

Estado da publicação: O preprint foi publicado em um periódico como um artigo
DOI do artigo publicado: <https://doi.org/10.24862/cco.v19i3.1906>

Panorama global da anquiloglossia em recém-nascidos: uma análise bibliométrica

Luiz Maurício Nogueira Nunes, Juliana Miranda Bonelli, Leonardo dos Santos Antunes, Lívia Azeredo Alves Antunes

<https://doi.org/10.1590/SciELOPreprints.6025>

Submetido em: 2023-05-19

Postado em: 2023-05-22 (versão 1)

(AAAA-MM-DD)

A moderação deste preprint recebeu o endosso de:

Monica Tostes (ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-6878-7482>)

Panorama global da anquiloglossia em recém-nascidos: uma análise bibliométrica

Global panorama of ankyloglossia in newborns: a bibliometric analysis

Luiz Maurício Nogueira Nunes¹ <https://orcid.org/0009-0008-9856-0482>

Juliana Miranda Bonelli² <https://orcid.org/0000-0003-4583-7675>

Leonardo dos Santos Antunes^{1,2,3} <https://orcid.org/0000-0002-2115-6958>

Lívia Azeredo Alves Antunes^{1,2,3} <https://orcid.org/0000-0002-8432-0815>

¹ Programa de Pós-Graduação em Odontologia, Faculdade de Odontologia, Universidade Federal Fluminense, Niterói, RJ, Brasil.

² Departamento de Formação Específica, Instituto de Saúde de Nova Friburgo, Universidade Federal Fluminense, Nova Friburgo, RJ, Brasil.

³ Programa de Pós-Graduação em Odontologia, Instituto de Saúde de Nova Friburgo, Universidade Federal Fluminense, Nova Friburgo, RJ, Brasil.

Autor de correspondência:

Dra. Lívia Azeredo Alves Antunes

Departamento de Formação Específica, Faculdade de Odontologia, Universidade Federal Fluminense,

Rua Doutor Silvio Henrique Braune, 22, Centro - Nova Friburgo, Rio de Janeiro, Brasil.

Nova Friburgo, RJ, CEP: 28625-650, Brasil

Telefone: +55 22 2528 7168

E-mail: liviaazeredo@gmail.com

Resumo

Este trabalho buscou mapear o panorama global da anquiloglossia em recém-nascidos por meio da análise bibliométrica de produções científicas até janeiro de 2023. Para obtenção dos

estudos, foi realizada uma busca avançada com os termos “*Newborn*”, “*Ankyloglossia*” e seus sinônimos nas plataformas Pubmed, Embase, Cochrane, Biblioteca Virtual de Saúde, Web of Science e Scopus. Os resultados foram importados para o gerenciador de referência Zotero. Após a remoção das duplicatas e aplicação dos critérios de elegibilidade, 431 estudos foram incluídos na análise e importados para o software VOSviewer versão 16.18. As palavras-chave mais citadas na pesquisa foram “*Cirurgia*” (198) e “*Aleitamento*” (151), que também apresentaram forte ligação entre si. Dentre os 49 países pesquisados, os Estados Unidos, o Reino Unido e a Austrália foram os que mais publicaram sobre o assunto, com 107, 44 e 28, respectivamente. O estudo mais relevante no portfólio estudado foi escrito por Ballard e colaboradores sob o título “*Ankyloglossia: assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad*”. A revista “*Pediatrics*” obteve o maior número de citações (608) e ano de 2019 registrou a maior quantidade de artigos sobre a anquiloglossia em recém-nascidos (44). Os achados deste estudo demonstram que a temática ligada aos freios orais tem despertado um interesse crescente na comunidade científica e evidenciam a preocupação em desvendar o impacto real da anquiloglossia na amamentação do bebê, assim como a necessidade de buscar um consenso no diagnóstico em relação à indicação cirúrgica.

Palavras-chave: anquiloglossia, recém-nascido, bibliometria.

Abstract

This study aims to understand the global panorama of ankyloglossia in newborns by means of a bibliometric analysis of scientific productions up to January 2023. A search was conducted with the terms "Newborn", "Ankyloglossia" and their synonyms in the Pubmed, Embase, Cochrane, Virtual Health Library, Web of Science and Scopus platforms. After removing duplicates and applying the eligibility criteria, 431 studies were included and imported into

the VOSviewer software. The most cited keywords were "Surgery" (198) and "Breastfeeding" (151). Among the 49 countries surveyed, the United States published the most on the subject (107). The most relevant study in the studied portfolio was "Ankyloglossia: assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad" by Ballard and collaborators. The journal "Pediatrics" obtained the highest number of citations (608) and year 2019 recorded the most articles about ankyloglossia in newborns (44). The findings of this study show that the topic linked to oral brakes has sparked a growing interest in the scientific community, and show the concern in unveiling the real impact of ankyloglossia on the infant's breastfeeding, as well as the need to seek a consensus in diagnosis regarding surgical indication.

Keywords: ankyloglossia, newborn, bibliometric.

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 ¹. No embrião, sua formação ocorre a partir da quarta semana de gestação, durante o desenvolvimento de outras estruturas da face. Nesta fase, a língua está fixada no assoalho bucal mas, à medida que o seu desenvolvimento ocorre, suas células sofrem apoptose, migrando distalmente para a região mediana do dorso da língua ².

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 ³. 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 ⁴. Tem um caráter hereditário e pode ser considerada como resultado da herança genética individual, sendo transmitida como um caráter autossômico dominante ⁵.

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% ⁶⁻⁸. O mesmo pode ser dito em relação à classificação. Alguns métodos foram propostos para definir a gravidade da anquiloglossia de acordo com critérios anatômicos e funcionais ⁹⁻¹². Todavia, ainda falta um sistema universalmente aceito para caracterizar os diversos fenótipos relacionados ao frênulo lingual ¹³ 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, sendo um fator de risco para o sucesso da amamentação ¹⁴⁻¹⁶.

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 ¹⁷.

Desta 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 ¹⁸.

O método de pesquisa bibliométrica se concentra em analisar a produção científica existente sobre determinados assuntos ¹⁹ para levantamento do estado da arte e, com isso, auxiliar na identificação do que tem sido publicado e tendências para pesquisas futuras. Considerando a relevância da temática este estudo propõe o entendimento contemporâneo por meio de uma revisão bibliométrica conhecer o panorama mundial da anquiloglossia em recém-nascidos.

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*”, “*Ankyloglossia*”, assim como seus sinônimos (Quadro 1). A pesquisa foi realizada no mês de janeiro de 2023. Não houve limitação em relação à língua ou ano de publicação.

Crerios 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. Nesta fase, foram excluídos os estudos realizados em outras faixas etárias, em animais ou com temas não relacionados aos critérios estabelecidos inicialmente.

