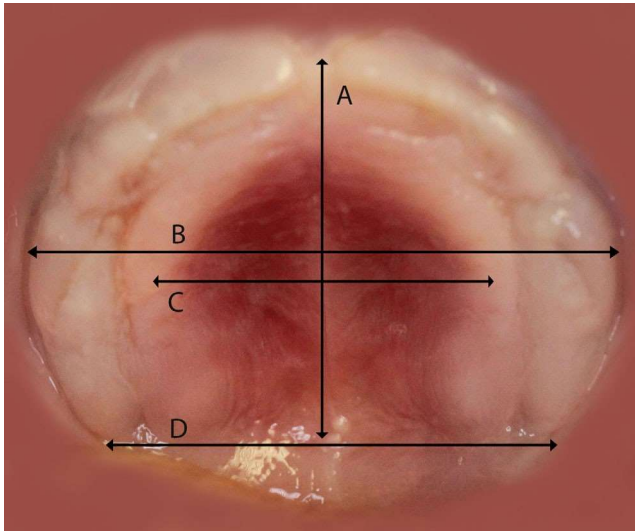


Fig. 1. Medición de las dimensiones del paladar duro. (A) Longitud del paladar duro: surco alveolar anterior al borde posterior del paladar duro. (B) Anchura exterior máxima del paladar duro. (C) Anchura interior del paladar medio duro: distancia entre surcos alveolares internos. [La imagen en color se puede ver en wileyonlinelibrary.com]

Descripción general de la morfología del frenillo en cada muestra

- **Muestra 1** (Fig. 4A): frenillo predominantemente opaco con un pequeño pliegue de mucosa transparente, en forma de media luna, que se eleva unos pocos milímetros por encima del pliegue formado por la fascia. El frenillo es ancho en la base (unión del pliegue del frenillo con el suelo de la boca), donde el geniogloso se ve arrastrado al pliegue. La altura de la fijación del frenillo es

aproximadamente la mitad de la superficie ventral de la lengua, levantando un pliegue visualmente prominente cuando se pone en tensión. La inserción mandibular de la fascia del suelo de la boca no está elevada en la línea media (relativa a la altura de la inserción a cada lado de la línea media).

- **Muestra 2** (Fig. 4B): morfología muy similar a la de la Muestra 1, pero con el geniogloso elevado aún más arriba con el frenillo, lo que crea una base todavía más ancha y, por tanto, el frenillo forma un pliegue vertical menos definido en el plano sagital medio.
- **Muestra 3** (Fig. 4C): la fijación de la mucosa en la línea media de la superficie ventral de la lengua es significativamente más alta (más cerca de la punta) que la fijación del pliegue de la fascia, creando un pliegue transparente bien visible, muy por encima del pliegue opaco formado por la fascia. El pliegue mucoso se ve al tensarse entre las fijaciones de la mandíbula y la lengua. El pliegue de la fascia se ve en la misma imagen ligeramente curvado, y no parece estar en máxima tensión con esta maniobra. El suelo de la boca, la fijación mandibular y la base del frenillo lingual no se ven en esta imagen.
- **Muestra 4** (Fig. 4D): El pliegue del frenillo es opaco, con ambos pliegues, mucosa y fascia, en tensión y elevados a la altura máxima (borde libre) del frenillo. Las fijaciones de la fascia y la mucosa están al mismo nivel en la superficie ventral de la lengua. Las fibras del geniogloso se ven arrastradas bien arriba en el pliegue del frenillo.

Hallazgos tras retirar la mucosa del suelo de la boca

En ninguna de las muestras se halló ninguna banda o cuerda de tejido conectivo de la línea media en el suelo de la boca (Fig. 5).

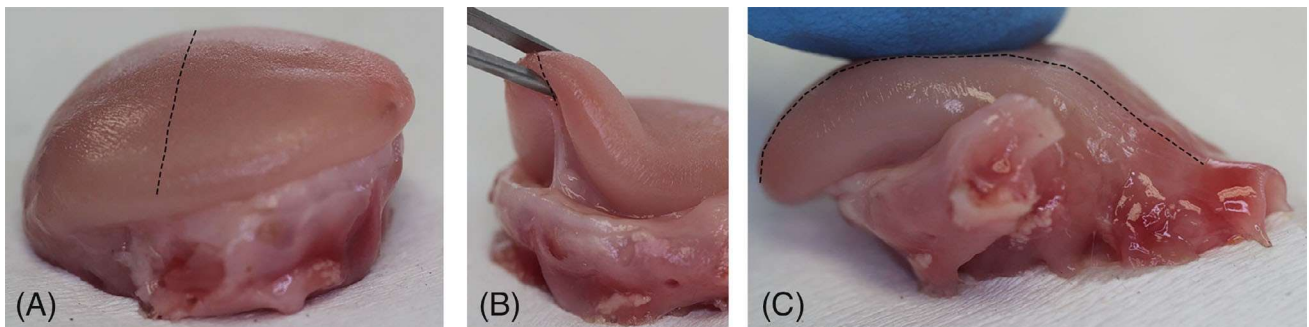


Fig. 2. Medición de las dimensiones de la lengua. (A) Anchura máxima de la lengua. (B) Longitud "libre" anterior: desde la fijación del frenillo a la punta de la lengua. (C) Longitud completa de la lengua: de la vallécula a la punta de la lengua. [La imagen en color se puede ver en wileyonlinelibrary.com]

