



AGNIESZKA JARZYŃSKA

The Maria Grzegorzewska University
Poland

<https://orcid.org/0000-0003-4797-3195>

BARBARA SAMBOR

AST National Academy of Theatre Arts in Krakow
Poland

<https://orcid.org/0000-0002-5777-1688>

Problems with the lingual frenulum diagnosis – a narrative review*

Problems with the lingual frenulum diagnosis – a narrative review

ABSTRACT: The article is an attempt to systematize contemporary scientific knowledge regarding tongue-tie diagnosis problems. The authors made a broad review of the literature, trying to find answers to questions that concern speech therapy practitioners in their everyday work. Case studies and publications with a low level of scientific evidence were excluded from the review. The analysis of the literature showed how many extremely important questions remain unanswered and how little reliable information can be used to follow *evidence-based practice*.

KEYWORDS: ankyloglossia, tongue-tie, Lingual frenulum, frenulotomy, frenectomy

Trudności w ocenie wędzidełka języka – próba podsumowania obecnego stanu wiedzy

STRESZCZENIE: W artykule podjęto próbę usystematyzowania współczesnej wiedzy naukowej dotyczącej problematyki diagnozowania skróconego wędzidełka języka. Autorki dokonały szerokiego przeglądu anglojęzycznego piśmiennictwa w poszukiwaniu odpowiedzi na pytania nurtujące logopedów praktyków w codziennej pracy (z przeglądu literatury wykluczono *case-study* oraz publikacje o niskim poziomie dowodu naukowego). Analiza wykazała, jak wiele niezwykle ważnych pytań pozostaje bez odpowiedzi i jak mało mamy potwierdzonych naukowo informacji, które można wykorzystać w postępowaniu zgodnie z zasadami praktyki opartej na dowodach (*evidence-based practice*).

SŁOWA KLUCZOWE: ankyloglosja, wędzidełko języka, frenulotomia, frenektomia

* The research was conducted under an internal grant from The Maria Grzegorzewska University in Warsaw (no. BNS 48/24-P).

The evaluation of the lingual frenulum is the subject of analyses and investigations not only by specialists: speech therapists, physiotherapists, dentists and orthodontists, neonatologists, lactation advisors, laryngologists, researchers dealing with orofacial space – but also by parents of small patients and patients themselves. In the last few decades, views on the lingual frenulum in Polish and global literature have changed quite dramatically – from the complete ignoring of this phenomenon, to the tendency to over-diagnose ankyloglossia, which has been signaled in recent years and, consequently, to refer a very large number of patients to surgery. This is especially true for newborns and infants (e.g. Caloway et al., 2019; Żukowska-Rubik & Nehring-Gugulska, 2021).

Over the last few decades, ankyloglossia has therefore been first ignored, then treated as a marginal phenomenon; in the following years, two factions have emerged – staunch supporters and strong opponents of cutting the lingual frenulum. We have the impression that the majority of speech therapists stand between them, looking for answers to the question of how to proceed in practice: what guidelines should be followed in making a diagnosis? Is the knowledge of ankyloglossia sufficient and based on scientific research? Does the speech therapist have the right to express their opinion on the choice of method and scope of treatment? What should be the standard of pre- and post-operative care? Who is responsible for mobilizing the soft tissues before and after the procedure? How far does the role of a doctor go, and how far does the role of a speech therapist go?

Currently, one may get the impression that most of the problems related to failures in breastfeeding, difficulties in expanding the diet, malocclusion development and articulation disorders are attributed to a shortened lingual frenulum, with less attention being paid to the analysis of dysfunctions (including e.g. postural, respiratory and digestive ones), abnormal oral reactions, improper tonus of the orofacial space or the influence of oral sensory function – which may or may not be related to ankyloglossia. The frequency of carrying out procedures has increased several times in the world in recent years (e.g. data from Australia show an increase of 3,500% – Kapoor et al., 2018, and in the USA a tenfold increase in 1997–2012 – Walsh et al., 2017). In recent years, the number of children with suspected ankyloglossia has also increased significantly in Poland. The situation when parents pre-reserve a place for a frenotomy procedure before the birth of a child is not uncommon at present.

Global studies indicate the prevalence of ankyloglossia at the level of 3.8–10% (Messner et al., 2020) or 0.02–12% (O'Connor et al., 2022) – the divergence of statistical data results from the adoption of different evaluation criteria using different scales and protocols for the assessment of defective tongue structure, while the main source of these estimates is research conducted among newborns. What is important, the authors of this article did not find a research paper defining the population norm – what is the normative structure of the tongue? What

percentage of the population has it? The frequency of ankyloglossia reported by various researchers depends not only on the scale of assessment used, but also on the selection of the group (depending on whether they are patients of the speech therapy clinic, students, newborns, etc.) – but thus far, no cross-sectional descriptive studies have been performed on patients with ankyloglossia. It can therefore be said that researchers and practitioners are intensively looking for a way to detect irregularities in the structure of the tongue, but they do not have a well-established definition of the correct structure of the lingual frenulum, and the previous conflicting reports show that further objective research is required. In many anatomical atlases we find images of the tongue indicating the limitation of its mobility, and definitions of the frenulum itself vary widely. In recent years, especially based on anatomical discoveries and meta-analyses of scientific studies, there have been more and more voices pointing out significant gaps in knowledge about the structure of the floor of mouth and tongue, as well as doubts about the correct assessment of the condition of the frenulum, e.g. the so-called “posterior tongue-tie,” questions about the use of popular but unvalidated scales and classifications or the growing over-diagnosis of ankyloglossia, indications for surgery, selection of the method of surgical intervention and post-operative management (e.g. Binti Zaaba, 2021; Hatami et al., 2022; Messner et al., 2020; Mills, Keough et al., 2019; Mills, Pransky et al., 2019; Van Biervliet et al., 2022; Żukowska-Rubik & Nehring-Gugulska, 2021).

Although frenotomy is generally considered safe, in some cases it is necessary to repeat the procedure, and there may be a tendency toward scarring or recurrent ankyloglossia (see e.g. Binti Zaaba, 2021). The authors have also encountered (in their own practice) rare cases of damage to the lingual nerve after a frenuloplasty procedure or massive bleeding in the first day after the procedure – requiring hospitalization. O'Connor et al. report a high rate of re-treatment and complications reported by pediatricians; the most common complications observed were oral aversion, oral hypersensitivity, and feeding refusal in children (O'Connor et al., 2022). Our practice indicates that the situations described above are extremely rare – however, the real scale of complications is not exactly known. It is probably not an alarming percentage, but we do not have full data allowing the selection of patients from a risk group, e.g. post-operative scarring. It is worrying that in interviews, patients increasingly declare the cutting of the frenulum “just in case”: in order to improve breastfeeding, eliminate articulation disorders, prevent malocclusion. In contrast to the above-listed arguments, it should be noted that there are still cases of undiagnosed ankyloglossia, e.g. long-term speech therapy conducted despite the inability to properly elevate the tongue, etc.

Currently, in the USA, most scientists do not support the idea of early, preventive performance of the lingual frenulum cutting procedure (Messner et al., 2020). A completely different position is represented by Brazilian researchers,

who emphasize that performing a frenotomy procedure before the age of 5 makes it possible to obtain normative pronunciation without the need for speech therapy (based on the analysis of the articulation of the Portuguese language), and after the age of 5, the risk of consolidating bad habits and compensation increases, which may result in the implementation of further surgery, speech therapy and orthodontic treatment (Alves et al., 2018).

Specialists have the right to expect clear and detailed guidelines for the indications for frenotomy, as well as the scope of the procedure and standards of pre- and post-procedure treatment. The task of science is to provide these answers, in accordance with the spirit of *evidence-based practice*.

In this work, the authors attempt to present the current state of research on ankyloglossia. The aim of the analysis is to juxtapose key questions about ankyloglossia with answers obtained from a review of the results of scientific research with a high degree of scientific proof. The analysis was based on English-language publications from 2019–2023, using the PubMed database. The following keywords were entered: *tongue tie* (232 results) and *ankyloglossia* (212 publications). The review excluded *case studies* and reports with a low level of scientific evidence (based on the analysis of a small group of respondents, lack of control group and/or statistical analyses, surveys, papers containing methodological errors). In the selection of literature, publications with meta-analysis, systematic review and containing the results of randomized trials were preferred. Out of the obtained results, 16 publications were chosen (Arena et al., 2022; Binti Zaaba, 2021; Borowitz, 2023; Caloway et al., 2019; Campanha et al., 2019; Gwóźdź-Jeziarska & Bielecki, 2022; Hatami et al., 2022; Messner et al., 2020; Mills et al., 2020; Mills, Keough et al., 2019; Mills, Pransky et al., 2019; O'Connor et al., 2022; Obladen, 2021; Van Biervliet et al., 2020; Zaghi et al., 2021; Żukowska-Rubik et al., 2019) that met the above criteria and thematically answered the questions posed by the author: what actually is a lingual frenulum? Is there a posterior tongue tie? Is there an objective, validated, and standardized scale for assessing the lingual frenulum in children/adults? What symptoms can cause a misdiagnosis of ankyloglossia? Is there evidence of a greater effectiveness of any surgical method and how it is adapted to the structure of the lingual frenulum/patient's age/type of functional impairment observed? Are there procedures for non-surgical treatments supported by scientific research?

The authors realize that the presented selection of questions is subjective, and that most of them probably do not yet have a clear answer – but the analysis of the state of scientific research allows us to determine which statements regarding ankyloglossia have a strong scientific basis, and which require further research, or have already been challenged. Discovering and discussing doubts will – in our opinion – allow not only us to make better decisions in patient care.

The state of anatomical studies on the lingual frenulum

The state of research on ankyloglossia, despite the constantly growing database of publications, is, to put it mildly, insufficient. We should start by highlighting the most important issue: the lack of sufficient definition of the structure, which is referred to as the “lingual frenulum”. There is also thus far no study that reliably determines the incidence of ankyloglossia or determines the population norm.

Traditionally, the frenulum was referred to in general terms as a fold connecting the tongue with the floor of mouth. In Bochenek’s *Anatomia człowieka* we find brief information that it is a fold of the mucous membrane that attaches to the floor of mouth between the layers of sublingual caruncle (Bochenek & Reicher, 2014). The authors of *Atlas of Human Anatomy* state that it is “a median fold of tissue located at the base of the tongue and extending along the lower surface of the tongue” (Netter, 2020, p. 375).

The first histological examination of the lingual frenulum was carried out in 1966 by Fuchs based on extracts taken from the cadavers of adults. In the light of today’s knowledge, the results of these studies should be considered rather erroneous, probably due to incorrect collection of the sections – the lingual frenulum is described as a flat epithelium (the same as that which covers the tongue).

Several decades later, in a subsequent study conducted by Roberta Castro Martinelli et al. (2014), the structure of preparations taken from excised tissues of the frenulum obtained from 8 children under 4 years of age was assessed; all of the children were diagnosed with abnormal lingual frenulum structure; evaluation was carried out on the basis of the Marchesan protocol (2012). In the material, skeletal muscle fibers were identified in several frenulums, and in all of them, collagen fibers of type I (non-stretchable) and type III (the latter only near the epithelium and blood vessels). From the results obtained by the researchers, it can be concluded that there is a likely similarity between the structure of the lingual frenulum and the structure of ligaments in the human body.