Quadro 1- Estratégia de busca.

Database	Search strategy
Medline via Pubmed	<p>#1 ((((((Newborn Infant*[Title/Abstract]) OR (Newborn*[Title/Abstract])) OR (Neonate*[Title/Abstract])) OR (Infant[MeSH Terms])) OR (Newborn[MeSH Terms]))</p> <p>#2(((Ankyloglossia*[Title/Abstract]) OR (Tongue Tie*[Title/Abstract])) OR (Partial Ankyloglossia[Title/Abstract])) OR (Ankyloglossia[MeSH Terms]))</p> <p>#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]))</p>
Scopus	<p>#1 (TITLE-ABS-KEY (newborn AND infant*) OR TITLE-ABS-KEY (newborn*) OR TITLE-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>
Web of Science	<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>
BVS	<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>
Cochrane	<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>
Embase	<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>

Análise bibliométrica

O estudo bibliométrico foi realizado através do software VOSviewer versão 1.6.18. Sendo 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 e

fontes (jornais e revistas) mais citadas que foram dispostas 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-chaves foram unificadas por área de estudo. Como exemplo, as palavras *frenulectomy*, *frenulotomy*, *frenotomy*, *frenectomy*, *tongue-tie division* e *oral surgery* foram substituídas por *surgery*. O mesmo ocorreu com o termo *breast feed*, *breast feeding* e *breastfeed* que será citado apenas como *breastfeeding*. Este procedimento também evitou a contagem em duplicidade de palavras-chaves similares relacionadas no mesmo artigo. A unificação foi feita através da ferramenta *Thesaurus*, disponível no VOSviewer.

O mesmo ajuste foi feito em relação aos autores, quando o programa classificou um mesmo pesquisador em dois distintos por constar diferença da grafia nas publicações. Desta forma, foi feita a unificação do nome permitindo que o programa contabilizasse os dados de forma correta. A observação destes quesitos nos estudos bibliométricos é de suma importância e ignorar esta etapa pode causar um erro grave na interpretação dos resultados.

Uma vez que todas as buscas nas bases de dados foram relacionadas às palavras anquiloglossia e recém-nascidos (assim como os seus respectivos sinônimos), e o objetivo desta pesquisa é justamente conhecer quais as vertentes sobre o tema estão sendo estudados, estes 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, por co-citação e por periódicos, foram computados apenas os artigos disponíveis na base de dados Scopus, uma vez que o VOSviewer não permite a utilização destes recursos para a base de dados importada de gerenciador de referências. Para tal, um arquivo CSV foi exportado desta base de dados

contendo os metadados necessários, sendo posteriormente importadas para o software VOSviewer para realização da análise bibliométrica destes parâmetros.

Foram analisadas as características das publicações, incluindo palavras-chave e autores citados, países, fontes (jornais e revistas) e ano de publicação para visualização em tabelas, em mapas de rede ou de sobreposição.

Na visualização de rede, os itens são demonstrados por nós e arestas, sendo ainda classificados em clusters. O nó é a variável pesquisada (palavras-chave, publicações, periódicos, pesquisadores, países, entre outros). Já as arestas indicam relações entre pares de nós. O 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 item²⁰. Clustering é um método para definir itens em grupos por similaridade e detectar itens intimamente associados²¹. Nesses mapas, clusters de itens são apresentados por cores diferentes para representar o grupo ao qual um nó foi alocado.

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 leitura dos resumos. Após esta fase, 244 artigos foram excluídos por não atenderem aos critérios de inclusão, resultando numa amostra final de 431 artigos selecionado para análise (figura 1).

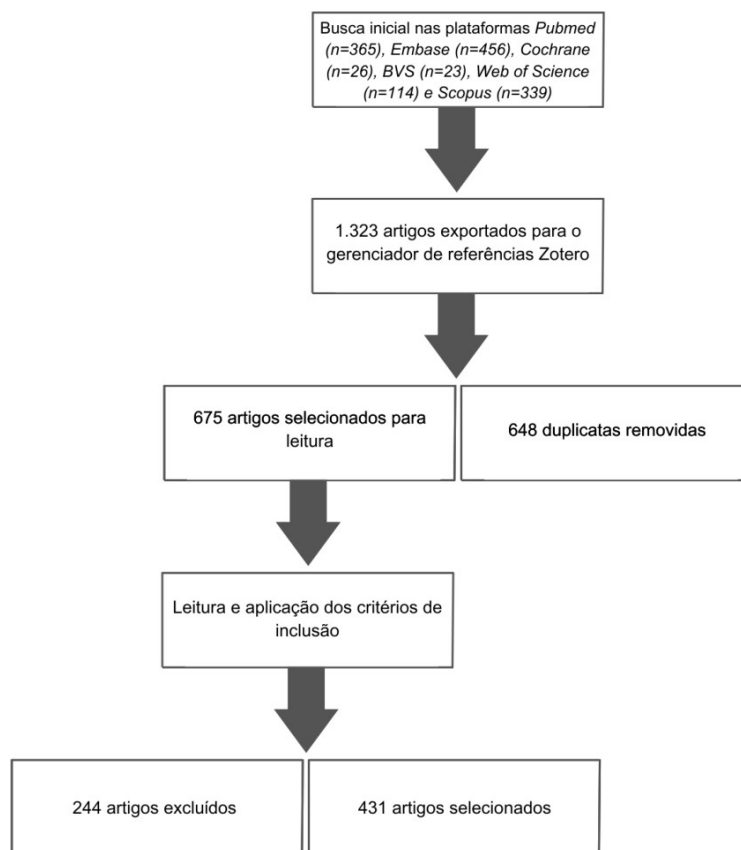


Figura 1- Fluxograma de seleção dos artigos.

Análise das publicações por ano

A publicação mais antiga encontrada 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 este número atingiu o maior pico, com 44 publicações (figura 2).