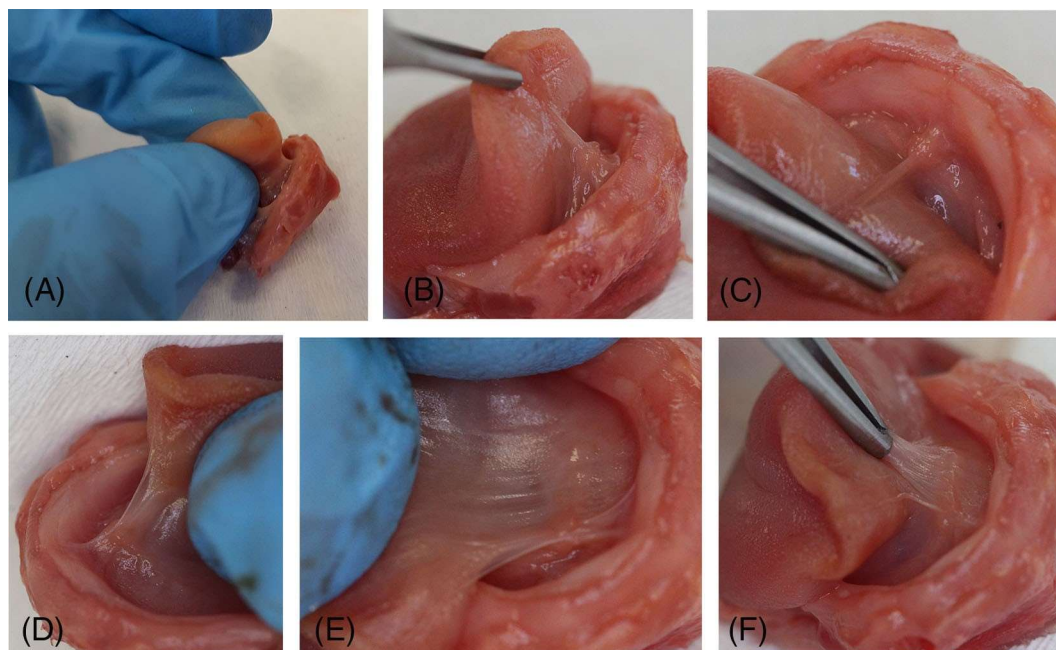


Fig. 3. Demostración de la manipulación pasiva de tejido fresco. Muestra 1: (A): Para demostrar la escala de la muestra. (B) Elevación de la punta de la lengua. (C) Punta de la lengua plegada hacia la porción posterior para mostrar la inserción mandibular del frenillo. (D) Elevación y retracción de la porción anterior de la lengua, para poner el frenillo en tensión. (E) Retracción lateral de la lengua para mostrar el aspecto lateral de la fascia del suelo de la boca en tensión. (F) Para demostrar las propiedades del tejido fresco. [La imagen en color se puede ver en wileyonlinelibrary.com]

Las cuatro muestras tenían una capa de fascia que iba desde la lengua hasta el arco interior de la mandíbula, pasando por el suelo de la boca. En todas las muestras, la retracción o elevación de la lengua movilizó la capa de fascia del suelo de la boca para formar un pliegue en la línea media de

prominencia variable, con un pliegue vertical mejor definido en el plano sagital medio que se creaba cuando el pliegue del frenillo se insertaba más arriba en la superficie ventral de la lengua, algo manifestado en todas las muestras de este estudio.

TABLA 3. Dimensiones de la lengua

Cadáver	Lengua (mm)				
	Longitud total	Anchura	Longitud anterior	Longitud anterior "libre": (fijación del frenillo a la punta)	Proporción: longitud libre vs. longitud anterior (%)
1	29	18	9	5	55
2	33	18	6	4	67
3	34	20	10	4	40
4	36	24	10	6	60

TABLA 4. Dimensiones del frenillo lingual

Cadáver	Frenillo (mm)				
	Altura de la fijación en la superficie ventral de la lengua	Altura de la fijación de la línea media en la mandíbula	Longitud del frenillo: entre las fijaciones mandibular y ventral de la lengua	Longitud del frenillo vs. longitud ant. de la lengua (%)	Descripción de la apariencia
1	4	No elevada	4	44	"Mixta"
2	2	Ligera elevación	6	100	"Mixta"
3	6	Ligera elevación	5	50	Transparente
4	4	Elevación moderada	7	70	Opaca

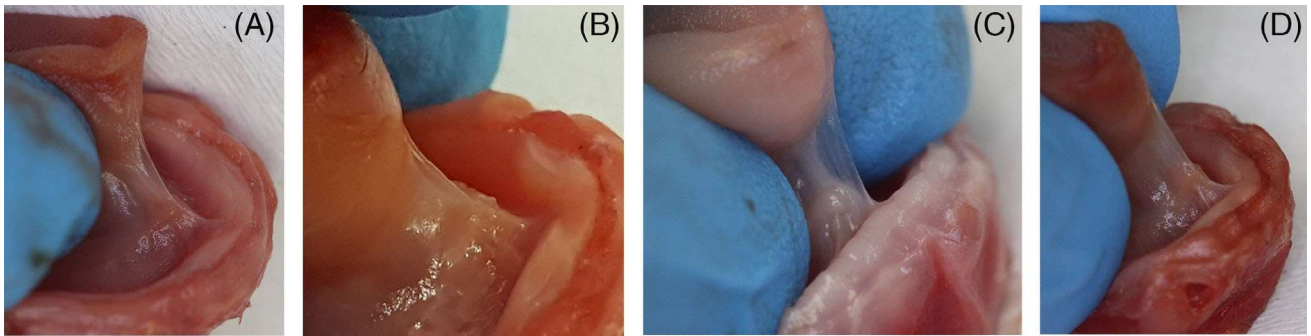


Fig. 4. Frenillo lingual en tensión con la lengua elevada, antes de la disección. (A) Muestra 1: Apariencia "mixta": pliegue mucoso visible como pequeña "medialuna" justo por encima del pliegue de la fascia. (B) Muestra 2: Apariencia "mixta": pliegue mucoso visible como pequeña "medialuna" justo por encima del pliegue de la fascia. (C) Muestra 3: Frenillo "transparente": pliegue de la mucosa corto y elevado bien por encima del pliegue de la fascia. (D) Muestra 4: Frenillo "opaco": mucosa y fascia en el vértice del pliegue (misma altura). [La imagen en color se puede ver en wileyonlinelibrary.com]