Meanwhile, more recent histological studies by Nicki Mills et al. suggest something completely different: they suggest that the frenulum is probably a fold of the fascia of the floor of mouth arranged in a sagittal plane, visible when the tongue is elevated (Mills et al., 2020; Mills, Pransky et al., 2019). These studies may turn out to be ground-breaking, bringing completely different reports from previous ones and influencing the way of thinking about the shortened lingual frenulum.

The authors (Mills et al., 2020; Mills, Keough et al., 2019; Mills, Pransky et al., 2019) conducted a thorough analysis of sublingual structures based on tissues collected from deceased persons (in one study they were premature babies born at the age of 23–30 Hbd, in the other adults with an average age of 72 years). It is worth noting that in this study, not only fragments of the frenulum itself

were collected, but the whole surrounding folds of structures – tongue, body if the mandible, floor of mouth. Some limitations of the study should be indicated here immediately, such as the age of children (from 23 Hbd to 30 Hbd) – therefore, these were not mature tissues subjected to physiological course of function; in the elderly, we do not know anything about the previous course of primary functions, the structure of the bite of the subjects is also unknown, etc. In the analyses undertaken attention is drawn to the small number of subjects – 4 children, 13 adults. It is unlikely that such a small sample will allow any differences in the structure of the oral cavity to be defined or the anatomical norm to be determined. However, the authors showed the following anatomical phenomena, common to all subjects (both preterm infants and adults):

- fascia of the oral cavity extends from the inner surface of the body of the mandible to the connective tissue on the sublingual surface of the tongue;
- this fascia is a layer that stabilizes the tongue and gives it support;
- the lingual frenulum is a fold of the fascia of the oral cavity mobilized by raising the tongue (the frenulum fold is revealed during movement) – the state of the fascia, its location and dimensions determine the possibility of raising the tongue, and constitutes the possible range of movements;
- the “upper attachment” of the ligament is the highest point of contact between the fascia of the oral cavity and the inner surface of the tongue;
- the “lower attachment” of the frenulum is the point of contact of the fascia with the alveolar process of the mandible;
- “the thickness and translucency of the frenulum fold is influenced by how the fascial and mucosal layer forming the fold glide relative to each other, as well being influenced by the variability in the height that the mucosa, fascia, and genioglossus muscle are drawn up into the frenulum fold [...] the thickness or bulkiness of the frenulum is also influenced by the height that genioglossus is suspended from the fascial surface. [...] This particular variation in morphology increases the risk of genioglossus muscle fibers being inadvertently cut during frenotomy. This would be the source of muscle fibers that have been reported in histological analysis of frenulum biopsies [performed by Martinelli et al. in 2014]” (Mills, Keough et al., 2019, p. 9);
- the fold was present regardless of the age of the subjects, so the authors suggest that it is therefore a normal anatomical structure with individually differentiated morphology occurring in a wide spectrum of individual characteristics (Mills, Pransky et al., 2019).

The authors point out how many factors determine the appearance of the frenulum (Ruffoli et al., 2005); at the same time, they negate the usefulness of the existing scales for assessing the lingual frenulum, emphasizing that they only assess the appearance of the frenulum, and cannot be used to diagnose ankyloglossia. They add that “the height of the ventral tongue attachment of the frenulum

can then be considered to be just one part of a larger puzzle that still has many missing pieces” (Mills, Pransky et al., 2019, p. 9). The researchers questioned the existence of a frenulum understood as a uniform ligament, occurring in the form of a “thread,” a “cord” or a “band,” suggesting that in reality we are dealing with a dynamically formed fascia fold, while denying the presence of a “posterior” tongue tie (the so-called Coryloss type 4). In addition, they indicate a lack of studies on the effectiveness of surgical interventions and their impact on the conditions prevailing in the oral cavity in patients with a so-called posterior tongue tie (Douglas, 2013; Ghaheri, 2014). At the same time, they suggest a different explanation for Coryloss type 3 frenulums – pointing to the differences in the position of the two oral fascia attachments located in the median line (according to the authors, this is related to the lower position of the fascia attachment, not the difference in the arrangement of the fold itself). The authors (Mills, Keough et al., 2019 and Mills, Pransky et al., 2019) emphasize the need for further research.

Regardless of the reservations that may arise after the analysis of the methodology of the conducted research (sample selection), the research of Mills, Keough et al. (2019) and Mills, Pransky et al. (2019) challenged the current thinking about the lingual frenulum, casting doubt on most of the assumptions and classifications used thus far.

Reliability of scales to assess the lingual frenulum

In the literature there are many definitions of ankyloglossia and very different methods of assessing and classifying incorrect tongue construction. Scientists and clinicians evaluate the lingual frenulum in a subjective way, which means that a coherent position based on scientific knowledge has not yet been developed. In medical nomenclature, the shortened frenulum is considered mainly in the anatomical aspect, speech therapists usually treat ankyloglossia primarily through the prism of the evaluation of the function of the tongue, taking into account ankyloglossia as one of the possible causes of dysfunction.

None of the scales used globally to assess the lingual frenulum have been reliably standardized and validated (see Arena et al., 2022; Brandão et al., 2018; Hatami et al., 2022). The diagnosis is made on the basis of measurements of the free part of the tongue, length of the frenulum, place of its attachments, assessment of its appearance and functional examination of the tongue together with the possibility of its elevation to a vertical-horizontal position (Pluta-Wojciechowska & Sambor, 2016; Zaghi et al., 2021). In the case of breast-fed infants, problems reported by the mother are taken into account (Campanha et al., 2019; Nehring-

Gugulska et al., 2019; Obladen 2010, 2022). A detailed discussion of the various criteria and methods of assessing the lingual frenulum can be found, among others, in the publications of Barbara Ostapiuk (2005, 2006, 2013), Pluta-Wojciechowska & Sambor (2016), Gwóźdź-Jezierska & Bielecki (2022) and others; however, this exceeds the framework of this study.

The multitude of tools, instead of putting knowledge in order, creates chaos, and the diagnoses are often mutually exclusive. Amir Hatami et al. performed a systematic review of literature from the years 1947–2021 (databases: PUBMED, EMBASE, COCHRANE), selecting works on the diagnosis and treatment of ankyloglossia in pediatric patients. In selected works, the diagnosis of the lingual frenulum was made using three popular scales (Coryloss, Hazelbaker, Kotlow), and the authors of the review set themselves the goal of checking whether the above tools are reliable in the assessment of the lingual frenulum. The researchers found that the evaluated papers were characterized by considerable diversity, and most of the studies did not meet the assumed standards (the authors selected papers meeting the requirements of the fourth level of validity of scientific evidence according to Oxford, and used the Briggs questionnaire to evaluate the scientific papers to check their reliability and avoid bias). Most of the works (as many as 180 out of 205) did not meet the assumed criteria. In the end, 14 studies were evaluated, based on a total of 1,145 subjects.

Amir Hatami et al. (2022) were no significant correlations between the type of scale used to diagnose and the effectiveness of the procedure performed. Although procedures for the release of the frenulum appear to be beneficial in breastfeeding and speech therapy, there are no data suggesting statistically significant links between the condition of the frenulum and the correct diagnosis of patients who will benefit from the procedure.

A short lingual frenulum – do we have a consensus?

In 2020, an expert panel composed of representatives of American ENT organizations decided whether to support or reject (based on the state of scientific research and the level of scientific evidence) 89 selected statements concerning, among others, general beliefs about ankyloglossia, the impact of ankyloglossia on the occurrence of feeding problems and sleep apnea, methods of performing surgical procedures, post-operative rehabilitation, procedures for managing buccal tie and upper lip tie (Messner et al., 2020).

Among the statements indicated by the panel, 48% met the definition standards for consensus. The most important of these are:

- ankyloglossia was considered an anomaly in the anatomical structure of the tongue, limiting its mobility;
- in some societies, ankyloglossia in the infant and child population is over-diagnosed and, consequently, a significant number of frenulotomy procedures are carried out unnecessarily;
- there is no agreement to perform frenotomy in the case of so-called “posterior” tongue ties;
- ankyloglossia is a potential factor in the occurrence/worsening of difficulties in sucking (however, ankyloglossia may also co-occur with other factors generating problems in breastfeeding);
- before frenotomy, a newborn with difficulty in feeding should be diagnosed for other potential causes of the problem, such as upper respiratory tract obstruction, laryngeopharyngeal reflux and craniofacial defects; ankyloglossia in an infant should be assessed in the context of a well-collected medical history (including lactation) and physical examination including palpation; diagnosis of ankyloglossia in an infant having difficulty in breastfeeding requires frenotomy as soon as possible;
- ankyloglossia does not cause sleep apnea;
- surgical release of “cheek/buccal frenulums” should not be performed;
- frenulotomy may negatively affect respiratory function in children with facial defects and neuromuscular diseases;
- it is necessary to carry out randomized trials to assess the impact of ankyloglossia on speech and articulation disorders, currently they have little credibility; whereas ankyloglossia can cause difficulties in articulation and maintaining proper oral hygiene; it may promote tooth decay;
- the obtaining of consent for the procedure should include information on possible failure to breast-feed and an alternative to non-surgical treatment;
- frenotomy surgery is generally considered safe, with little risk of serious complications (rare complications after surgery include bleeding, airway obstruction, salivary gland damage, oral aversion, wound healing difficulties and scarring);
- The American Society of Pediatric Otolaryngology does not support preventive frenotomy to prevent possible subsequent consequences of ankyloglossia, such as speech and bite defects;
- there is insufficient evidence to indicate that a particular frenotomy technique produces better results than other techniques; there is no age limit for frenotomy/frenuloplasty.

The results of an expert discussion indicated the lack of validated tools for assessing the lingual frenulum – therefore, the preferred evaluation system was not indicated (similar objections were raised by Francis et al., 2015; Hatami et al., 2022; O’Shea, 2017), and failed to approve indications concerning the so-called

posterior tongue tie – in the absence of sufficient scientific evidence for the existence of such a structure. Experts see the need to conduct scientific research on the problems of the lingual and upper lip frenulums, as well as to establish a standard of conduct in the case of ankyloglossia. It is worth noting that the cited expert panel did not include speech therapists, lactation consultants, physiotherapists or doctors of other specializations (e.g. orthodontists).

Pediatricians also draw attention to gaps in knowledge and the insufficient state of research. In 2020, the European Journal of Pediatrics published an article entitled “Primum non nocere: lingual frenotomy for breastfeeding problems, not as innocent as generally accepted” (Van Biervliet et al., 2020). The authors note that although the frequency of frenotomy procedures is increasing (as they point out, the frenulum is mainly cut in developed countries, in families with private medical insurance, mainly in the first-born children), the structure of the shortened frenulum, as well as its normative structure, have not yet been precisely defined (particular doubts concern the so-called *posterior tongue-tie* and *submucosal tongue tie*). The researchers also cite the research of Nicki Mills et al. (2020; Mills, Keough et al., 2019; Mills, Pransky et al., 2019) on the role that the frenulum can play when it is actually part of the fascial diaphragm of the floor of mouth. They draw attention to the dynamic nature of the structure, which changes with the movement of the tongue, and is essential for the stability of the tongue in the rest position and in motion. The researchers also found no links to the posterior part of the tongue (they also point out that it has a different embryological origin).