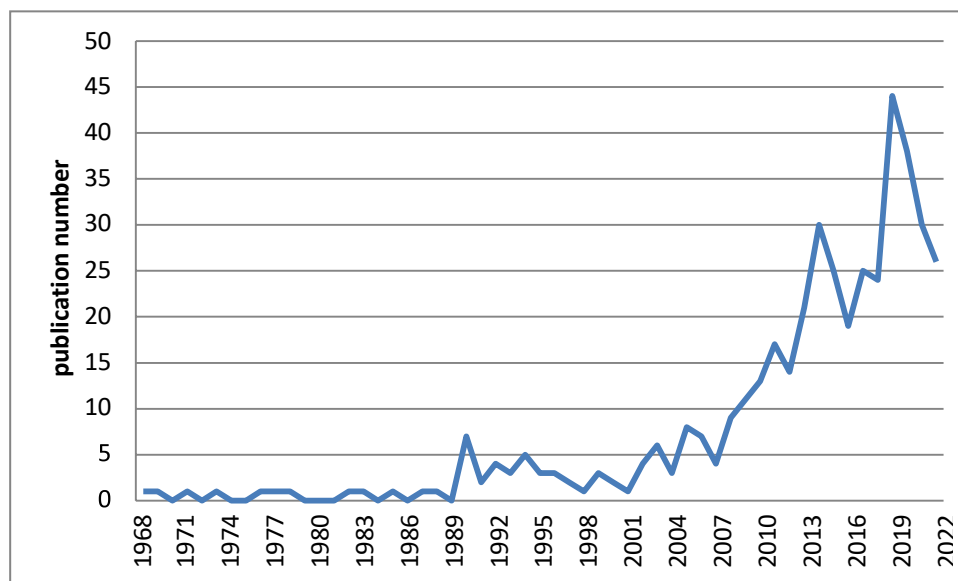


Figura 2- Visualização de número de publicações por ano.

Análise das palavras-chave

O primeiro parâmetro a ser estudado foi o de co-ocorrência de palavras chave. Foram encontradas 300 palavras nos artigos estudados. Através do uso do thesaurus, este 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. Sendo 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 3).

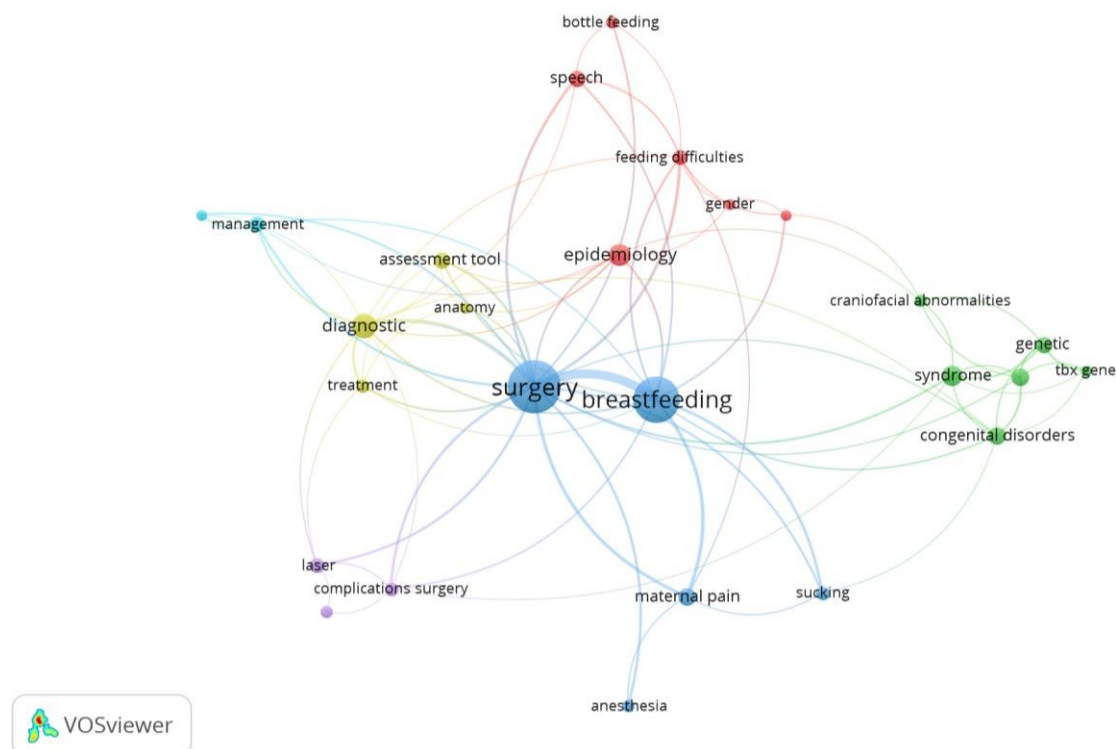


Figura 3- Visualização de Rede das palavras-chave.

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 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).

Tabela 1 - Visualização das palavras-chave por ordem.

Item	Palavras-chaves	Ocorrências
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

Quando é feita a análise temporal das publicações, ficam evidentes no mapa (figura 4) os clusters em amarelo, mostrando que os temas mais pesquisados atualmente estão relacionados ao uso do laser para tratamento da anquiloglossia, à sucção do recém-nascido, às complicações da cirurgia e assuntos ligados ao gerenciamento das alterações do frênulo lingual em bebês.

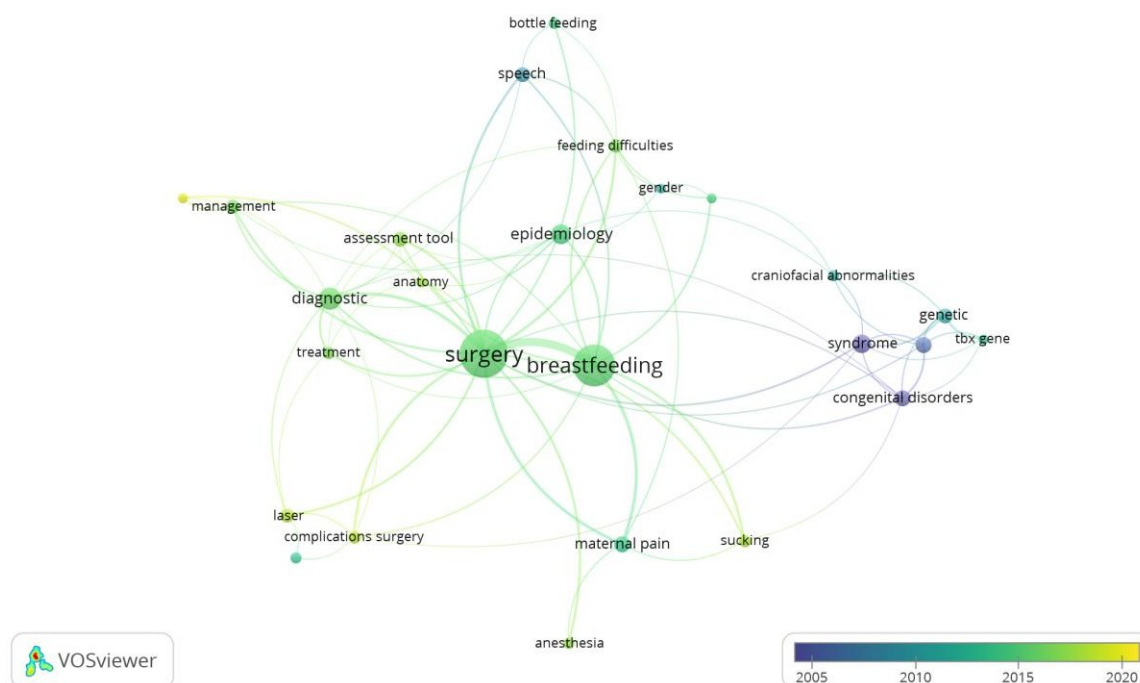


Figura 4 - Visualização de Sobreposição das palavras-chave.