Se observó variabilidad en la translucencia del frenillo. Esta dependía de la altura relativa de las fijaciones de la mucosa y de la fascia en la superficie ventral de la lengua, así como del deslizamiento relativo de las capas de mucosa y fascia al someterse a tensión, lo que elevaba el pliegue del frenillo lingual. Cuando la mucosa se deslizaba por encima del pliegue de la fascia, se observaba un pliegue transparente, y cuando tanto la mucosa como la fascia se elevaban juntas a la altura total del pliegue, el frenillo resultante era más opaco.

Al extirpar la capa de mucosa en la muestra 3, mejoró significativamente el rango de movilidad pasiva de la lengua, permaneciendo intacta la fascia del suelo de la boca. Esto se evidenció con el cambio en la posición de la punta de la lengua en la Figura 5C en comparación con la Figura 4C, anterior a la eliminación de la mucosa. La extracción de la mucosa no alteró la movilidad de la lengua de manera significativa en las otras tres muestras (donde no hubo una discrepancia significativa entre la altura de las fijaciones de la mucosa y de la fascia en la superficie ventral de la lengua); en estas tres muestras, la movilidad pasiva de la lengua parecía verse afectada principalmente por la capa de fascia. El rango de movilidad pasiva de la porción anterior de la lengua también pareció verse afectado por la longitud de la porción anterior de la lengua y la longitud proporcional del pliegue del frenillo entre las fijaciones anterior (mandíbula) y posterior (superficie ventral de la lengua), que variaba significativamente entre las distintas muestras

(dimensiones de la lengua y del frenillo descritas en la Tabla 3). Estos hallazgos sugieren que las dimensiones y las fijaciones de la mucosa y la fascia podían afectar la movilidad de la lengua como variables independientes, específicamente cuando la mucosa tenía una fijación más alta en la superficie ventral de la lengua (como se ve en la muestra 3).

En la Figura 6 se ve que, en todas las muestras, la inserción de la fascia del suelo de la boca es una capa continua que se inserta en la superficie interior de la mandíbula. Especialmente en la Muestra 4 (y un poco menos en las Muestras 2 y 3), la altura de la inserción de la fascia estaba ligeramente elevada en la línea media en comparación con la altura de la fijación de la fascia a ambos lados de la línea media, lo que daba al frenillo una apariencia anterior visualmente más prominente.

Hallazgos tras la disección para abrir una "ventana" en la fascia del suelo de la boca

El geniogloso estaba sujeto a una distancia variable por debajo de la fascia del suelo de la boca por una lámina de tejido conectivo vertical en el plano medio sagital. Los tejidos que formaban esta "sujeción" se veían como una capa de tejido conectivo transparente, continua con la miofascia que rodea el músculo (Fig. 7).

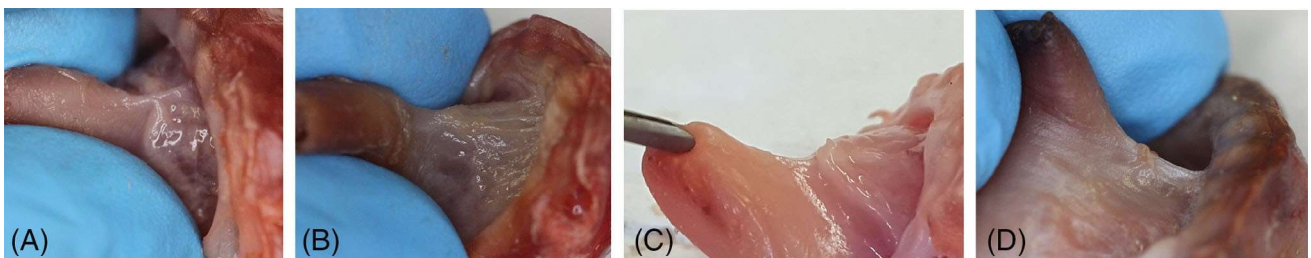


Fig. 5. Frenillo lingual en tensión con la lengua elevada, tras la eliminación de la mucosa. (A) Muestra 1. (B) Muestra 2. (C) Muestra 3. (D) Muestra 4. [La imagen en color se puede ver en wileyonlinelibrary.com]