As the authors state, the implementation of an interdisciplinary diagnosis resulted in a decrease in referrals from 95% to 37% (Caloway et al., 2019), and most patients in comprehensive care were successful in feeding without surgery – the authors propose to reserve the treatment for those patients where all other causes have been excluded.

Further questions and doubts

The reports quoted in this paper, coming from specialists in various fields, seem to be the best example of the fact that interdisciplinarity at the stage of diagnosis, or therapy and, if necessary, re-diagnosis, should be the standard procedure in ankyloglossia. This is true not only when effective breastfeeding is at stake, but also in the case of articulation, phonation, malocclusion or postural disorders. Reaching a consensus will not be possible without recognizing the competence of other specialists (speech therapists, certified lactation consultants, physiotherapists, osteopaths), who should be part of the team of diagnosticians.

Many questions, however, are still unanswered, for example, why is there a shortening of the lingual frenulum at all? Is this the result of abnormal apoptosis of cells – or different anatomical relations concerning the tongue and jaw, or perhaps the result of irregularities concerning the tension of the floor of mouth? What is the role of the lingual frenulum in the orofacial space? Should shortened muscle fibers be cut if the genioglossus muscle is shortened? Is it possible to suggest physical therapy to the patient, e.g. using a laser after the procedure? If so, when can a speech therapist implement manual scar therapy, since there are no reports of its effectiveness? Does the patient's diet matter in the healing process? There are many questions of this kind, but it is still almost impossible to obtain answers based on scientific evidence. However, due to the growing popularity and the expanded range of proposed procedures, we should urgently find the answers to these and further questions.

Summary

Based on the analysis of the literature from the years 2019–2023, no unambiguous answers to the questions posed were obtained. The structure of the lingual frenulum is not clear. There is no clear position on the occurrence of the so-called posterior tongue tie. No population studies have thus far been carried out that would allow the normative structure of the lingual frenulum to be determined, and therefore it is difficult to create an objective tool to assess its shortening. Individual scales and classifications are rarely verified using a uniform methodology. When diagnosing ankyloglossia, other possible causes that may manifest similar symptoms (e.g., sucking disorders or malocclusion) are not always taken into account. There is also no evidence of the greater effectiveness of any of the methods of surgical treatment of ankyloglossia currently used. Finally, there are currently no procedures for post-surgery treatments supported by scientific research – all recommendations are based only on the subjective opinions of individual specialists.

Looking at the current situation, it is difficult not to get the impression that the lack of a uniform classification, the subjectivity of assessments, and in many cases the recognition of qualifications for surgery, significantly impede the ability to conduct reliable and comparable tests and estimate the incidence of ankyloglossia – and most importantly, they do not guarantee patients an objective diagnosis and effective therapy.

The multitude of scales to assess the lingual frenulum makes it difficult to compare individual reports of researchers. In practice, clinical evaluation according

to a selected scale facilitates the decision on the procedure, while, what is worth noting, according to the current scientific knowledge, it will be a subjective decision.

The publications cited in this paper may arouse surprise, even disagreement among speech therapists, who see patients in their offices with severely limited tongue mobility, recurrent tongue dysfunction, and who still sometimes encounter doctors refusing to perform the procedure

The lack of accepted definition and classification of ankyloglossia makes comparisons between individual studies practically impossible. The same applies to research on surgical interventions (their validity and selection of techniques) in patients with a shortened lingual frenulum. At this stage of the state of knowledge, it is not possible to present studies conclusively determining this issue concerning surgical intervention – which is also pointed out in medical circles (Borowitz, 2023; Gwóźdź-Jezierska & Bielecki, 2022; Messner et al., 2020; Żukowska-Rubik et al., 2019).

It seems that today there is no discussion of the need for surgical solutions in the case of a significant shortening of the lingual frenulum or its improper structure. But do we have the opportunity to develop standards that, based on strong scientific evidence, will reduce the space for abuse and misinterpretation?

On the basis of the above-quoted reports, several preliminary conclusions can be drawn:

- the frenulum should be evaluated in the context of tongue mobility, not as a static anatomical structure. The assessment should take into account the passive and active mobility of the tongue, coordination of the tongue musculature, but also the condition of the fascia of the floor of mouth, the anatomical and functional relations of the masticatory, supra- and infrahyoid muscles, analysis of the relations in the cervical and atlanto-occipital segments, etc.;
- large-scale population studies should be carried out as a matter of urgency to determine the real degree of occurrence of the phenomenon of shortened lingual frenulum and to indicate and describe an anatomical-functional norm (or a certain range of norm) to which specialists could refer in the diagnosis of ankyloglossia;
- most authors of the research reviews stress the lack of a uniform and validated classification for the assessment of the lingual frenulum – another urgent task to be carried out;
- speech therapy consultation before and after the procedure should be mandatory – it is unacceptable that the patient is subjected to the procedure without myofascial and functional preparation (except for newborns, in a situation of severe/total ankyloglossia) or is left without care after the procedure;
- before deciding to cut the lingual frenulum, a physiotherapy/osteopathic consultation should be considered – impaired tongue mobility may have many causes (e.g. limited mobility in the atlanto-occipital joint);

- it is necessary to investigate which method of dealing with the postoperative wound gives the best results; probably most speech therapists have developed their own post-treatment care procedures – however, these practical methods have not been collected, analyzed and objectively assessed, and therefore cannot be disseminated – they do not bear the hallmarks of scientific evidence of significant value; it is not clear which method of treating the wound will bring the best results for the patient;
- it is necessary to honestly determine the percentage of procedures requiring repeated surgery, scar revision and answer the question of whether the larger the scope of the procedure – the greater the risk of complications. What if the cutting is done without any specific indications – is this malpractice? If so, who decides and on what basis?
- it is necessary to conduct interdisciplinary research and to analyze the results of tests: in situ, in vivo and in vivo with speech therapy, after the procedure.

Thus far, for acquiring knowledge, Polish therapists can rely on the general standard of conduct (Ostapiuk, 2008), numerous scales to assess the appearance of the frenulum and/or the function of tongue, and on commercial training, where they receive a set of beliefs and points of view of the trainer (i.e. in fact, we are talking about knowledge based almost exclusively on *argumentum ad verecundiam*). Bearing in mind the doubts and ambiguities raised in the publication, it is necessary to urgently develop interdisciplinary standards of conduct in ankyloglossia. The starting point should certainly be the development of objective diagnostic criteria, the development of an appropriate classification, and only on this basis the determination of qualification criteria for the procedure and pre- and post-treatment procedures.

The authors thank Professor Danuta Pluta-Wojciechowska for valuable comments during the writing of the article.

References

- Alves, S. S., Reis, L. L., Oliveira, P. C. (2018). Ankyloglossia – from histogenesis and parafunctional implications to legal aspects: A bibliographic review. *Revista Brasileira de Odontologia / The Brazilian Journal of Dentistry*, 75, e1281. <http://dx.doi.org/10.18363/rbo.v75.2018.e1281>.
- Arena, M., Micarelli, A., Guzzo, F., Misici, I., Jamshir, D., Micarelli, B., Castaldo, A., di Benedetto, A., Alessandrini, M. (2022). Outcomes of tongue-tie release by means of tongue and frenulum assessment tools: A scoping review on non-infants. *Acta Otorhinolaryngologica Italica*, 42(6), 492–501. <https://doi.org/10.14639/0392-100x-n2211>.

- Binti Zaaba, N. A. A. (2021). Evaluation of healing following frenectomy. *Bioinformation*, 17(12), 1138–1143. <https://doi.org/10.6026/973206300171138>.
- Bochenek, A., Reicher, M. (2014). *Anatomia człowieka*. T. 2. Wydawnictwo Lekarskie PZWL.
- Borowitz, S. M. (2023). What is tongue-tie and does it interfere with breast-feeding? – a brief review. *Frontiers in Pediatrics*, 11, 1086942. <https://doi.org/10.3389/fped.2023.1086942>.
- Brandão, C. de A., de Marsillac, M. de W. S., Barja-Fidalgo, F., Oliveira, B. H. (2018). Is the Neonatal Tongue Screening Test a valid and reliable tool for detecting ankyloglossia in newborns? *International Journal of Paediatric Dentistry*, 28(4), 380–389. <https://doi.org/10.1111/ipd.12369>.
- Caloway, C., Hersh, C. J., Baars, R., Sally, S., Diercks, G., Hartnick, C. J. (2019). Association of feeding evaluation with frenotomy rates in infants with breastfeeding difficulties. *JAMA Otolaryngology–Head & Neck Surgery*, 145(9), 817. <https://doi.org/10.1001/jamaoto.2019.1696>.
- Campanha, S. M. A., Martinelli, R. L. de C., Palhares, D. B. (2019). Association between ankyloglossia and breastfeeding. *CoDAS*, 31(1), e20170264, 1–7. <https://doi.org/10.1590/2317-1782/20182018264>.
- Castro Martinelli, R. L. de, Marchesan, I. Q., Gusmão, R. J., Castro Rodrigues, A. de, Berretin-Felix, G. (2014). Histological characteristics of altered human lingual frenulum. *International Journal of Pediatrics and Child Health*, 2(1), 5–9. <https://doi.org/10.12974/2311-8687.2014.02.01.2>.
- Douglas, P. S. (2013). Rethinking “Posterior” Tongue-Tie. *Breastfeeding Medicine*, 8(6), 503–506. <https://doi.org/10.1089/bfm.2013.0103>.
- Francis, D. O., Krishnaswami, S., McPheeters, M. (2015). Treatment of ankyloglossia and breastfeeding outcomes: A systematic review. *Pediatrics*, 135(6), e1458–e1466. <https://doi.org/10.1542/peds.2015-0658>.
- Ghaheri, B. (2014, 23 marca). *Rethinking tongue tie anatomy: Anterior vs posterior is irrelevant*. <https://www.drghaheri.com/blog/2014/3/22/rethinking-tongue-tie-anatomy-anterior-vs-posterior-is-irrelevant>.
- Gwóźdz-Jezierska, M., Bielecki, I. (2022). The current knowledge about ankyloglossia. *Polski Przegląd Otorinolaryngologiczny*, 11(3), 39–44. <https://doi.org/10.5604/01.3001.0015.9953>.
- Hatami, A., Dreyer, C. W., Meade, M. J., Kaur, S. (2022). Effectiveness of tongue-tie assessment tools in diagnosing and fulfilling lingual frenectomy criteria: A systematic review. *Australian Dental Journal*, 67(3), 212–219. <https://doi.org/10.1111/adj.12921>.
- Hazelbaker, A. K. (2017). Assessment tool for lingual frenulum function (ATLFF). *Clinical Lactation*, 8(3), 132–133. <https://doi.org/10.1891/2158-0782.8.3.132>.
- Kapoor, V., Douglas, P. S., Hill, P. S., Walsh, L. J., Tennant, M. (2018). Frenotomy for tongue-tie in Australian children, 2006–2016: An increasing problem. *Medical Journal of Australia*, 208(2), 88–89. <https://doi.org/10.5694/mja17.00438>.
- Marchesan, I. (2012). Lingual frenulum protocol. *International Journal of Orofacial Myology*, 38(1), 89–103. <https://doi.org/10.52010/ijom.2012.38.1.7>.
- Messner, A. H., Walsh, J., Rosenfeld, R. M., Schwartz, S. R., Ishman, S. L., Baldassari, C., Brietzke, S. E., Darrow, D. H., Goldstein, N., Levi, J., Meyer, A. K., Parikh, S., Simons, J. P., Wohl, D. L., Lambie, E., Satterfield, L. (2020). Clinical consensus statement: Ankyloglossia in children. *Otolaryngology–Head and Neck Surgery*, 162(5), 597–611. <https://doi.org/10.1177/0194599820915457>.
- Mills, N., Geddes, D. T., Amirapu, S., Mirjalili, S. A. (2020). Understanding the lingual frenulum: Histological structure, tissue composition, and implications for tongue tie surgery. *International Journal of Otolaryngology*, 1820978, 1–12. <https://doi.org/10.1155/2020/1820978>.
- Mills, N., Keough, N., Geddes, D. T., Pransky, S. M., Mirjalili, S. A. (2019). Defining the anatomy of the neonatal lingual frenulum. *Clinical Anatomy*, 32(6), 824–835. <https://doi.org/10.1002/ca.23410>.
- Mills, N., Pransky, S. M., Geddes, D. T., Mirjalili, S. A. (2019). What is a tongue tie? Defining the anatomy of the in-situ lingual frenulum. *Clinical Anatomy*, 32(6), 749–761. <https://doi.org/10.1002/ca.23343>.