Análise das publicações por país

Esta pesquisa foi realizada na base de dados Scopus e foi conduzida de acordo com os objetivos definidos neste estudo, revelando 339 artigos. Após a aplicação dos critérios de exclusão, 47 artigos foram desprezados, sendo incluídos na pesquisa 292 trabalhos.

Foi realizada pesquisa para conhecer os países que mais publicam sobre o tema. A busca identificou artigo de 55 países, sendo a maioria destes realizada por pesquisadores dos Estados Unidos com 84 publicações. O segundo lugar foi ocupado pelo Reino Unido (34), seguido da Austrália (25), do Brasil (21) e Canadá (13) (figura 5). Entretanto, países como o Brasil, Dinamarca, Índia e Polônia têm sido responsáveis pelas publicações mais recentes na área, conforme demonstrado na figura 6.

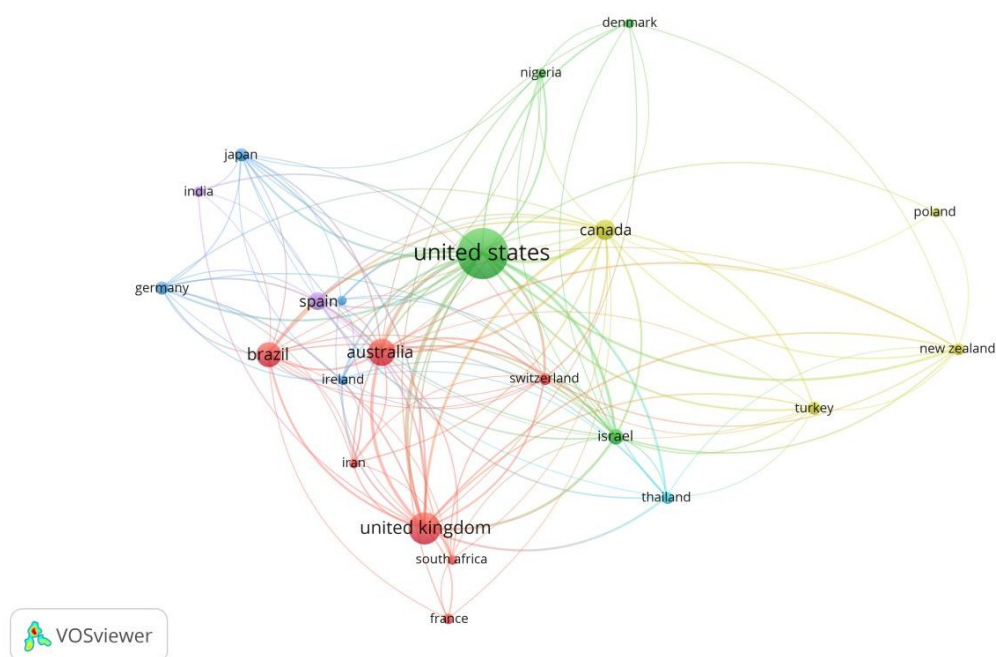


Figura 5 - Visualização de Rede dos países que mais publicaram sobre o tema proposto.

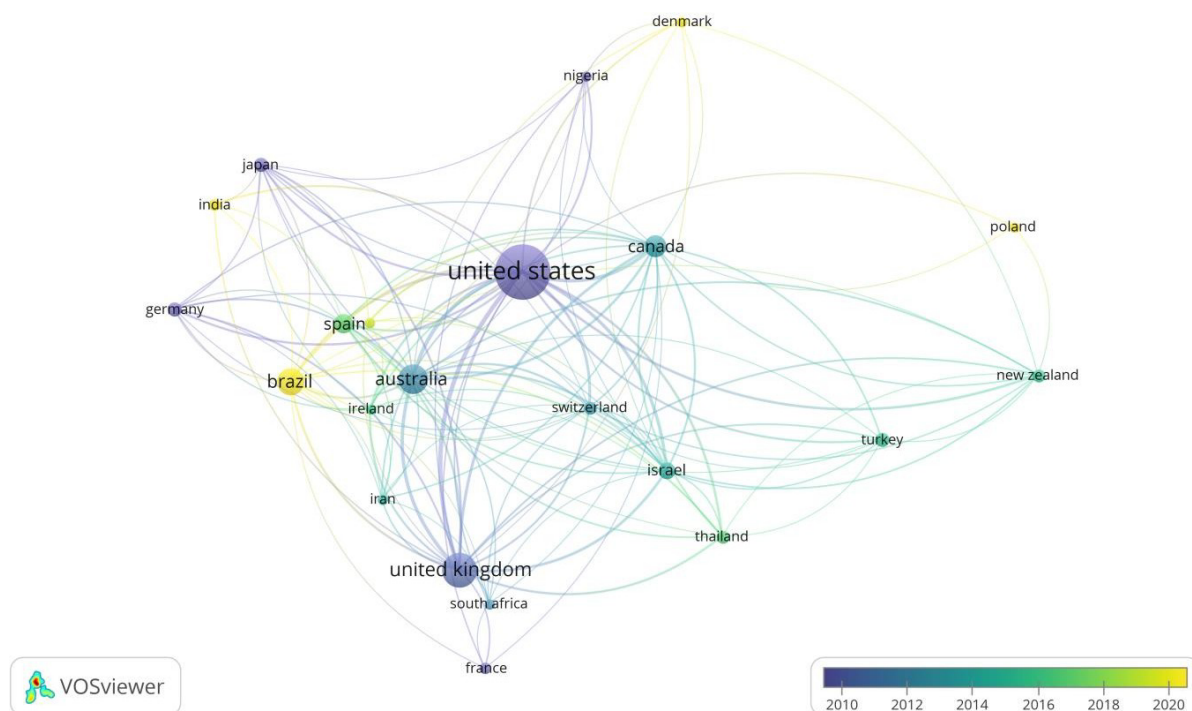


Figura 6 - Visualização temporal de Sobreposição dos países que mais publicaram sobre o tema proposto.

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 referentes a temática. Desta 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), tabela 2.

Tabela 2: Relação de autores por trabalhos publicados e citações (conjunto da obra).

<u>Autor</u>	<u>documentos</u>	<u>citações</u>
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 referenciado em 347 artigos, seguido de Geddes DT, cujos trabalhos (6) foram citados 219 vezes (tabela 2). A figura 7 mostra que os autores estão divididos em 4 grandes grupos (clusters), diferenciados por cor, permitindo visualizar a interação entre eles.