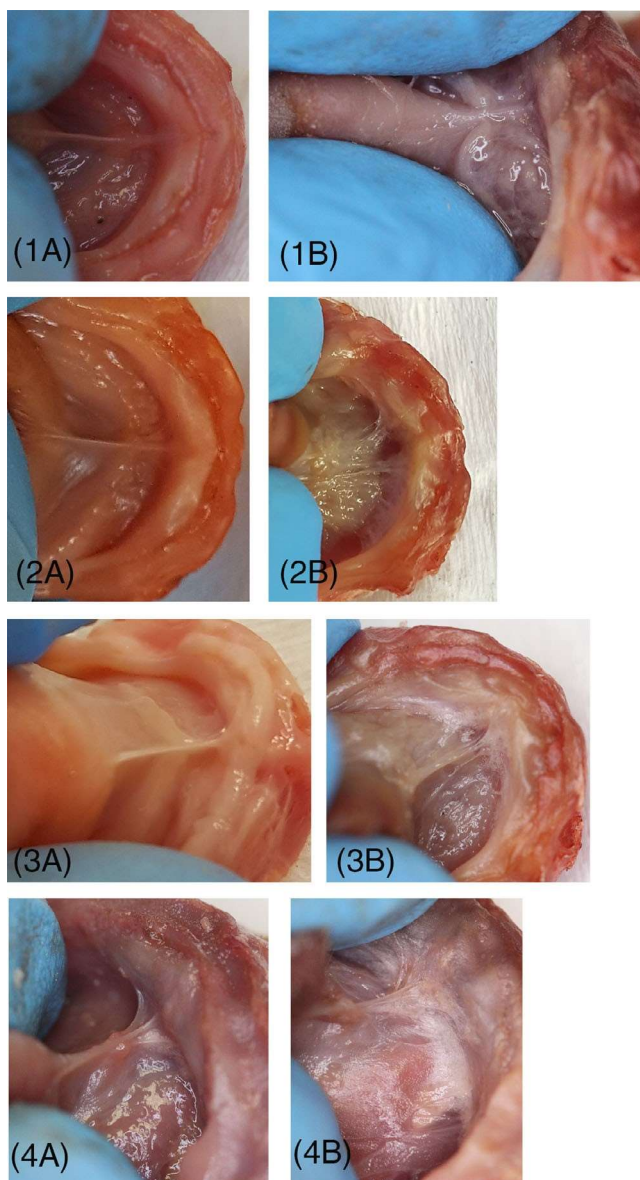


Fig. 6. Inserción del frenillo en la mandíbula y el suelo de la boca. Muestras 1–4: Antes (A) y después (B) de la disección en cada muestra. [La imagen en color se puede ver en wileyonlinelibrary.com]

El nervio lingual se identificó fácilmente en una ubicación superficial inmediatamente por debajo de la fascia del suelo de la boca. En todas las muestras, las ramas grandes estaban cerca de la superficie ventral de la lengua desde una posición lateral por debajo de los costados de la lengua hasta una posición media conforme se acercaban a la punta de la lengua. Se observó que las ramas pequeñas del nervio pasaban hacia el frenillo en todas las muestras (Fig. 7 y 8). Se halló un plexo vascular venoso en el suelo de la boca, entre el conducto submandibular y la lengua, y algunos capilares se extendían por la superficie ventral de la lengua pero siempre por debajo de las ramas del nervio lingual.

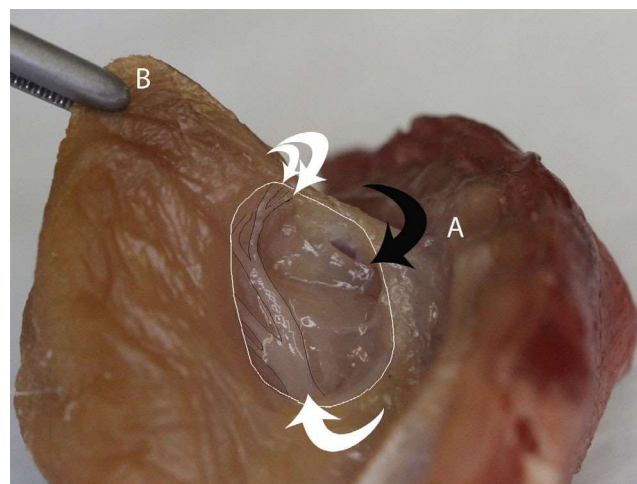


Fig. 7. Muestra 1 con la "ventana" de fascia eliminada para visualizar el geniogloso y el nervio lingual. Esquema de la "ventana" de fascia extraída representada por la línea blanca continua. (A) Mandíbula. (B) Punta de la lengua. Flecha negra: borde superior del geniogloso, sujeto de la fascia y arrastrado al pliegue del frenillo. Flecha blanca grande: nervio lingual. Flechas blancas dobles: ramas del nervio lingual en la superficie ventral de la lengua pasando al frenillo. Línea negra fina: esquematización de las ramas del nervio lingual. [La imagen en color se puede ver en wileyonlinelibrary.com]

Los orificios del conducto submandibular estaban conectados con la capa de fascia y la atravesaban cerca de la línea media, y la capa de mucosa suprayacente estaba muy adherida a la fascia en esta zona en concreto. Las glándulas sublinguales estaban rodeadas por la superficie profunda de la fascia del suelo de la boca y sujetas de esta. Se ubican en grupo a lo largo del conducto submandibular a su paso por el suelo de la boca desde la posición posterolateral hacia la línea media anterior del suelo de la boca (Fig. 9). La fascia del suelo de la boca era continua alrededor y por debajo de los costados de la lengua, con su mayor espesor en la posición anterior del suelo de la boca, más fina y transparente a medida que avanza hacia la posición posterolateral, hacia las fosas piriformes. Junta con la mucosa oral, forma el cielo del espacio sublingual.

DISCUSIÓN

El presente estudio, el primero en investigar la anatomía del desarrollo del frenillo lingual in situ, confirma que la anatomía estructural del frenillo en las etapas avanzadas del desarrollo fetal coincide con los hallazgos descritos recientemente en adultos (Mills et al., 2019). Estos estudios en conjunto proporcionan una nueva y detallada construcción del frenillo lingual como estructura dinámica cuya morfología varía con el movimiento de la lengua. Con estos nuevos conocimientos de la estructura del frenillo lingual, se han establecido el concepto de anatomía "normal" y la base anatómica para la