- Netter, F. H. (2020). *Atlas of Human Anatomy*. S. A. Spillane (ed.). Ed. 3. Elsevier Urban & Partner.
- O'Connor, M. E., Gilliland, A. M., LeFort, Y. (2022). Complications and misdiagnoses associated with infant frenotomy: Results of a healthcare professional survey. *International Breastfeeding Journal*, 17(1), 39. <https://doi.org/10.1186/s13006-022-00481-w>.
- Obladen, M. (2010). Much ado about nothing: Two millenia of controversy on tongue-tie. *Neonatology*, 97(2), s. 83–89. <https://doi.org/10.1159/000235682>.
- Obladen, M. (2021). *Oxford textbook of the newborn: A cultural and medical history*. Oxford University Press.
- O'Shea, J. E., Foster, J. P., O'Donnell, C. P., Breathnach, D., Jacobs, S. E., Todd, D. A., Davis, P. G. (2017). Frenotomy for tongue-tie in newborn infants. *Cochrane Database of Systematic Reviews*, 3, CD011065. <https://doi.org/10.1002/14651858.cd011065.pub2>.
- Ostapiuk B. (2005). Logopedyczna ocena ruchomości języka. In: M. Młynarska, T. Smereka (eds.), *Logopedia. Teoria i praktyka* (pp. 299–306). Agencja Wydawnicza a linea.
- Ostapiuk, B. (2006). Poglądy na temat ruchomości języka w ankyloglosji a potrzeby artykulacyjne. *Annales Academiae Medicae Stetinensis*, 52 (Supl. 3), 37–47.
- Ostapiuk, B. (2008). Standard postępowania w dyslalii ankyloglosyjnej. *Logopedia*, 38, 141–166.
- Ostapiuk, B. (2013). *Dyslalia ankyloglosyjna. O krótkim wędzidełku języka, wadliwej wymowie i skuteczności terapii*. Wydawnictwo Naukowe Uniwersytetu Szczecińskiego.
- Pluta-Wojciechowska, D., Sambor, B. (2016). O różnych typach skróconych wędzidełek języka, ich ocenie i interpretacji wyników badań w logopedii. *Logopedia*, 45, 123–155.
- Ruffoli, R., Giambelluca, M., Scavuzzo, M., Bonfigli, D., Cristofani, R., Gabriele, M., Giuca, M., Giannesi, F. (2005). Ankyloglossia: A morphofunctional investigation in children. *Oral Diseases*, 11(3), 170–174. <https://doi.org/10.1111/j.1601-0825.2005.01108.x>.
- Van Biervliet, S., Van Winckel, M., Vande Velde, S., De Bruyne, R., D'Hondt, M. (2020). Primum non nocere: Lingual frenotomy for breastfeeding problems, not as innocent as generally accepted. *European Journal of Pediatrics*, 179(8), 1191–1195. <https://doi.org/10.1007/s00431-020-03705-5>.
- Walsh, J., Links, A., Boss, E., Tunkel, D. (2017). Ankyloglossia and lingual frenotomy: National trends in inpatient diagnosis and management in the United States, 1997–2012. *Otolaryngology–Head and Neck Surgery*, 156(4), 735–740. <https://doi.org/10.1177/0194599817690135>.
- Zaghi, S., Shamtoob, S., Peterson, C., Christianson, L., Valcu-Pinkerton, S., Peeran, Z., Fung, B., Kwok-keung Ng, D., Jagomagi, T., Archambault, N., O'Connor, B., Winslow, K., Lano, M., Murdock, J., Morrissey, L., Yoon, A. (2021). Assessment of posterior tongue mobility using lingual-palatal suction: Progress toward a functional definition of ankyloglossia. *Journal of Oral Rehabilitation*, 48, 692–700. <https://doi.org/10.1111/joor.13144>.
- Żukowska-Rubik, M., Jasińska, K., Raczek-Pakuła, K., Nehring-Gugulska, M., Castello-Rokicka, M. (2019). Frenotomia u noworodków i niemowląt – przegląd aktualnej literatury i propozycja zaleceń. *Standardy Medyczne/Pediatrica*, 16, 188–200.
- Żukowska-Rubik, M., Nehring-Gugulska, M. (ed.) (2021). *Stanowisko Centrum Nauki o Laktacji w sprawie wskazań do podcinania wędzidełka języka (frenotomii) u noworodków i niemowląt*. Centrum Nauki o Laktacji. Document, December 6, 2021. https://cnol.kobiety.med.pl/wp-content/uploads/2021/12/Stanowisko-CNoL_WJ_2021.pdf.

Agnieszka Jarzyńska – PhD(hum), specialist in neuro-speech therapy, speech therapy, Polish philologist. Assistant Professor at the Faculty of Speech Therapy IWRCE, Maria Grzegorzewska Academy of Special Education in Warsaw, consultant at the Department of Neonatology and Intensive Newborn Therapy at the Institute of Mother and Child in Warsaw.

ajarzynska@aps.edu.pl

Barbara Sambor – PhD(hum), media speech therapist, neuro-speech therapist, senior lecturer at the Acting Faculty of the St. Wyspiański Academy of Theatre Arts in Krakow. Her scientific interests include research on the physiology and pathophysiology of the masticatory system and neurogenic speech disorders.

sambor.logopedia@gmail.com



AGNIESZKA JARZYŃSKA

Akademia Pedagogiki Specjalnej im. Marii Grzegorzewskiej w Warszawie
Polska

<https://orcid.org/0000-0003-4797-3195>

BARBARA SAMBOR

Akademia Sztuk Teatralnych im. S. Wyspiańskiego w Krakowie
Polska

<https://orcid.org/0000-0002-5777-1688>

Trudności w ocenie wędzidełka języka – próba podsumowania obecnego stanu wiedzy*

Problems with the lingual frenulum diagnosis – a narrative review

ABSTRACT: This article aims to systematize contemporary scientific knowledge regarding the diagnosis of tongue-tie (ankyloglossia). The authors conducted a comprehensive review of the English-language literature in search of answers to questions commonly faced by speech therapy practitioners in their everyday practice. Case studies and publications with low levels of scientific evidence were excluded from the review. The analysis revealed how many crucial questions remain unanswered and highlighted the lack of scientifically validated information that can be used in accordance with evidence-based practice.

KEYWORDS: ankyloglossia, tongue-tie, lingual frenulum, frenulotomy, frenectomy

STRESZCZENIE: W artykule podjęto próbę usystematyzowania współczesnej wiedzy naukowej dotyczącej problematyki diagnozowania skróconego wędzidełka języka. Autorki dokonały szerokiego przeglądu anglojęzycznego piśmiennictwa w poszukiwaniu odpowiedzi na pytania nurtujące logopedów praktyków w codziennej pracy (z przeglądu literatury wykluczono studia przypadków oraz publikacje o niskim poziomie dowodu naukowego). Analiza wykazała, jak wiele niezwykle ważnych pytań pozostaje bez odpowiedzi i jak mało mamy potwierdzonych naukowo informacji, które można wykorzystać w postępowaniu zgodnie z zasadami praktyki opartej na dowodach (*evidence-based practice*).

SŁOWA KLUCZOWE: ankyloglosja, wędzidełko języka, frenulotomia, frenektomia

Ocena wędzidełka języka jest przedmiotem analiz i dociekań nie tylko specjalistów: logopedów, fizjoterapeutów, stomatologów i ortodontów, neonatologów, doradców laktacyjnych, laryngologów, badaczy zajmujących się przestrzenią ustno-twarzową – lecz także rodziców małych pacjentów i samych pacjentów.

* Badania zostały przeprowadzone w ramach grantu wewnętrznego Akademii Pedagogiki Specjalnej im. Marii Grzegorzewskiej w Warszawie (nr BNS 48/24-P).

W ostatnich kilkudziesięciu latach poglądy dotyczące oceny wędzidełka języka w piśmiennictwie polskim i światowym zmieniały się diametralnie – od całkowitego ignorowania tego zjawiska aż po widoczną w ostatnich latach tendencję do nadrozpoznawania ankyloglosji, a w konsekwencji kierowania bardzo wielu pacjentów, szczególnie noworodków i niemowląt, na zabiegi chirurgiczne (np. Caloway i in., 2019; Żukowska-Rubik i Nehring-Gugulska, oprac., 2021).

Na przestrzeni ostatnich kilkudziesięciu lat ankyloglosja była zatem najpierw ignorowana, następnie traktowana jako zjawisko marginalne, w kolejnych latach zaś możliwe było zaobserwowanie dwóch zaangażowanych grup – zagorzałych zwolenników i zdecydowanych przeciwników przecinania wędzidełka języka. Pomiędzy nimi znajduje się – można odnieść takie wrażenie – większość logopedów, poszukujących odpowiedzi na pytania: jak postępować w praktyce? Czym się kierować w stawianiu diagnozy? Czy wiedza o tym, czym jest ankyloglosja, jest wystarczająca i oparta na badaniach naukowych? Czy logopeda ma prawo wyrażać swoje zdanie co do wyboru metody i zakresu zabiegu? Jaki powinien być standard opieki przed zabiegiem i po zabiegu frenulotomii i frenektomii? Kto jest odpowiedzialny za opracowanie tkanek przed zabiegiem i po nim? Jak daleko sięga rola lekarza, a jak daleko rola logopedy?