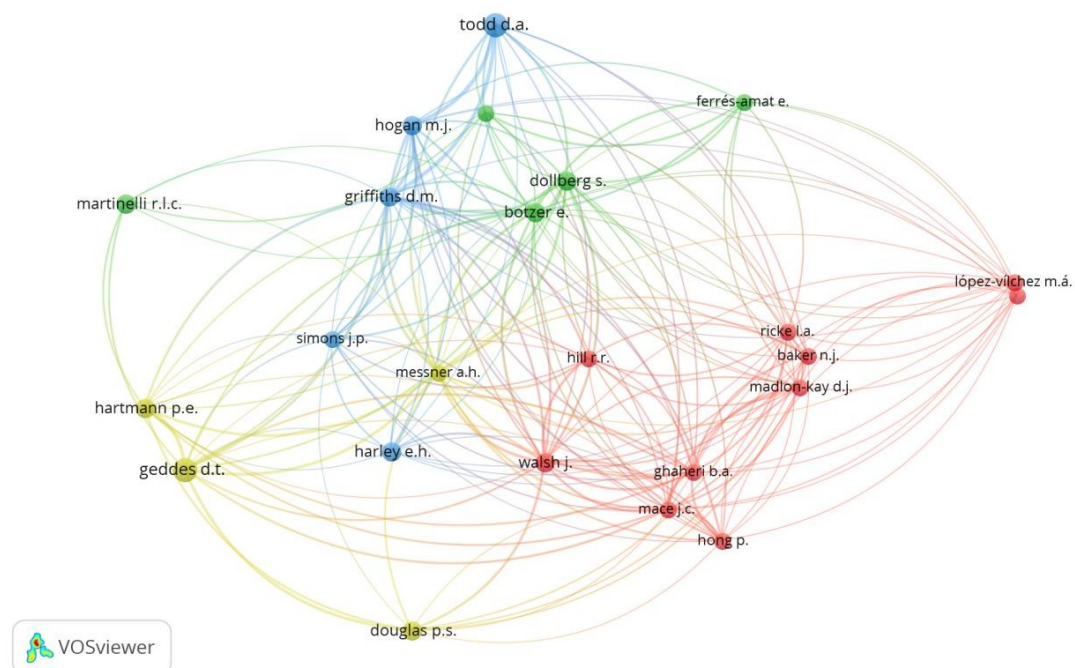


Figura 7- Visualização dos autores que mais publicaram sobre o tema proposto.

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. Desta 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”.

A tabela 3 descreve a relação dos 10 trabalhos mais referenciados. A maioria deles avaliou 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).

Tabela 3: Relação dos 10 trabalhos mais citados.

Ordem	Referência da publicação	Número de citações no Scopus
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</i>	126

Physician. June 2007; 53(6): 1027-1033. PMID: 17872781

- | | | |
|----|--|-----|
| 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 |
-

Análise das Revistas mais citadas

A *Pediatrics* foi a revista com o maior número de citações (608) no portfólio selecionado. Entre as revistas mais citadas, pode-se ainda destacar as seguintes: *Journal of Human Lactation* (n=410), *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* (n=365), *Journal of Paediatrics and Child Health* (n=274), *Breastfeeding Medicine* (n=243), *Journal of Pediatric Surgery* (n=150), *Canadian Family Physician* (n=132), *Archives of Disease in Childhood: Fetal and Neonatal Edition*(n=130), *Journal of the American Board of Family Practice* (n=127), *Otolaryngology - Head and Neck Surgery* (n=127), conforme demonstrado na figura 8.

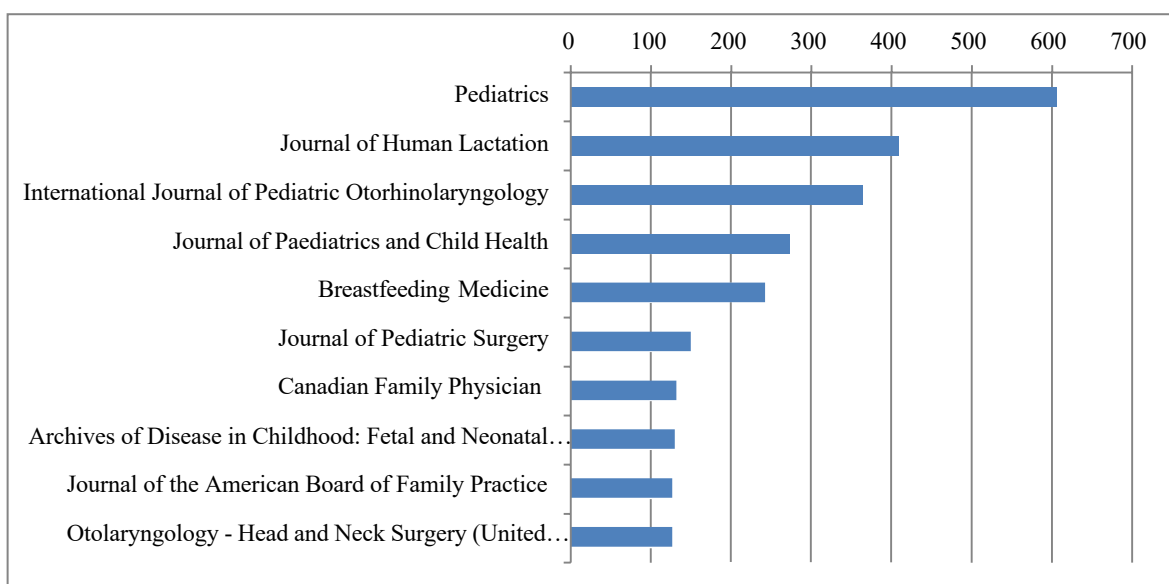


Figura 8- Visualização dos 10 periódicos mais citados.

Discussão

Esta é a primeira análise bibliométrica sobre o panorama global da anquiloglossia em recém-nascidos que se tem conhecimento. A primeira publicação identificada na busca foi registrada no final da década de 60²² e abordou o papel do fonoaudiólogo na indicação de frenulotomia em casos de anquiloglossia. Nesta época, o assunto não era tão estudado apresentando, no máximo, uma publicação por ano. Esta 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 essas palavras estarem fortemente conectadas entre si, o que demonstra o interesse em entender se a frenotomia é a melhor conduta a ser adotada nos casos de dificuldade de amamentação em recém-nascidos com essa malformação.