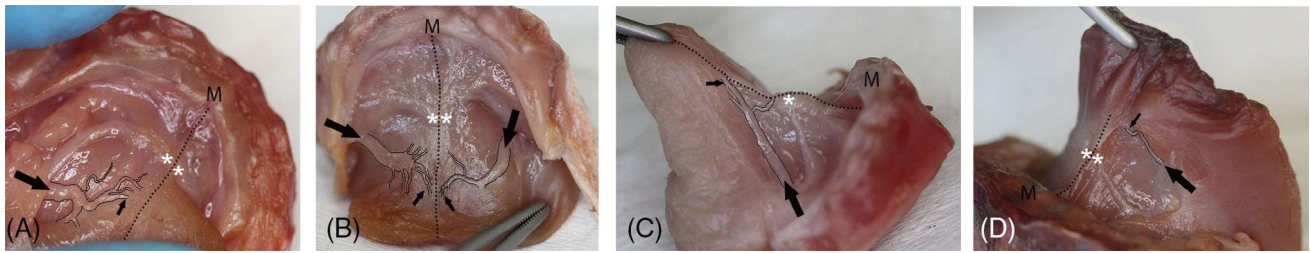


Fig. 8. Ubicación del nervio lingual. (A) Muestra 1. (B) Muestra 2. (C) Muestra 3. (D) Muestra 4. M: mandíbula. Flecha negra grande: nervio lingual (tronco principal). Flecha negra pequeña: nervio lingual (ramas mediales al frenillo). Asteriscos blancos: orificios del conducto submandibular. Línea punteada negra: línea media. Línea negra fina: esquematización de las ramas del nervio lingual. [La imagen en color se puede ver en wileyonlinelibrary.com]

variabilidad individual. Se ha definido la relación del frenillo con las estructuras aledañas, lo que proporciona información esencial para entender los riesgos potenciales de una frenotomía.

Definición de la estructura y el rol de la fascia del suelo de la boca

En consonancia con nuestro estudio en adultos, en todos estos cadáveres de bebés prematuros hemos demostrado la existencia de una capa de fascia que sujeta la boca dentro del arco de la mandíbula, denominada la fascia del suelo de la boca. Esta fascia forma el "cielo" del espacio sublingual junto con la mucosa oral, que está conectada de manera estrecha por encima. Abarca desde su inserción alrededor de la superficie interior de la mandíbula hasta el centro, donde se une con el tejido conectivo en la superficie ventral de la lengua. Las glándulas sublinguales y los conductos submandibulares están sujetos por la superficie interior de la fascia. Esta capa de fascia se mueve

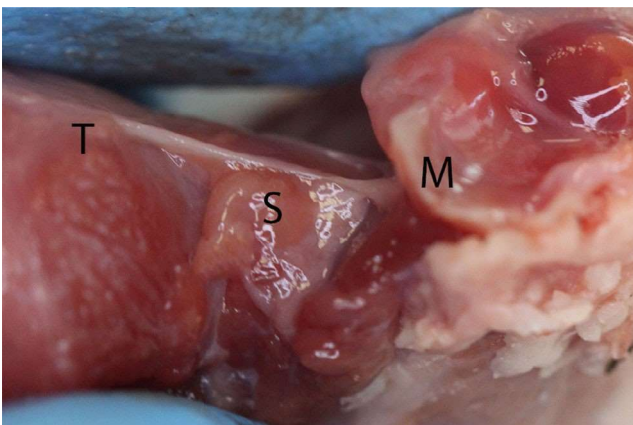


Fig. 9. Sujeción de las glándulas sublinguales por la fascia del suelo de la boca. Suelo de la boca posterolateral (visto desde detrás). T: cuerpo de la lengua (medial). M: mandíbula (lateral). S: glándulas sublinguales: sujetas por la superficie inferior de la fascia del suelo de la boca (la fascia pasa entre las fijaciones M y T). [La imagen en color se puede ver en wileyonlinelibrary.com]

de forma pasiva con el movimiento de la lengua, que la tensiona, y se eleva dinámicamente formando un pliegue de la línea media, que se identifica como el frenillo lingual.

El diseño arquitectural de la fascia del suelo de la boca como "falda" o estructura diafragmática fijada alrededor de la mandíbula ofrece sujeción y estabilidad a la lengua dentro de la cavidad oral, sin salida de energía. Por tanto, es posible que las dimensiones de la fascia del suelo de la boca de una persona influyan en el rango de movilidad de la lengua así como en la posición de esta en momentos de bajo tono muscular, como por ejemplo al dormir. Desde esta posición estabilizada que crea la fascia del suelo de la boca, la lengua se moviliza dentro de la cavidad oral mediante la contracción de los músculos extrínsecos de la lengua, y la contracción de los músculos intrínsecos altera el contorno y la forma de la lengua de una manera coordinada, compleja y específica según la tarea. La laxitud de la capa de fascia del suelo de la boca permite un amplio rango de movimientos de la lengua antes de que la fascia se tense, lo que potencialmente influye en el "punto final" del rango de movimiento de la lengua. La anquiloglosia quizá podría considerarse un desequilibrio de los roles de la fascia, en el que la función de estabilidad de la lengua perjudica a su movilidad. Esto podría cobrar relevancia en algunos lactantes, donde la división del frenillo lingual (para mejorar la movilidad de la lengua) tiene el potencial de afectar a la posición en reposo de la lengua y su "estabilidad". Se han informado varios casos de lactantes con secuencia de Pierre Robin que sufrieron un compromiso de las vías respiratorias tras una frenotomía (Genther et al., 2015). Aunque en la actualidad esto ya no se suele realizar, tradicionalmente los bebés con secuencia de Pierre Robin y compromiso de las vías respiratorias eran candidatos para un procedimiento quirúrgico en el que se suturaba la punta de la lengua al labio, entendiendo que la posición anterior de la lengua puede alterar la vía aérea orofaríngea, el índice de apnea/hipopnea y la saturación de oxígeno en bebés con retrognatía (Camacho et al., 2017). En consecuencia, debe entenderse que la división del frenillo lingual puede alterar la posición de la lengua en reposo y que podría empeorar cualquier problema existente de las vías respiratorias. Por ello, se recomienda precaución antes de llevar a cabo una frenotomía en este subgrupo de neonatos. El modelado biomecánico de la lengua y la fascia del suelo de la boca proporcionaría información objetiva acerca del potencial impacto del cambio en las dimensiones y fijaciones de la fascia respecto a la posición de la lengua en reposo y a su movilidad según la tarea.