Odnieść można wrażenie, że obecnie większość problemów związanych z niepowodzeniami w karmieniu piersią, trudnościami na etapie rozszerzania diety, rozwojem wad zgryzu i zaburzeń artykulacyjnych przypisuje się skróconemu wędzidełku języka, mniej uwagi poświęcając analizie zaburzonych funkcji (w tym posturalnych, oddechowych i trawiennych), nieprawidłowych reakcji oralnych, zaburzeń napięcia w przestrzeni ustno-twarzowej czy wpływu sensoryki jamy ustnej – które mogą, lecz nie muszą być powiązane z ankyloglosją. Częstość wykonywania zabiegu wzrosła w ostatnich latach na świecie kilkudziesięciokrotnie, np. w badaniach z Australii mowa o wzroście o 3500% (Kapoor i in., 2018), w USA natomiast liczba zabiegów wzrosła dziesięciokrotnie w latach 1997–2012 (Walsh i in., 2017). W tym czasie w Polsce także wyraźnie zwiększyła się liczba kierowanych na konsultacje dzieci z podejrzeniem skróconego wędzidełka². Rezerwowanie przez rodziców miejsca na zabieg podcięcia wędzidełka języka jeszcze przed narodzinami dziecka nie jest obecnie rzadkością.

Na podstawie wyników badań można wysnuć wniosek, że ankyloglosja występuje u 3,8–10% (Messner i in., 2020) lub 0,02–12% (O'Connor i in., 2022) światowej populacji – rozbieżność danych statystycznych wynika z przyjęcia różnych kryteriów oceny z wykorzystaniem różnych skal i protokołów do oceny wadliwej

² Potwierdzają to np. dane z 2019 roku ilustrujące zwiększenie częstotliwości zabiegów frenotomii wykonanych u noworodków w Poradni Laktacyjnej Centrum Medycznego „Żelazna” w latach 2008–2018. W 2008 roku wizyty z zabiegiem stanowiły 1% ogółu wizyt, w 2018 już 15% (Żukowska-Rubik i in., 2019).

budowy języka, natomiast źródłem tych szacunków są badania prowadzone wśród noworodków. Co istotne, autorki niniejszego artykułu nie natrafiły na pracę badawczą określającą normę populacyjną. Jaka jest zatem normatywna budowa języka? Jaki procent populacji ma poprawnie zbudowany język? Podawana przez różnych badaczy częstość występowania ankyloglosji uzależniona jest nie tylko od zastosowanej skali oceny, lecz także od doboru grupy (np. pacjenci gabinetu logopedycznego, studenci, noworodki; do tej pory nie wykonano przekrojowych badań opisowych dotyczących pacjentów z ankyloglosją). Można więc powiedzieć, że badacze i praktycy intensywnie szukają sposobu, by wykryć nieprawidłowości w budowie języka, nie ma jednak ugruntowanej definicji prawidłowej budowy wędzidełka języka, a dotychczasowe sprzeczne doniesienia wymagają przeprowadzenia dalszych, obiektywnych badań.

W wielu atlasach anatomicznych znajdujemy obrazy języka ukazujące ograniczenie jego ruchomości, a definicje samego wędzidełka są bardzo zróżnicowane. W ostatnich latach, szczególnie na bazie odkryć anatomów oraz na podstawie metaanaliz badań naukowych, pojawiają się coraz liczniejsze głosy, że w wiedzy na temat budowy dna jamy ustnej i języka są istotne luki. Badacze formułują także wątpliwości dotyczące poprawnej oceny stanu wędzidełka, np. *posterior tongue-tie*, czyli „tylnego” wędzidełka języka, pytania co do stosowania popularnych, acz niewalidowanych skal i klasyfikacji czy też rosnącej nadrozpoznawalności ankyloglosji, wskazań do wykonania zabiegu, doboru metody interwencji chirurgicznej i postępowania pozabiegowego (m.in. Binti Zaaba, 2021; Hatami i in., 2022; Mes-sner i in., 2020; Mills, Keough i in., 2019; Mills, Pransky i in., 2019; Van Biervliet i in., 2022; Żukowska-Rubik i Nehring-Gugulska, oprac., 2021).

Choć frenotomia jest procedurą generalnie uważaną za bezpieczną, w niektórych przypadkach obserwuje się konieczność jej powtórzenia, a także tendencje do bliznowacenia lub sklejanie tkanek, np. po zabiegach laserowych (por. np. Binti Zaaba, 2021). Autorki spotkały się również (we własnej praktyce) z rzadkimi przypadkami uszkodzenia nerwu językowego po zabiegu frenuloplastyki czy masywnego, wymagającego hospitalizacji krwawienia w pierwszej dobie po zabiegu. O'Connor i in. (2022) piszą o wysokim odsetku ponownych zabiegów i komplikacji raportowanych przez lekarzy pediatrów; najczęstszymi obserwowanymi powikłaniami były: awersja oralna, nadwrażliwość w obrębie jamy ustnej i niechęć do jedzenia u dzieci. Praktyka autorek tego tekstu wskazuje, że opisane sytuacje zdarzają się niezwykle rzadko, skala powikłań nie jest jednak dokładnie znana – nie ma bowiem pełnych danych pozwalających wyłonić pacjentów z grupy ryzyka choćby bliznowacenia pozabiegowego. Co niepokojące, w wywiadzie rodzice małych pacjentów coraz częściej deklarują, że zdecydowali się na przecięcie wędzidełka u dziecka „na wszelki wypadek”: w celu usprawnienia karmienia piersią, zniwelowania zaburzeń artykulacji, profilaktyki wad zgryzu. W kontrze do tych argumentów należy zaznaczyć, iż w dalszym ciągu zdarzają się jednak przypadki

ankyloglosji nierozpoznanej, np. wieloletniej terapii rotacyzmu prowadzonej mimo niemożności prawidłowego wzniesienia szerokiego języka.

Obecnie w USA większość naukowców nie popiera idei wczesnego, prewencyjnego wykonywania zabiegu podcięcia wędzidełka języka (Messner i in., 2020). Zgola inne stanowisko reprezentują badacze brazylijscy, którzy podkreślają, że wykonanie zabiegu frenotomii do 5. roku życia dziecka umożliwia uzyskanie normatywnej wymowy bez konieczności terapii logopedycznej (badania przeprowadzono na podstawie analizy artykulacji języka portugalskiego), a po 5. roku życia wzrasta ryzyko utrwalenia złych nawyków i kompensacji, które mogą skutkować koniecznością wdrożenia leczenia chirurgiczno-logopedyczno-ortodontycznego (Alves i in., 2018).

Specjaliści mają prawo oczekiwać jasno i szczegółowo opracowanych wytycznych w zakresie wskazań do przecięcia wędzidełka, a także samego zabiegu i standardów postępowania przed- i pozabiegowego. Zadaniem nauki jest te odpowiedzi dostarczyć, zgodnie z duchem *evidence-based practice*.

W niniejszej pracy autorki starają się przybliżyć obecny stan badań nad ankyloglosją. Celem analizy jest zestawienie kluczowych pytań dotyczących ankyloglosji z odpowiedziami uzyskanymi na podstawie przeglądu wyników badań naukowych o wysokim stopniu dowodu naukowego. Analizie poddano anglojęzyczne publikacje z lat 2019–2023. Korzystano przy tym z bazy PubMed – wpisano słowa klucze *tongue tie* (232 wyniki) oraz *ankyloglosja* (212 publikacji). Z przeglądu wykluczono studia przypadków oraz doniesienia o niskim poziomie dowodu naukowego (oparte na analizie małej grupy badanych, takie, w których brak grupy kontrolnej lub/i analiz statystycznych, badania ankietowe, prace zawierające błędy metodologiczne). W doborze literatury preferowano publikacje o charakterze metaanalizy, przeglądu systematycznego oraz zawierające wyniki badań randomizowanych. Z pozyskanych wyników ostatecznie wybrano 16 publikacji (Arena i in., 2022; Binti Zaaba, 2021; Borowitz, 2023; Caloway i in., 2019; Campanha i in., 2019; Gwóźdź-Jezierska i Bielecki, 2022; Hatami i in., 2022; Messner i in., 2020; Mills i in., 2020; Mills, Keough i in., 2019; Mills, Pransky i in., 2019; Obladen, 2021; O'Connor i in., 2022; Van Biervliet i in., 2020; Zaghi i in., 2021; Żukowska-Rubik i in., 2019) spełniających kryteria i odpowiadających tematycznie na postawione przez autorki pytania: czym w rzeczywistości jest wędzidełko języka? Czy istnieje tylne wędzidełko języka? Czy istnieje obiektywna, zwalidowana i wystandaryzowana skala do oceny wędzidełka języka u dzieci/dorosłych? Jakie objawy mogą powodować błędne rozpoznanie ankyloglosji? Czy istnieją dowody na większą skuteczność którejś z metod chirurgicznych i sposób jej dopasowania do budowy wędzidełka języka / wieku pacjenta / rodzaju obserwowanych zaburzeń funkcjonalnych? Czy istnieją procedury postępowania pozabiegowego, których skuteczność jest poparta badaniami naukowymi?

Autorki zdają sobie sprawę, że zaprezentowany dobór pytań jest subiektywny oraz że na większość z nich prawdopodobnie nie ma na razie jednoznacznej odpowiedzi, analiza stanu badań naukowych pozwala jednak określić, które stwierdzenia dotyczące ankyloglosji mają silne podstawy naukowe, a które wymagają dalszych badań lub zostały już podważone. Poznanie i omówienie wątpliwości pozwoli nie tylko nam – jak wierzymy – podejmować lepsze decyzje w opiece nad pacjentem.

Stan badań anatomicznych nad wędzidełkiem języka

Stan badań nad ankyloglosją, mimo wciąż powiększającej się bazy publikacji, jest, mówiąc najdelikatniej, niewystarczający. Należy zacząć od podkreślenia kwestii najważniejszej: braku dostatecznego zdefiniowania struktury, którą nazywa się po łacinie *lingual frenulum*, czyli wędzidełko języka. Nie istnieje również do tej pory żadne badanie określające w rzetelny sposób częstość występowania ankyloglosji, czy też wyznaczające normę populacyjną.

W publikacjach medycznych wędzidełko określane jest bardzo ogólnie – jako fałd łączący język z dnem jamy ustnej. W *Anatomii człowieka* autorstwa Adama Bochenka i Michała Reichera znajdziemy krótką informację, iż jest to fałd błony śluzowej, który przyczepia się na dnie jamy ustnej pomiędzy warstwami mięska podjęzykowego (Bochenek i Reicher, 2014). Autor *Atlasu głowy i szyi* Frank Henry Netter (2020) podaje z kolei, że jest to „pośrodkowy fałd tkankowy umieszczony na postawie języka i rozszerza się wzdłuż dolnej powierzchni języka” (s. 375).

Pierwsze badania histologiczne wędzidełka języka przeprowadził w 1966 roku Walter Fuchs, bazując na wycinkach pobranych ze zwłok osób dorosłych. Wyniki tych badań w świetle dzisiejszej wiedzy raczej uznać trzeba za błędne, prawdopodobnie z powodu nieprawidłowego pobrania wycinków – napisano, że wędzidełko języka pokryte jest nabłonkiem płaskim (takim samym, jaki pokrywa język).