Apesar do volume considerável de estudos sobre este tema, ainda existe a necessidade de um consenso em relação ao tratamento da anquiloglossia em neonatos. Algumas revisões sistemáticas já foram conduzidas ^{7,23,24} 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 cirúrgica, apesar do baixo grau de evidências⁷. Ainda assim, o número de cirurgias tem aumentado, gerando uma preocupação na comunidade científica, devido a falta de comprovação sobre a sua eficácia ²⁵⁻²⁸ e pela falta de protocolo para justificar sua indicação. Ao mesmo tempo, muitas pesquisas recentes ressaltam a possibilidade de complicações pós-cirúrgica ^{29,30}, como dificuldade de alimentação, dor, hemorragia e perda de peso.

É evidente que qualquer intervenção cirúrgica, mesmo a mais simples, pode ocasionar em riscos. No caso da frenotomia, o cuidado deve ser redobrado por envolver recém-nascidos, com baixo peso corpóreo e sem histórico de doenças. Seguindo essa lógica, um importante estudo dissecau cadáver de recém-nascidos para conhecer a estrutura anatômica do frênulo lingual e verificou a proximidade de estruturas nobres, como o nervo lingual, que poderiam ser eventualmente lesionadas durante a cirurgia³. 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 deste risco. Como resultado, é possível observar que o tema “laser” se destacou na análise temporal sobre as palavras chaves utilizadas nas publicações mais recentes ^{31,32} provavelmente devido às vantagens apresentadas como a hemostasia, facilitando a visualização durante o procedimento cirúrgico, e diminuindo a possibilidade de hemorragia pós-operatória.

Ao comparar as informações dos artigos mais citados, o trabalho de Ballard et al sob o título: “Ankyloglossia: assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad”³³, de 2002, ocupou o primeiro lugar, sendo citado 217 vezes. Nele, os autores examinaram 2.763 lactentes internados e outros 273 em atendimento ambulatorial com problemas de amamentação para estudar a anquiloglossia, determinar sua incidência e medir a eficácia do procedimento de frenuloplastia na melhora da amamentação. Para os autores, a avaliação cuidadosa da função lingual, seguida de frenuloplastia quando indicada, parece ser uma abordagem bem-sucedida para facilitar a amamentação.

Cabe ressaltar que o referido estudo foi publicado na *Pediatrics*, revista que também mais se destacou com o maior número de citações (608). A *Pediatrics* é o jornal oficial da Academia Americana de Pediatria, publicada mensalmente, de forma contínua, desde 1948. Ainda em relação aos periódicos, é possível constatar que ou outros mais citados estão voltados para o estudo da amamentação (*Journal of Human Lactation*, *Breastfeeding Medicine*), otorrinolaringologia (*International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* e cirurgia (*Journal of Pediatric Surgery*).

O país com maior produção de artigos foram os EUA com 84 trabalhos produzidos, seguido do Reino Unido (34) e Austrália (25). Em relação ao número de citações, a ordem de colocação dos países permaneceu a mesma com 2075, 886 e 601, respectivamente. 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 15 países que mais se destacaram na busca, chama atenção que o Brasil, apesar de ser o 4º país mais ativo, com 21 publicações, ficou posicionado na 15ª colocação quanto ao número de citações. Uma justificativa plausível poderia ser em função de o país contar com as produções mais recentes, conforme demonstrado na figura 6. Sendo assim,

esta 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 ³⁴.

Tendências futuras das pesquisas

Várias lacunas ainda persistem em relação a 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. Deste modo, a natureza subjetiva do seu diagnóstico é um grande desafio para a comunidade científica. Por isso existe a necessidade de desenvolvimento e/ou o aprimoramento de ferramentas de avaliação do frênulo lingual. Para Hatami et al ³⁵ os modelos existentes não são eficazes para auxiliar no diagnóstico em relação aos critérios para indicar a realização de procedimento cirúrgico.

O mesmo pode ser dito em relação à classificação do frênulo lingual. Segundo Mills (2019)³ a anquiloglossia é um diagnóstico clínico e os sistemas de classificação para anquiloglossia mais utilizados atualmente ^{11,36} (Kotlow, 1999; Coryllos et al., 2004) tem como base a observação de uma única característica anatômica relacionada a aparência do frênulo, ou seja, a 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 ausência de apoptose, que é um mecanismo de morte celular geneticamente programado e fundamental para remodelação dos tecidos, durante o desenvolvimento embrionário. Embora pouco se saiba sobre os fatores genéticos da anquiloglossia, dois genes já foram associados a esta condição: o gene *TBX22* em casos associados à fissura palatina³⁷⁻³⁹, e o gene *LGR5*, que após ser silenciado experimentalmente em camundongos, resultou em fenótipo de anquiloglossia⁴⁰.

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 orais⁴¹. Afinal estudos de sequenciamento genômico, muito utilizado para investigar outras malformações orais e síndromes, ainda são inéditos em relação às anomalias dos freios, não sendo encontrado na base PUBMED nenhum estudo de WGS envolvendo o tema.

Pontos fortes e limitações

A bibliometria é uma estratégia de análise que busca, através de pesquisa de literatura, identificar aspectos relevantes sobre determinada área, destacando variáveis de interesse como estudos e temas mais representativos, a conexão entre os pesquisadores, tendências das publicações mais recentes, entre outros. Sendo assim, este estudo buscou apresentar as redes de construção do conhecimento relacionadas à anquiloglossia em recém-nascidos, analisando informações coletadas em diferentes bases em dados.

Entretanto, os dados obtidos estão atrelados às informações contidas nos metadados importados do gerenciador de referência. Este, por sua vez, tem como base os arquivos importados das diferentes bases de dados e, como tal, estão sujeitos a variação de preenchimento, podendo gerar um impacto na contagem bibliométrica, caso não seja observado. Para amenizar este fato, antes da construção dos mapas e tabelas, os resultados foram avaliados individualmente para que eventuais discrepâncias pudessem ser corrigidas.

Considerações Finais

Este trabalho evidenciou um aumento das pesquisas sobre a anquiloglossia em recém-nascidos, principalmente no ano de 2019. Os EUA foram o país mais ativo em número de publicações e a *Pediatrics* a revista mais referenciada. As palavras-chave mais citadas estão relacionadas à busca pela melhora do aleitamento materno. Assim, observa-se, como perspectiva futuras, a necessidade de mais investigações sobre consenso em relação ao diagnóstico, classificação e principalmente, estabelecer bases sólidas para o tratamento cirúrgico.