Explicación estructural para la variabilidad en la morfología del frenillo lingual

El rango de morfología del frenillo lingual viene dado por la variabilidad (en un espectro) de un número de factores; la altura de las fijaciones de la fascia en la línea media (tanto en la posición anterior, con la mandíbula, como posterior, con la superficie ventral de la lengua), la longitud entre estas fijaciones y el deslizamiento relativo de las capas que forman el pliegue del frenillo (mucosa, fascia y geniogloso sujeto). La explicación anatómica de cómo influyen estos factores en la apariencia del frenillo, identificados y detallados en nuestro estudio anterior sobre anatomía del frenillo en adultos, se ha confirmado en este artículo como una construcción estructural precisa que puede aplicarse a neonatos (Mills et al., 2019).

Este pliegue en constante cambio dinámico que forma el frenillo lingual se produce cuando el movimiento de la lengua crea tensión en la fascia del suelo de la boca. Cuando la mucosa y la fascia se fijan en una altura más alta sobre la superficie ventral de la lengua, más cerca de la punta, se forma un pliegue del frenillo de aspecto más prominente, al que normalmente se denomina anclaje anterior o "clásico", categorizado como frenillo de grado I o grado II. Cuando las fijaciones de la mucosa y la fascia en la superficie ventral de la lengua no están elevadas en la línea media, el pliegue del frenillo que se eleva con el movimiento activo de la lengua es mínimo o no perceptible a la vista. Sin embargo, se puede palpar la tensión que se crea en la capa de fascia cuando se retrae la lengua pasivamente. Este fenotipo de frenillo se ha denominado tradicionalmente "posterior" o anclaje de grado IV; sin embargo, la base estructural de este término proviene de la limitación provocada por una banda submucosa de la línea media; un concepto que, en este artículo, hemos demostrado que es erróneo. Todavía se desconoce el impacto biomecánico de la división de la capa de fascia en este subgrupo, pero hace falta continuar la investigación en este ámbito para medir objetivamente los cambios en la movilidad de la lengua y la creación del vacío intrabucal tras la frenotomía, valorando el impacto para individuos con diferentes variaciones en la morfología del frenillo. Cuando el frenillo está en tensión, la fijación anterior (mandibular) de la fascia del suelo de la boca puede crear una apariencia "triangular", similar a la icónica arquitectura de la Torre Eiffel. Esto se produce cuando la fascia se fija en una posición más alta en la línea media que a cada lado de la base. Cuando el pliegue del frenillo parece unirse con el suelo de la boca en la posición anterior, según se describe en la anquiloglosia de tipo 3 de la clasificación de Coryllos (Coryllos et al., 2004), la capa de la fascia del suelo de la boca se inserta también en la mandíbula, pero la altura de la fijación en la línea media no es más alta que la fijación de la fascia a cada lado.

El grosor y la translucencia del pliegue del frenillo varían en función tanto del deslizamiento relativo entre las capas de fascia y de mucosa que forman el pliegue como de la variabilidad en la altura a la que se ven arrastradas la mucosa, la fascia y el geniogloso en el pliegue del frenillo. Cuando el pliegue de mucosa se desliza muy por encima del de la fascia, se forma un frenillo fino y transparente. En cambio, se aprecia un frenillo más grueso y opaco cuando la mucosa y la fascia están muy adheridas y se movilizan juntas a la altura total del pliegue. Es posible que el pliegue de mucosa se eleve ligeramente por encima de la fascia, un caso que hemos descrito como de apariencia "mixta". El grosor o corpulencia del frenillo también depende de la altura a la que el geniogloso se sujeta de la

superficie de la fascia. Cuando está sujeto cerca de la capa de fascia, dado que esta se ve arrastrada al pliegue, las fibras del músculo también entran en el frenillo, lo que generalmente le aporta una "base" más ancha y menos definida. Esta variación específica en la morfología aumenta el riesgo de que las fibras del músculo geniogloso se corten accidentalmente durante la frenotomía. Esta sería la fuente de fibras musculares de las que se ha informado en análisis histológicos de biopsias de frenillos (Martinelli et al. 2014).

"Reformulación" del concepto de anquiloglosia o "anclaje lingual"

Es fundamental reconocer que el frenillo lingual no está formado por una "cuerda" o "banda" submucosa independiente de la línea media, sino que se trata de un pliegue de dicha línea que se crea dinámicamente en una capa de fascia. Existe una gran variabilidad entre individuos en las diversas características de esta fascia, pero hemos demostrado su presencia sistemática tanto durante el desarrollo fetal como en el adulto. Como tal, el frenillo lingual debe considerarse una estructura anatómica normal con un espectro de variación en su morfología. Dado que no hay variables anatómicas del frenillo que, de manera aislada, tengan una correlación directa y comprobada con un deterioro del funcionamiento de la lengua, cualquier sistema de clasificación debe considerarse "de valoración del frenillo" con el fin de describir su apariencia y no para diagnosticar o categorizar un frenillo como un anclaje lingual. La altura de la fijación del frenillo en la superficie ventral de la lengua, entonces, puede considerarse solo una parte de un puzle más grande al que aún le faltan muchas piezas.