Kilkadziesiąt lat później, w 2014 roku, w badaniach prowadzonych przez Robertę Castro Martinelli i in. (2014) oceniano budowę preparatów pobranych z wyciętych tkanek wędzidełka, pozyskanych od 8 dzieci poniżej 4. roku życia z diagnozą nieprawidłowej budowy wędzidełka języka; oceny tkanek dokonano na podstawie protokołu Irene Queiroz Marchesan (2012). W materiale w kilku wędzidełkach zidentyfikowano włókna mięśni szkieletowych³, natomiast we wszystkich – włókna kolagenowe typu I (nierozciągliwe) oraz typu III (te ostatnie jedynie w pobliżu

³ Badacze określili typy badanych skróconych wędzidełek jako: ankyloglosja, krótkie wędzidełko, krótkie wędzidełko z przednim przyczepem, wędzidełko przednie (Castro Martinelli i in.,

nabłonka i naczyń krwionośnych). Z uzyskanych przez badaczy wyników można wnioskować o prawdopodobnym podobieństwie pomiędzy strukturą wędzidełka języka a budową więzadeł w ludzkim organizmie.

Tymczasem wyniki nowszych badań histologicznych przeprowadzonych przez Nikki Mills z zespołem sugerują coś zupełnie odmiennego: według tych badaczy wędzidełko jest prawdopodobnie fałdem powięzi dna jamy ustnej ułożonym w płaszczyźnie strzałkowej, uwidaczniającym się przy uniesieniu języka (Mills i in., 2020; Mills, Pransky i in., 2019). Badania te mogą okazać się przełomowe, przynoszą bowiem odmienne od dotychczasowych doniesienia i wpływają na zmianę sposobu myślenia o skróconym wędzidełku języka.

Autorzy (Mills i in., 2020; Mills, Keough i in., 2019; Mills, Pransky i in., 2019) przeprowadzili wnikliwe analizy struktur podjęzykowych na podstawie tkanek pobranych od osób zmarłych (w jednym badaniu – dzieci urodzonych przedwcześnie, między 23. a 30. tygodniem ciąży, w drugim – seniorów, w średnim wieku 72 lat). Warto zaznaczyć, iż w tym badaniu nie pobierano jedynie wycinków samego wędzidełka, lecz całość otaczających fałd struktur – język, trzon żuchwy, dno jamy ustnej. Należy tu od razu wskazać pewne ograniczenia badania – tkanki pobrane od dzieci (urodzonych przedwcześnie, między 23. a 30. tygodniem ciąży) nie były dojrzałe i poddane fizjologicznemu przebiegowi funkcji, z kolei w odniesieniu do osób starszych nie było wiedzy o wcześniejszym przebiegu funkcji prymarnych, budowie zgryzu badanych itp. Zwraca też uwagę mała liczba próbek – tkanki pobrano od 4 dzieci i 13 dorosłych. Jest mało prawdopodobne, by tak niewielka próba pozwoliła na określenie wszystkich możliwych różnic w budowie dna jamy ustnej i wyznaczenie normy anatomicznej. Autorzy wyszczególnili jednak następujące, wspólne dla wszystkich badanych (zarówno wcześniaków, jak i osób dorosłych), informacje anatomiczne dotyczące wędzidełka języka i jego okolic:

- powięź dna jamy ustnej rozciąga się od wewnętrznej powierzchni trzonu żuchwy do tkanki łącznej na wewnętrznej powierzchni języka;
- powięź ta stanowi warstwę stabilizującą język i dającą mu podparcie;
- wędzidełko języka to fałd powięzi dna jamy ustnej, powięź ta jest mobilizowana poprzez uniesienie języka (fałd wędzidełka ujawnia się podczas ruchu) – stan powięzi, jej usytuowanie i wymiary determinują możliwość uniesienia języka, stanowią o możliwym do uzyskania zakresie ruchów;
- „przyczep górny” wędzidełka to najwyżej położone miejsce kontaktu powięzi dna jamy ustnej z wentralną powierzchnią języka;
- „przyczep dolny” wędzidełka to miejsce kontaktu powięzi z wyrostkiem zębodołowym żuchwy;

2014). Nikki Mills, Natalie Keough i in. (2019) podają te badania w wątpliwość, twierdząc, że mogło dojść do przypadkowego przecięcia włókien mięśniowych i zanieczyszczenia próbki.

- „grubość i przezierność fałdu wędzidełka zależy od tego, jak warstwy powięziowe i śluzówkowe formują fałd, przesuwając się względem siebie, a także od tego, na jakiej wysokości śluzówka, powięź i mięsień bródkowo-językowy są organizowane w fałd wędzidełka. [...] grubość lub objętość wędzidełka jest również kreowana poprzez wysokość, na której m. bródkowo-językowy jest zawieszony pod powierzchnią powięziową. [...] Ta szczególna zmienność morfologii zwiększa ryzyko przypadkowego przecięcia włókien mięśnia bródkowo-językowego podczas frenotomii. Najprawdopodobniej to włókna mięśniowe, które zostały zidentyfikowane w analizie histologicznej podczas biopsji wędzidełka wykonanej przez Martinelli z zespołem w 2014 roku”⁴ (Mills, Keough i in. 2019, s. 9);
- fałd wędzidełka był obecny niezależnie od wieku badanych osób, autorzy sugerują zatem, iż jest to normalna budowa anatomiczna ze zróżnicowaną osobniczo morfologią występującą w szerokim spektrum cech osobniczych (Mills, Pransky i in., 2019).

Podkreśla się w tych badaniach, że wiele czynników warunkuje wygląd wędzidełka (Ruffoli i in., 2005); negowana jest przy tym przydatność dotychczasowych skal do oceny wędzidełka języka, badacze twierdzą bowiem, że oceniają one jedynie wygląd wędzidełka i nie mogą służyć do diagnozy ankyloglosji. Dodają, iż „umieszczenie przyczepu fałdu na wentralnej powierzchni języka może być jedynie rozpatrywane jako część układanki, w której nadal brakuje nam wielu elementów” (Mills, Pransky i in., 2019, s. 9). Podważają istnienie wędzidełka rozumianego jako jednolite więzadło występujące w postaci „nici”, „struny” czy też „pasma”, sugerując, iż w rzeczywistości mamy do czynienia z dynamicznie formowanym fałdem powięzi; jednocześnie negują występowanie „tylnego” wędzidełka języka (tzw. typu 4 w skali Coryloss). Ponadto wskazują na brak badań dotyczących skuteczności interwencji chirurgicznej oraz jej wpływu na warunki panujące w jamie ustnej u pacjentów z tzw. tylnym wędzidełkiem języka (Douglas, 2013; Ghaheri, 2014). Sugerują jednocześnie odmienne wy tłumaczenie istoty wędzidełka dla wędzidełek typu 3 w skali Coryloss – odnotowują różnice w usytuowaniu położonych w linii pośrodkowej przyczepów powięzi dna jamy ustnej (według autorów chodzi tu o niższe usytuowanie przyczepu powięziowego, nie o odmienność w organizacji samego fałdu). Mills, Keough i in. (2019) oraz Mills, Pransky i in. (2019) podkreślają konieczność prowadzenia dalszych badań.

Niezależnie od zastrzeżeń, które mogą się pojawiać po przeprowadzeniu analizy metodologii badań (w tym doboru próby), badania Mills, Keough i in. (2019) oraz Mills, Pransky’ego i in. (2019) odmieniły dotychczasowe myślenie o wędzidełku języka, podano bowiem w wątpliwość większość dotychczas przyjmowanych założeń i stosowanych klasyfikacji.

⁴ Jeśli nie zaznaczono inaczej, przekład fragmentów – A.J., B.S.

Wiarygodność skal do oceny wędzidełka języka

W literaturze funkcjonuje wiele definicji ankyloglosji oraz opisane są różne metody oceny i klasyfikacji nieprawidłowej budowy języka. Naukowcy i klinicyści oceniają wędzidełko języka w sposób subiektywny, co sprawia, że do dziś nie wypracowano spójnego stanowiska opartego na wiedzy naukowej. W nomenklaturze medycznej skrócone wędzidełko rozpatruje się głównie w aspekcie anatomicznym, logopedzi zazwyczaj traktują ankyloglosję przede wszystkim przez pryzmat oceny funkcji języka, jedną z możliwych przyczyn powstawania dysfunkcji w obrębie układu ruchowego narządu żucia czy występowania trudności artykulacyjnych.

Żadna z wykorzystywanych na świecie skal do oceny wędzidełka języka nie została w sposób wiarygodny wystandaryzowana i zwalidowana (zob. Arena i in., 2022; Brandão i in., 2018; Hatami i in., 2022). W badaniu wędzidełka dokonuje się pomiarów wolnej części języka, długości wędzidełka, ocenia się miejsca jego przyczepów, wygląd i funkcjonalność języka wraz z możliwością jego wzniesienia do pozycji wertykalno-horyzontalnej (Pluta-Wojciechowska i Sambor, 2016; Zaghi i in., 2021). W przypadku niemowląt karmionych piersią pod uwagę bierze się dodatkowo problemy zgłaszane przez matkę (Campanha i in., 2019; Nehring-Gugulska i in., 2014; Obladen, 2010, 2021). Dokładne omówienie różnych kryteriów i sposobów oceny wędzidełka języka można odnaleźć m.in. w opracowaniach Barbary Ostapiuk (2005, 2006, 2013), Danuty Pluty-Wojciechowskiej i Barbary Sambor (2016), Małgorzaty Gwóźdź-Jeziarskiej i Ireneusza Bieleckiego (2022).

Mnogość narzędzi zamiast porządkować wiedzę rodzi chaos, a stawiane diagnozy niejednokrotnie wzajemnie się wykluczają. Amir Hatami i in. (2022) dokonali systematycznego przeglądu piśmiennictwa z lat 1947–2021 (dostępnego w bazach: PubMed, Embase, Cochrane) i wybrali prace dotyczące diagnozy i leczenia ankyloglosji u pacjentów pediatrycznych (Hazelbaker, 2017). W wybranych publikacjach opisana diagnoza wędzidełka języka odbywała się z wykorzystaniem trzech popularnych skal: Coryloss, Hazelbaker, Ktlow, a autorzy przeglądu postawili sobie za cel sprawdzenie, czy narzędzia te są wiarygodne w ocenie wędzidełka języka. W opinii badaczy oceniane prace są bardzo różnorodne, a większość badań nie spełnia założonych standardów (autorzy wybrali prace spełniające wymagania dotyczące m.in. czwartego poziomu ważności dowodu naukowego według Oxford oraz zastosowali kwestionariusz Briggs do oceny prac naukowych, aby sprawdzić ich rzetelność i uniknąć stronniczości). Większość prac (aż 180 z 205!) nie spełniała kryteriów. Ostatecznie oceniono więc 14 prac, w których badanych było łącznie 1145 osób.