Referências

1. Bommarito S, Zanato L, Vieira M, Angelieri F. Aglossia: Case Report. *Int Arch Otorhinolaryngol*. 2016;20(01):087-092. doi:10.1055/s-0034-1544116
2. Katchburian E, Arana V. *Histologia e Embriologia Oral: Texto, Atlas, Correlações Clínicas*. 3th ed. Guanabara Koogan; 2012.
3. Mills N, Keough N, Geddes DT, Pransky SM, Mirjalili SA. Defining the anatomy of the neonatal lingual frenulum. *Clin Anat*. 2019;32(6):824-835. doi:10.1002/ca.23410
4. Knox I. Tongue tie and frenotomy in the breastfeeding newborn. *NeoReviews*. 2010;11(9):e513-e518. doi:10.1542/neo.11-9-e513

5. Klockars T. Familial ankyloglossia (tongue-tie). *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2007;71(8):1321-1324. doi:10.1016/j.ijporl.2007.05.018
6. Messner AH, Lalakea ML, Janelle A, Macmahon J, Bair E. Ankyloglossia: Incidence and associated feeding difficulties. *Arch Otolaryngol - Head Neck Surg*. 2000;126(1):36-39. doi:10.1001/archotol.126.1.36
7. O'Shea JE, Foster JP, O'Donnell CPF, et al. Frenotomy for tongue-tie in newborn infants. *Cochrane Database Syst Rev*. 2014;2014(4). doi:10.1002/14651858.CD011065
8. Rowan-Legg A, Canadian Paediatric Society, Community Paediatrics Committee. Ankyloglossia and breastfeeding. *Paediatr Child Health*. 2015;20(4):209-213. doi:10.1093/pch/20.4.209
9. Amir LH, James JP, Donath SM. Reliability of the Hazelbaker Assessment Tool for Lingual Frenulum Function. *Int Breastfeed J*. 2006;1(1):3. doi:10.1186/1746-4358-1-3
10. Brzęcka D, Garbacz M, Micał M, Zych B, Lewandowski B. Diagnosis, classification and management of ankyloglossia including its influence on breastfeeding. *Dev Period Med*. 2019;23(1):79-87.
11. Coryllos E, Genna C, Salloum. Congenital tongue-tie and its impact on breastfeeding. *AAP Sect Breastfeed Bull*. Published online summer 2004.
12. Kotlow LA. Ankyloglossia (tongue-tie): a diagnostic and treatment quandary. *Quintessence Int Berl Ger* 1985. 1999;30(4):259-262.
13. Messner AH, Lalakea ML. The effect of ankyloglossia on speech in children. *Otolaryngol--Head Neck Surg Off J Am Acad Otolaryngol-Head Neck Surg*. 2002;127(6):539-545. doi:10.1067/mhn.2002.129731
14. Campanha SMA, Martinelli RLDC, Palhares DB. Association between breathing and ankyloglossia in newborns in the first days of life. *Sleep Sci*. 2022;15((Campanha S.M.A.; Martinelli R.L.D.C.; Palhares D.B.) Universidade Federal De Mato Grosso do Sul, Campo Grande, MS Brazil, Faculdade De odontologia De Bauru, Bauru, SP, Brazil):15.
15. Garbin CP, Sakalidis VS, Chadwick LM, Whan E, Hartmann PE, Geddes DT. Evidence of improved milk intake after frenotomy: A case report. *Pediatrics*. 2013;132(5):e1413-e1417. doi:10.1542/peds.2012-2651
16. Ghaheri BA, Cole M, Fausel SC, Chuop M, Mace JC. Breastfeeding improvement following tongue-tie and lip-tie release: A prospective cohort study. *Laryngoscope*. 2017;127(5):1217-1223. doi:10.1002/lary.26306
17. Walsh J, Links A, Boss E, Tunkel D. Ankyloglossia and Lingual Frenotomy: National Trends in Inpatient Diagnosis and Management in the United States, 1997-2012. *Otolaryngol - Head Neck Surg U S*. 2017;156(4):735-740. doi:10.1177/0194599817690135
18. Ruffoli R, Giambelluca M, Scavuzzo M, et al. Ankyloglossia: a morphofunctional investigation in children: Ankyloglossia in children. *Oral Dis*. 2005;11(3):170-174. doi:10.1111/j.1601-0825.2005.01108.x

19. Araújo CAÁ. Bibliometrics: historical development and current issues. 2006;12(1):11-32.
20. van Eck NJ, Waltman L. Software survey: VOSviewer, a computer program for bibliometric mapping. *Scientometrics*. 2010;84(2):523-538. doi:10.1007/s11192-009-0146-3
21. van Eck NJ, Waltman L. Visualizing Bibliometric Networks. In: Ding Y, Rousseau R, Wolfram D, eds. *Measuring Scholarly Impact*. Springer International Publishing; 2014:285-320. doi:10.1007/978-3-319-10377-8_13
22. Block JR. The role of the speech clinician in determining indications for frenulotomy in cases of ankyloglossia. *N Y State Dent J*. 1968;34(8):479-481.
23. Bruney TL, Scime NV, Madubueze A, Chaput KH. Systematic review of the evidence for resolution of common breastfeeding problems-Ankyloglossia (Tongue Tie). *Acta Paediatr Oslo Nor 1992*. 2022;111(5):940-947. doi:10.1111/apa.16289
24. Chinnadurai S, Francis DO, Epstein RA, Morad A, Kohanim S, McPheeters M. Treatment of ankyloglossia for reasons other than breastfeeding: A systematic review. *Pediatrics*. 2015;135(6):e1467-1474. doi:10.1542/peds.2015-0660
25. Bawazir OA, Bawazir AO, Bawazir RO, Bawazir FA, Halabi NF. Experiences and Outcomes of Frenotomy in Children with Ankyloglossia in Multiple Tertiary Centers in Saudi Arabia. *J Clin Neonatol*. 2021;10(2):103-107. doi:10.4103/jcn.JCN_151_20
26. Brookes A, Bowley DM. Tongue tie: the evidence for frenotomy. *Early Hum Dev*. 2014;90(11):765-768. doi:10.1016/j.earlhumdev.2014.08.021
27. Bundogji N, Zamora S, Brigger M, Jiang W. Modest benefit of frenotomy for infants with ankyloglossia and breastfeeding difficulties. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2020;133((Bundogji N.; Zamora S.; Brigger M.; Jiang W., wjiang@rchsd.org) Division of Pediatric Otolaryngology, Rady Children's Hospital San Diego, San Diego, CA, United States). doi:10.1016/j.ijporl.2020.109985
28. Matthews E, Choudhry M. An audit of impacts of frenulectomy in breast feeding. *Arch Dis Child*. 2012;97((Matthews E.) Community Midwives, Imperial College Healthcare NHS Trust, London, United Kingdom):A475. doi:10.1136/archdischild-2012-302724.1680
29. Hale M, Mills N, Edmonds L, et al. Complications following frenotomy for ankyloglossia: A 24-month prospective New Zealand Paediatric Surveillance Unit study. *J Paediatr Child Health*. 2020;56(4):557-562. doi:10.1111/jpc.14682
30. Kim DH, Dickie A, Shih ACH, Graham ME. Delayed Hemorrhage following Laser Frenotomy Leading to Hypovolemic Shock. *Breastfeed Med*. 2021;16(4):346-348. doi:10.1089/bfm.2020.0319
31. Dell'Olio F, Baldassarre ME, Russo FG, et al. Lingual laser frenotomy in newborns with ankyloglossia: a prospective cohort study. *Ital J Pediatr*. 2022;48(1). doi:10.1186/s13052-022-01357-9