El frenillo lingual tiene conexión directa con la porción anterior de la lengua y podría influir directamente en la movilidad activa de las partes anterior y media de la lengua. El frenillo lingual no tiene conexión directa con la porción posterior de la lengua (también denominada base de la lengua), que tiene un origen embriológico distinto e incluye el aspecto de la lengua posterior al agujero ciego (foramen caecum). En consecuencia, sugerimos que el término "frenillo posterior" supone una nomenclatura anatómicamente incorrecta. Un "frenillo posterior" representa una construcción anatómica basada en el concepto erróneo de que el frenillo lingual es una cuerda o banda submucosa. Por tanto, el término "frenillo posterior" es confuso y engañoso. En aras de la claridad y la integridad anatómica, sugerimos que se deje de utilizar el término "frenillo posterior".

Potencial impacto del frenillo lingual en la biomecánica de la lengua durante la lactancia

La anquiloglosia es un diagnóstico funcional que implica una restricción del movimiento de las porciones anterior y media de la lengua, y todavía no se ha establecido una correlación directa entre ciertas características específicas de la apariencia del frenillo y la limitación de movimiento (Suter y Bornstein, 2009; Chinnadurai et al., 2015; Francis et al., 2015; Walsh et al., 2017). Por tanto, queremos destacar que actualmente no se puede diagnosticar una anquiloglosia exclusivamente a partir de la apariencia morfológica del frenillo lingual, y no debe utilizarse ningún sistema de clasificación en pos de tal diagnóstico.

La capacidad de los lactantes para alterar el movimiento de la lengua en función del tipo de alimentación se ha demostrado en estudios que destacan las diferencias en el movimiento dinámico de la lengua al amamantar y al tomar un biberón. Es difícil realizar una valoración clínica del movimiento de la lengua en una toma; sin embargo, estudios ecográficos han demostrado que la extracción de leche de un biberón se produce mediante una combinación de presión positiva y el movimiento peristáltico de la porción anterior de la lengua (Ardran et al., 1958; Weber et al., 1986; Woolridge y Baum, 1987). El amamantamiento, por el contrario, se basa principalmente en la creación de presión negativa intrabucal y la succión asociadas al movimiento en bloque de las porciones anterior y media de la lengua (Geddes et al., 2008b; Elad et al., 2014; Cannon et al., 2016; Geddes y Sakalidis, 2016); la elevación de la lengua parece ser fundamental para la creación de vacío intrabucal. Un estudio ecográfico ha demostrado que los patrones de movimientos de la lengua en bebés con anquiloglosia (con problemas de amamantamiento) son distintos de aquellos de bebés sin anquiloglosia; pero dado que no se incluyeron variables anatómicas del frenillo lingual en este estudio, no es posible correlacionar las diferencias halladas en las ecografías con la morfología del frenillo (Geddes et al., 2008a).

Nuestro estudio ha demostrado una variación significativa en las dimensiones tanto de la lengua como del paladar, entre las que se incluyen: tamaño y posición de la mandíbula, longitud de la porción anterior de la lengua y altura, contorno y dimensiones del arco del paladar duro. Al valorar el impacto de la morfología variable del frenillo lingual en la biomecánica de la lengua, se desconoce la interferencia que podrían provocar estas otras variables anatómicas. Asimismo, es posible que la variabilidad anatómica materna (dimensiones del pezón y elasticidad del tejido) también influya en el agarre y contribuya a la correcta extracción de leche; por tanto debería incluirse en la valoración clínica y considerarse una posible variable de interferencia en la investigación biomecánica. Hasta la fecha, ningún estudio ha identificado variables anatómicas específicas del frenillo lingual que se correlacionen con una disfunción biomecánica, dolor materno y extracción de leche eficaz del pecho, ni se ha demostrado que los actuales sistemas de clasificación utilizados para el anclaje lingual se correlacionen con la gravedad de los problemas de alimentación. Por tanto, no se dispone de conocimiento suficiente para determinar cómo y cuándo las variables morfológicas de la capa de fascia del suelo de la boca influyen en la movilidad de la lengua para diagnosticar una anquiloglosia y recomendar una frenotomía. En el futuro, la investigación biomecánica debe valorar diferentes subgrupos de morfología de frenillos, teniendo en cuenta las potenciales variables anatómicas de interferencia que son paladar, lengua y mandíbula. También es necesaria una valoración a largo plazo para explicar los cambios que pueden ocurrir en la movilidad de la lengua y el impacto en el deslizamiento de las capas de tejido que forman el frenillo tras la cicatrización de la herida de la frenotomía y la maduración de la cicatriz.

Implicaciones clínicas de esta investigación

Este estudio destaca que el frenillo lingual es una estructura compleja y en capas que cambia

dinámicamente su morfología con el movimiento de la lengua. La ubicación de sus fijaciones de la línea media (anterior en la mandíbula y posterior en la superficie ventral de la lengua) y el movimiento relativo de las "capas" de mucosa, fascia y músculo o el frenillo alteran tanto su apariencia como su impacto en el rango de movimiento de la porción anterior de la lengua. La variabilidad en estos factores crea un nuevo nivel de complejidad que debe considerarse al evaluar la anatomía del frenillo lingual de un individuo y valorar el potencial impacto del frenillo en la movilidad de la lengua según la tarea. Al igual que ocurría en las muestras de adultos de nuestro estudio anterior, la capa de fascia del suelo de la boca en neonatos parece actuar como estabilizadora de la posición de la lengua dentro del arco de la mandíbula, y es fundamental para determinar el rango de movilidad de la porción anterior de la lengua. La altura a la que el geniogloso se veía arrastrado en el frenillo con el movimiento de la lengua era variable, pero las fibras del músculo eran muy elásticas y no restringían la movilidad. No parece haber ninguna circunstancia en la que la incisión en las fibras del geniogloso esté indicada en una frenotomía.