Amir Hatami i in. (2022) nie odnotowali istotnych korelacji pomiędzy rodzajem skali zastosowanej do diagnozy a skutecznością wykonanego zabiegu. Pomimo

iż procedury uwolnienia wędzidełka wydają się przynosić korzyści w zakresie karmienia piersią i terapii mowy, to nie ma danych sugerujących statystycznie istotne powiązania pomiędzy stanem wędzidełka a poprawnym rozpoznaniem pacjentów, którzy odniosą korzyści z zabiegu.

Skrócone wędzidełko języka – czy mamy konsensus?

W 2020 roku grupa ekspertów złożona z reprezentantów amerykańskich organizacji laryngologicznych podejmowała decyzje co do poparcia lub odrzucenia (na bazie stanu badań naukowych oraz poziomu dowodu naukowego) wybranych 89 stwierdzeń dotyczących m.in. ogólnych przekonań o ankyloglosji, wpływu ankyloglosji na występowanie problemów z karmieniem oraz bezdechu sennego, metod wykonywania zabiegów chirurgicznych, rehabilitacji pozabiegowej, procedur postępowania z wędzidełkami policzkowymi oraz wargi górnej (Messner i in., 2020).

Kryterium prawdziwości spełniało – zdaniem ekspertów – 48% poddawanych ocenie stwierdzeń. Najważniejsze z nich to:

- ankyloglosja to anomalia w budowie anatomicznej języka, ograniczająca jego ruchomość;
- w części społeczeństw ankyloglosja w populacji niemowląt i dzieci jest nadrozpoznawana, co oznacza, że wiele wykonywanych zabiegów frenulotomii jest zbędnych;
- nie ma zgody na wykonywanie frenotomii w przypadku tzw. tylnych wędzidełek języka;
- ankyloglosja jest potencjalnym czynnikiem wystąpienia/nasilenia się trudności w ssaniu (może też jednak współwystępować z innymi czynnikami generującymi problemy podczas karmienia piersią);
- przed frenotomią noworodek z trudnościami w pobieraniu pokarmu powinien zostać zdiagnozowany pod kątem innych potencjalnych przyczyn problemu, takich jak niedrożność górnych dróg oddechowych, refluks krtańowo-gardłowy i wady twarzoczaszki; ankyloglosję u niemowlęcia należy oceniać w kontekście dokładnie zebranego wywiadu lekarskiego (w tym laktacyjnego) oraz badania fizykalnego obejmującego także palpację; rozpoznanie ankyloglosji u niemowlęcia mającego trudności ze ssaniem piersi wymaga wykonania frenotomii najszybciej, jak to możliwe;
- ankyloglosja nie powoduje bezdechu sennego;
- chirurgiczne uwalnianie tzw. wędzidełek policzkowych nie powinno być wykonywane;

- frenulotomia może negatywnie wpłynąć na funkcję oddychania u dzieci z wadami twarzoczaszki oraz/lub chorobami nerwowo-mięśniowymi;
- konieczne jest przeprowadzenie randomizowanych badań oceniających wpływ ankyloglosji na zaburzenia mowy i artykulacji, aktualne badania mają bowiem małą wiarygodność; ankyloglosja może powodować trudności w artykulacji oraz utrzymaniu prawidłowej higieny jamy ustnej; może sprzyjać próchnicy zębów;
- pozyskanie zgody na zabieg powinno obejmować informację o możliwym niepowodzeniu w karmieniu piersią i o alternatywie bezzabiegowego postępowania;
- zabieg frenotomii uważa się generalnie za bezpieczny, niosący niewielkie ryzyko poważnych powikłań (rzadkie powikłania po zabiegu to: krwawienie, niedrożność dróg oddechowych, uszkodzenie ślinianek, awersja oralna, trudności z gojeniem rany i bliznowacenie);
- amerykańskie Towarzystwo Otolaryngologii Dziecięcej nie popiera prewencyjnej frenotomii w celu zapobiegania ewentualnym późniejszym następstwom ankyloglosji, np. wadom wymowy i zgryzu;
- nie ma wystarczających dowodów na to, że konkretna technika wykonywania frenotomii przynosi lepsze rezultaty niż inne techniki; nie ma granicznego wieku dla wykonania frenotomii/frenuloplastyki.

W dyskusji eksperci odnotowali brak zwalidowanych narzędzi do oceny wędzidełka języka – w związku z czym nie wskazano preferowanego systemu oceny wędzidełka (podobne zastrzeżenia zgłaszali: Francis i in., 2015; Hatami i in., 2022; O'Shea i in., 2017), a także na niemożność zatwierdzenia wskazań dotyczących tzw. tylnego wędzidełka (brakuje bowiem wystarczających dowodów naukowych na istnienie takiej struktury). Eksperci widzą konieczność prowadzenia badań naukowych dotyczących problematyki wędzidełek języka oraz wargi górnej, a także ustalenia standardu postępowania w przypadku ankyloglosji. Warto zaznaczyć, iż w gronie eksperckim byli członkowie Amerykańskiego Towarzystwa Otolaryngologii, Chirurgii Głowy i Szyi, zatem lekarze otolaryngolodzy i chirurdzy; nie znaleźli się w nim logopedzi, położne, fizjoterapeuci i lekarze innych specjalności (np. ortodonci).

Na luki w wiedzy na temat wędzidełka języka oraz niewystarczający stan badań zwracają też uwagę pediatri. W 2020 roku w „European Journal of Pediatrics” ukazał się artykuł pod znamienym tytułem *Primum non nocere: Lingual frenotomy for breastfeeding problems, not as innocent as generally accepted* (Van Biervliet i in., 2020). Jego autorzy zauważają, że choć częstość wykonywania zabiegów przecinania wędzidełka wzrasta (jak zaznaczają, wędzidełka przecinane są przede wszystkim w krajach wysoko rozwiniętych, w rodzinach dysponujących prywatnym ubezpieczeniem medycznym, głównie dotyczy to pierworodnych dzieci), struktura skróconego wędzidełka, a także jego normatywna budowa nie zostały

jeszcze dokładnie określone (szczególne wątpliwości dotyczą tzw. *posterior tongue-tie* oraz wędzidełka podśluzówkowego – *submucosal tongue-tie*). Przywołują też badania zespołów Nikki Mills (Mills i in., 2020; Mills, Keough i in., 2019; Mills, Pransky i in., 2019) dotyczące roli wędzidełka jako części przepony powięzowej dna jamy ustnej. Zwracają uwagę na dynamiczny charakter struktury, która zmienia się wraz z ruchem języka, jest niezbędna dla stabilności języka w pozycji spoczynkowej i w ruchu. Nie znaleźli również powiązań wędzidełka z tylną częścią języka (podkreślają, że embriologicznie struktury te mają inne pochodzenie).

Jak podają Christen Caloway i in. (2019), wdrożenie interdyscyplinarnej diagnozy spowodowało spadek skierowań na zabieg z 95% do 37%, a większość pacjentów objętych całościową opieką uzyskiwała sukces w karmieniu bez zabiegu – autorzy wnoszą, by zarezerwować zabieg dla tych pacjentów, u których wszelkie inne przyczyny problemów zostały wykluczone.

Dalsze pytania i wątpliwości

Cytowane w niniejszej pracy doniesienia specjalistów różnych dziedzin zdają się najlepszym przykładem na to, iż interdyscyplinarność na etapie diagnozy, ewentualnej terapii, a w razie konieczności – rediagnozy winna być standardem postępowania w ankyloglosji. Nie tylko wówczas, gdy w grę wchodzi skuteczne karmienie piersią, lecz także w przypadku zaburzeń artykulacji, fonacji, wad zgryzu czy postawy. Osiągnięcie konsensusu nie będzie możliwe bez uznania kompetencji wielu specjalistów (logopedów, doradców laktacyjnych, fizjoterapeutów, osteopatów), wchodzących w skład zespołu diagnostycznego.

Na wiele pytań wciąż nie znajdujemy odpowiedzi, np.: dlaczego w ogóle występuje skrócenie wędzidełka języka? Czy jest to wynikiem nieprawidłowego przebiegu apoptozy komórek, czy też odmiennych relacji anatomicznych dotyczących języka i żuchwy, a może skutkiem nieprawidłowości dotyczących napięcia dna jamy ustnej? Jaka jest rola wędzidełka języka w przestrzeni ustno-twarzowej? Czy należy przecinać skrócone włókna mięśnia bródkowo-językowego? Czy można zasugerować pacjentowi po zabiegu fizykoterapię, np. z wykorzystaniem lasera? Czy, a jeśli tak, to kiedy logopeda może wdrożyć manualną terapię blizny, skoro nie ma żadnych doniesień o skuteczności takiej terapii? Czy dieta pacjenta ma znaczenie w procesie gojenia? Pytania można mnożyć, tymczasem uzyskanie na nie odpowiedzi bazujących na dowodach naukowych jest na razie niemal niemożliwe. Rosnąca popularność frenotomii i rozszerzony zakres proponowanych zabiegów powinny nas skłonić do pilnego poznania odpowiedzi na te i dalsze pytania.

Podsumowanie

Analiza wybranego piśmiennictwa z lat 2019–2023 nie przyniosła bezspornych odpowiedzi na postawione pytania. Nie jest do końca jasne, jaką strukturą jest wędzidełko języka. Badacze nie ustalili jednoznacznego stanowiska co do występowania tzw. tylnego wędzidełka języka. Nie wykonano do tej pory badań populacyjnych, które pozwoliłyby określić normatywną budowę wędzidełka języka, a zatem trudno stworzyć obiektywne narzędzie jego oceny, w tym konieczności korekty. Poszczególne skale i klasyfikacje rzadko bywają weryfikowane w wykorzystaniem jednolitej metodologii. Przy rozpoznaniu ankyloglosji nie zawsze brane są pod uwagę możliwe inne przyczyny manifestujące się podobnymi objawami (np. zaburzeniami ssania lub wadą zgryzu). Brakuje również dowodów na większą skuteczność którejs z stosowanych obecnie metod chirurgicznego leczenia ankyloglosji, a także popartych badaniami naukowymi procedur postępowania pozabiegowego – wszelkie zalecenia bazują jedynie na subiektywnych opiniach poszczególnych specjalistów.

Trudno nie odnieść wrażenia, że brak jednolitej klasyfikacji wędzidełek, subiektywność ocen, a w wielu przypadkach uznaniowość kwalifikacji do zabiegu frenotomii znacznie utrudniają możliwość przeprowadzenia wiarygodnych i porównywalnych badań oraz oszacowania częstości występowania ankyloglosji, a co najważniejsze, nie gwarantują pacjentom uzyskania obiektywnej diagnozy i skutecznej terapii.

Mnogość skal do oceny wędzidełka języka sprawia, że ciężko porównywać poszczególne doniesienia badaczy. W praktyce ocena kliniczna według wybranej skali ułatwia podjęcie decyzji o wykonaniu zabiegu, natomiast – co warto zaznaczyć – wedle stanu dzisiejszej wiedzy naukowej będzie to decyzja subiektywna.

Cytowane publikacje mogą budzić zdumienie, wręcz niezgodę logopedów, którzy widzą w swoich gabinetach pacjentów z silnie ograniczoną ruchomością języka, nawracającą jego dysfunkcją, a wciąż zdarza się, że spotykają się z odmową wykonania zabiegu przez lekarzy.