32. Mazzone A, Navarro R, Fernandes K, et al. Comparison of the Effects of High-Power Diode Laser and Electrocautery for Lingual Frenectomy in Infants: a Blinded Randomized Controlled Clinical Trial. *J Clin Med.* 2022;11(13). doi:10.3390/jcm11133783
33. Ballard JL, Auer CE, Khoury JC. Ankyloglossia: assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad. *Pediatrics.* 2002;110(5):e63. doi:10.1542/peds.110.5.e63
34. Brasil. *Lei Nº 13.002 de 20 de Junho de 2014. Obriga a Realização Do Protocolo de Avaliação Do Frênulo Da Língua Em Bebês.* Diário Oficial da União; 20 jun. <https://legislacao.presidencia.gov.br/atos/?tipo=LEI&numero=13002&ano=2014&ato=7a5QTVE9ENVpWTd19>
35. Hatami A, Dreyer CW, Meade MJ, Kaur S. Effectiveness of tongue-tie assessment tools in diagnosing and fulfilling lingual frenectomy criteria: a systematic review. *Aust Dent J.* 2022;67(3):212-219. doi:10.1111/adj.12921
36. Kotlow LA. Ankyloglossia (tongue-tie): a diagnostic and treatment quandary. *Quintessence Int Berl Ger* 1985. 1999;30(4):259-262.
37. Andreou AM, Pauws E, Jones MC, et al. TBX22 Missense Mutations Found in Patients with X-Linked Cleft Palate Affect DNA Binding, Sumoylation, and Transcriptional Repression. *Am J Hum Genet.* 2007;81(4):700-712. doi:10.1086/521033
38. Braybrook C. Craniofacial expression of human and murine TBX22 correlates with the cleft palate and ankyloglossia phenotype observed in CPX patients. *Hum Mol Genet.* 2002;11(22):2793-2804. doi:10.1093/hmg/11.22.2793
39. Braybrook C, Doudney K, Marçano ACB, et al. The T-box transcription factor gene TBX22 is mutated in X-linked cleft palate and ankyloglossia. *Nat Genet.* 2001;29(2):179-183. doi:10.1038/ng730
40. Morita H, Mazerbourg S, Bouley DM, et al. Neonatal lethality of LGR5 null mice is associated with ankyloglossia and gastrointestinal distension. *Mol Cell Biol.* 2004;24(22):9736-9743. doi:10.1128/MCB.24.22.9736-9743.2004
41. Nunes LMN, Dias GM, Antunes L dos S, Antunes LAA. Fatores genéticos associados aos freios orais. In: *Livro Freios Orais - Prática Clínica e Evidência Científica.* 1st ed. Santos Publicações; 2023:246.

CONTRIBUIÇÃO DE AUTORIA

LMN Nunes trabalhou na concepção da pesquisa, levantamento, tratamento e análise dos dados, escrita e revisão do texto final do artigo. JM Bonelli atuou no levantamento, tratamento e análise dos dados e escrita do texto do artigo. LS Antunes contribuiu na concepção da pesquisa, levantamento, tratamento e análise dos dados, escrita e revisão do texto final do artigo. LAA Antunes trabalhou na concepção da pesquisa, tratamento e análise dos dados, escrita e revisão do texto final do artigo.

CONFLITO DE INTERESSES

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

DECLARAÇÃO DE DISPONIBILIDADE DE DADOS

O material pesquisa científica está disponível publicamente sob demanda uma vez que os dados não foram publicados necessitando de consulta aos autores para seu acesso.

TABELAS SUPLEMENTARES

Tabela 1: países que mais publicaram, por ordem de artigos.

Item	País	Nº Artigos	Nº citação
1	united states	84	2075
2	united kingdom	34	886
3	australia	25	601
4	brazil	21	54
5	canada	13	416
6	spain	11	104
7	israel	8	207
8	germany	6	62
9	japan	6	96
10	turkey	6	38
11	new zealand	5	75
12	switzerland	5	118
13	thailand	5	88
14	china	4	18
15	france	4	32

Tabela 2: países que mais publicaram, por ordem de citações

Item	País	Nº Artigos	Nº citação
1	united states	84	2075
2	united kingdom	34	886
3	australia	25	601
4	canada	13	416
5	israel	8	207
6	ireland	3	123
7	switzerland	5	118
8	spain	11	104
9	japan	6	96
10	thailand	5	88
11	new zealand	5	75
12	norway	2	67
13	sweden	1	66
14	germany	6	62
15	brazil	21	54

Este preprint foi submetido sob as seguintes condições:

- Os autores declaram que estão cientes que são os únicos responsáveis pelo conteúdo do preprint e que o depósito no SciELO Preprints não significa nenhum compromisso de parte do SciELO, exceto sua preservação e disseminação.
- Os autores declaram que os necessários Termos de Consentimento Livre e Esclarecido de participantes ou pacientes na pesquisa foram obtidos e estão descritos no manuscrito, quando aplicável.
- Os autores declaram que a elaboração do manuscrito seguiu as normas éticas de comunicação científica.
- Os autores declaram que os dados, aplicativos e outros conteúdos subjacentes ao manuscrito estão referenciados.
- O manuscrito depositado está no formato PDF.
- Os autores declaram que a pesquisa que deu origem ao manuscrito seguiu as boas práticas éticas e que as necessárias aprovações de comitês de ética de pesquisa, quando aplicável, estão descritas no manuscrito.
- Os autores declaram que uma vez que um manuscrito é postado no servidor SciELO Preprints, o mesmo só poderá ser retirado mediante pedido à Secretaria Editorial do SciELO Preprints, que afixará um aviso de retratação no seu lugar.
- Os autores concordam que o manuscrito aprovado será disponibilizado sob licença [Creative Commons CC-BY](#).
- O autor submissor declara que as contribuições de todos os autores e declaração de conflito de interesses estão incluídas de maneira explícita e em seções específicas do manuscrito.
- Os autores declaram que o manuscrito não foi depositado e/ou disponibilizado previamente em outro servidor de preprints ou publicado em um periódico.
- Caso o manuscrito esteja em processo de avaliação ou sendo preparado para publicação mas ainda não publicado por um periódico, os autores declaram que receberam autorização do periódico para realizar este depósito.
- O autor submissor declara que todos os autores do manuscrito concordam com a submissão ao SciELO Preprints.