En todas las muestras, las ramas del nervio lingual pasan hacia la línea media inmediatamente por debajo de la fascia en la superficie ventral de la lengua, y las ramas más pequeñas continúan hacia el frenillo lingual. El patrón variable de las ramas terminales del nervio lingual en la superficie ventral de la lengua se ha observado anteriormente en estudios de cadáveres adultos (Rusu et al., 2008; Al-Amery et al., 2016). Otro estudio incluía la disección de 10 muestras de lenguas adultas y una sola pediátrica; se presentaron imágenes de las ramas superficiales del nervio lingual en la superficie ventral de la lengua, pero no se describieron diferencias entre la anatomía adulta y la pediátrica (Paduraru y Rusu, 2013). No se ha identificado ni descrito anteriormente que las ramas del nervio lingual se extiendan al frenillo lingual. Nuestro estudio ha demostrado que estas ramas están ubicadas de manera superficial en la cara ventral de la lengua, inmediatamente por debajo de la fascia, por lo que están en riesgo de lesión térmica directa o por transferencia durante una frenotomía. El riesgo de una lesión neural permanente o temporal es aún mayor si la incisión es profunda (cualquier incisión que corte el geniogloso), si la frenotomía se realiza con cualquier instrumento que utilice energía térmica (que se absorbe en los tejidos subyacentes), o en cualquier procedimiento en el que la incisión se extienda mucho más allá de línea media. La prevalencia de deterioro sensorial tras una frenotomía en un paciente pediátrico se desconoce, debido a que estos pacientes no pueden hablar ni informar de una parestesia y a que no hay ninguna prueba clínica capaz de detectar un deterioro sensorial focal en este grupo etario. En adultos, se ha informado de una sensación alterada en la lengua tras la frenotomía en redes sociales, pero no hay estudios publicados en los que se haya valorado específicamente la tasa de cambio sensorial temporal o permanente después del procedimiento. Nuevas investigaciones han demostrado que el nervio lingual tiene conexiones directas con las terminaciones motoras de los músculos intrínsecos de la lengua; por tanto, es probable que el nervio lingual en los lactantes participe de manera directa para moldear la superficie de la lengua en reacción directa a los estímulos sensoriales (Mu y Sanders, 2010). Por ello, cabe plantearse que lesionar el nervio lingual podría afectar al moldeado de la lengua durante el

amamantamiento y, por tanto, influir en la eficacia del agarre y la transferencia de leche o contribuir a un rechazo del pecho. Nuestra investigación también ha demostrado que las ramas pasan al frenillo lingual, lo que confirma que el frenillo es, en efecto, sensible. Se ha informado de dolor con necesidad de tratamiento analgésico hasta 13 días después de una frenotomía (Wilson et al., 2016). Es muy probable que la experiencia del dolor tras la frenotomía varíe considerablemente entre individuos, en función de muchos factores, como por ejemplo la profundidad y tamaño de la herida, así como la frecuencia y naturaleza de cualquier intervención posterior en la herida. Sin embargo, es preciso reconocer que el dolor asociado con la frenotomía y el "masaje" de la herida posterior puede generar aversión oral en algunos lactantes, lo que a su vez puede tener un impacto negativo y prolongado en su alimentación y su desarrollo oromotor.

Fortalezas y limitaciones de este estudio

El acceso a muestras frescas de cadáveres neonatales para la investigación anatómica es un privilegio poco frecuente que permite la manipulación dinámica y disección de tejidos que no pueden realizarse en cadáveres embalsamados. Las principales fortalezas de este estudio fueron la posibilidad de retirar la muestra en bloque del cadáver y de realizar la disección de las capas del suelo de la boca para delinear y definir los tejidos. Esto permitió acceder a los tejidos y observarlos de una manera que no sería posible en pacientes vivos durante ninguna cirugía de rutina en el frenillo o el suelo de la boca. La limitación de este estudio es que solo abarca un número reducido de cadáveres de prematuros y, por tanto, no puede representar la gama completa de variaciones en la morfología del frenillo lingual infantil.

CONCLUSIÓN

El frenillo lingual infantil es una estructura dinámica formada por un pliegue en la fascia del suelo de la boca. Hay una variabilidad significativa en la morfología del frenillo lingual respecto a la fijación de la fascia en la línea media, así como en la forma que la mucosa, la fascia y el geniogloso se ven arrastrados al pliegue del frenillo con el movimiento de la lengua. Hemos destacado la ubicación superficial de las ramas del nervio lingual en la cara ventral de la lengua, inmediatamente por debajo de la fascia, y planteamos un posible riesgo de lesión durante la frenotomía. Hemos definido la anatomía del frenillo lingual, pero todavía se desconocen muchos aspectos, especialmente en cuanto a la correlación entre variabilidad de la estructura con el funcionamiento. Se necesita una investigación biomecánica más detallada, con un enfoque más holístico, para comprender el potencial impacto de una amplia gama de variables de la anatomía oral del lactante en el funcionamiento de la lengua según la tarea. Hasta que haya más estudios que proporcionen estas respuestas, la toma de decisiones respecto a una frenotomía permanece sujeta a los sesgos del profesional sanitario y la existencia de un sistema de clasificación que no contempla la presencia de una anatomía normal. Recomendamos seguir un enfoque clínico que incluya la valoración de otras posibles causas de dificultades de amamantamiento antes de proceder a la intervención quirúrgica.

AGRADECIMIENTOS

Los autores desean agradecer al Departamento de Anatomía (Universidad de Pretoria) el acceso a los cadáveres de neonatos. Hacemos llegar nuestras más sinceras condolencias y agradecimientos a las familias que han hecho posible esta investigación.