Brak przyjętej definicji i klasyfikacji ankyloglosji sprawia, że porównanie poszczególnych badań jest praktycznie niemożliwe. To samo odnosi się do badań dotyczących interwencji chirurgicznych (jej zasadności i doboru technik) u pacjentów ze skróconym wędzidełkiem języka. Aktualny stan wiedzy uniemożliwia przedstawienie badań jednoznacznie rozstrzygających kwestię interwencji chirurgicznej – na co zwracają uwagę również specjaliści ze środowiska medycznego (Borowitz, 2023; Gwóźdź-Jezińska i Bielecki, 2022; Messner i in., 2020; Żukowska-Rubik i in., 2019).

Wydaje się, że dziś nikt nie dyskutuje już o potrzebie zastosowania interwencji chirurgicznej w przypadku znacznego skrócenia wędzidełka języka lub jego

nieprawidłowej budowy. Czy mamy jednak możliwość wypracowania takich standardów, które – oparte na mocnych dowodach naukowych – ograniczą błędne diagnozy i nadrozpoznawalność ankyloglosji?

Na podstawie przywołanych doniesień można wysnuć kilka wniosków:

- wędzidełko należy oceniać w kontekście ruchu języka, nie jako statyczną strukturę anatomiczną; w ocenie trzeba brać pod uwagę ruchomość bierną i czynną języka, koordynację mięśniówki języka, ale i stan powięzi dna jamy ustnej, relacje anatomiczno-czynnościowe żuchwy, mięśni nad- i podgnykowych, analizę relacji w odcinku szyjnym i szczytowo-potylicznym;
- należy w trybie pilnym wykonać szeroko zakrojone badania populacyjne, aby określić, jaki jest rzeczywisty zakres występowania zjawiska skróconego wędzidełka języka, oraz wskazać i opisać normę anatomiczno-czynnościową (czy też pewien zakres normy), do której mogliby się odnieść specjaliści stawiający diagnozę ankyloglosji;
- większość autorów przeglądów badawczych podkreśla kwestię braku jednolitej i zwalidowanej klasyfikacji do oceny wędzidełka języka – wykonanie takiej klasyfikacji jest kolejnym pilnym zadaniem;
- konsultacja logopedyczna przed zabiegiem i po nim powinna być obowiązkowa – niedopuszczalne są sytuacje, gdy pacjent poddawany jest zabiegowi bez przygotowania mięśniowo-powięziowego i funkcjonalnego (za wyjątkiem noworodków w sytuacji całkowitej ankyloglosji) lub pozostaje bez opieki po wykonanym zabiegu;
- przed podjęciem decyzji o przecięciu wędzidełka języka należy rozważyć konsultację fizjoterapeutyczną/osteopatyczną – zaburzona ruchomość języka może mieć wiele przyczyn (np. ograniczenie ruchomości w stawie szczytowo-potylicznym);
- należy zbadać, który sposób postępowania z raną pozabiegową daje najlepsze rezultaty; zapewne większość logopedów ma opracowaną własną procedurę opieki pozabiegowej, te praktyczne sposoby postępowania nie zostały jednak zebrane, poddane analizom i obiektywnej ocenie, a co za tym idzie, nie mogą być rozpowszechniane – nie noszą znamion dowodu naukowego o istotnej wartości; nie jest jasne, jaki sposób opieki nad raną przyniesie najlepsze rezultaty dla pacjenta;
- należy określić odsetek zabiegów wymagających powtórnego cięcia, rewizji blizny oraz odpowiedzieć na pytania: czy im większy zakres zabiegu, tym większe ryzyko powikłań? Co w przypadku, gdy przecięcie zostaje dokonane bez szczególnych wskazań – czy jest to błąd w sztuce? Jeśli tak, to kto go stwierdza i na jakiej podstawie?;
- konieczne jest przeprowadzenie interdyscyplinarnych badań oraz analiza wyników badań *in situ*, *in vitro* oraz *in vivo* z oceną logopedyczną po zabiegu.

Polscy terapeuci nadal mogą bazować jedynie na ogólnym standardzie postępowania (Ostapiuk, 2008), licznych skalach do oceny wyglądu wędzidełka i/lub funkcji języka oraz korzystać ze szkoleń komercyjnych, gdzie jednakowoż otrzymują zestaw przekonań i punkt widzenia osoby prowadzącej szkolenie (czyli mówimy tak naprawdę o wiedzy opartej niemal wyłącznie na *argumentum ad verecundiam*). Mając na uwadze poruszane w publikacji wątpliwości i niejasności, jego autorki postulują pilne wypracowanie interdyscyplinarnych standardów postępowania w ankyloglosji. Punktem wyjścia z pewnością powinno być opracowanie obiektywnych kryteriów diagnostycznych, odpowiedniej klasyfikacji wędzidełek języka, a dopiero na tej podstawie ustalenie kryteriów kwalifikacji do zabiegu frenotomii oraz procedur postępowania przed- i pozabiegowego.

Autorki dziękują Pani Profesor Danucie Plucie-Wojciechowskiej za cenne uwagi w trakcie pisania artykułu.

Bibliografia

- Alves, S.S., Reis, L.L., Oliveira, P.C. (2018). Ankyloglossia – from histogenesis and parafunctional implications to legal aspects: a bibliographic review. *Revista Brasileira de Odontologia / The Brazilian Journal of Dentistry*, 75, e1281. <http://dx.doi.org/10.18363/rbo.v75.2018.e1281>.
- Arena, M., Micarelli, A., Guzzo, F., Misici, I., Jamshir, D., Micarelli, B., Castaldo, A., di Benedetto, A., Alessandrini, M. (2022). Outcomes of tongue-tie release by means of tongue and frenulum assessment tools: A scoping review on non-infants. *Acta Otorhinolaryngologica Italica*, 42(6), 492–501. <https://doi.org/10.14639/0392-100x-n2211>.
- Binti Zaaba, N.A.A. (2021). Evaluation of healing following frenectomy. *Bioinformation*, 17(12), 1138–1143. <https://doi.org/10.6026/973206300171138>.
- Bochenek, A., Reicher, M. (2014). *Anatomia człowieka*. T. 2. Wydawnictwo Lekarskie PZWL.
- Borowitz, S.M. (2023). What is tongue-tie and does it interfere with breast-feeding? – a brief review. *Frontiers in Pediatrics*, 11, 1086942. <https://doi.org/10.3389/fped.2023.1086942>.
- Brandão, C. de A., de Marsillac, M. de W.S., Barja-Fidalgo, F., Oliveira, B.H. (2018). Is the Neonatal Tongue Screening Test a valid and reliable tool for detecting ankyloglossia in newborns? *International Journal of Paediatric Dentistry*, 28(4), 380–389. <https://doi.org/10.1111/ipd.12369>.
- Caloway, C., Hersh, C.J., Baars, R., Sally, S., Diercks, G., Hartnick, C.J. (2019). Association of feeding evaluation with frenotomy rates in infants with breastfeeding difficulties. *JAMA Otolaryngology – Head & Neck Surgery*, 145(9), 817. <https://doi.org/10.1001/jamaoto.2019.1696>.
- Campanha, S.M.A., Martinelli, R.L. de C., Palhares, D.B. (2019). Association between ankyloglossia and breastfeeding. *CoDAS*, 31(1), e20170264, 1–7. <https://doi.org/10.1590/2317-1782/20182018264>.
- Castro Martinelli, R.L. de, Marchesan, I.Q., Gusmão, R.J., Castro Rodrigues, A. de, Berretin-Felix, G. (2014). Histological characteristics of altered human lingual frenulum. *International Journal of Pediatrics and Child Health*, 2(1), 5–9. <https://doi.org/10.12974/2311-8687.2014.02.01.2>.
- Douglas, P.S. (2013). Rethinking „posterior” tongue-tie. *Breastfeeding Medicine*, 8(6), 503–506. <https://doi.org/10.1089/bfm.2013.0103>.

- Francis, D.O., Krishnaswami, S., McPheeters, M. (2015). Treatment of ankyloglossia and breast-feeding outcomes: A systematic review. *Pediatrics*, 135(6), e1458-e1466. <https://doi.org/10.1542/peds.2015-0658>.
- Ghaheri, B. (2014, 23 marca). *Rethinking tongue tie anatomy: Anterior vs posterior is irrelevant*. <https://www.drghaheri.com/blog/2014/3/22/rethinking-tongue-tie-anatomy-anterior-vs-posterior-is-irrelevant>.
- Gwóźdź-Jezierska, M., Bielecki, I. (2022). The current knowledge about ankyloglossia. *Polski Przegląd Otolaryngologiczny*, 11(3), 39–44. <https://doi.org/10.5604/01.3001.0015.9953>.
- Hatami, A., Dreyer, C.W., Meade, M.J., Kaur, S. (2022). Effectiveness of tongue-tie assessment tools in diagnosing and fulfilling lingual frenectomy criteria: A systematic review. *Australian Dental Journal*, 67(3), 212–219. <https://doi.org/10.1111/adj.12921>.
- Hazelbaker, A.K. (2017). Assessment tool for lingual frenulum function (ATLFF). *Clinical Lactation*, 8(3), 132–133. <https://doi.org/10.1891/2158-0782.8.3.132>.
- Kapoor, V., Douglas, P.S., Hill, P.S., Walsh, L.J., Tennant, M. (2018). Frenotomy for tongue-tie in Australian children, 2006–2016: An increasing problem. *Medical Journal of Australia*, 208(2), 88–89. <https://doi.org/10.5694/mja17.00438>.
- Marchesan, I. (2012). Lingual frenulum protocol. *International Journal of Orofacial Myology*, 38(1), 89–103. <https://doi.org/10.52010/ijom.2012.38.1.7>.
- Messner, A.H., Walsh, J., Rosenfeld, R.M., Schwartz, S.R., Ishman, S.L., Baldassari, C., Brietzke, S.E., Darrow, D.H., Goldstein, N., Levi, J., Meyer, A.K., Parikh, S., Simons, J.P., Wohl, D.L., Lambie, E., Satterfield, L. (2020). Clinical consensus statement: Ankyloglossia in children. *Otolaryngology–Head and Neck Surgery*, 162(5), 597–611. <https://doi.org/10.1177/0194599820915457>.
- Mills, N., Geddes, D.T., Amirapu, S., Mirjalili, S.A. (2020). Understanding the lingual frenulum: Histological structure, tissue composition, and implications for tongue tie surgery. *International Journal of Otolaryngology*, 1820978, 1–12. <https://doi.org/10.1155/2020/1820978>.
- Mills, N., Keough, N., Geddes, D.T., Pransky, S.M., Mirjalili, S.A. (2019). Defining the anatomy of the neonatal lingual frenulum. *Clinical Anatomy*, 32(6), 824–835. <https://doi.org/10.1002/ca.23410>.
- Mills, N., Pransky, S.M., Geddes, D.T., Mirjalili, S.A. (2019). What is a tongue tie? Defining the anatomy of the in-situ lingual frenulum. *Clinical Anatomy*, 32(6), 749–761. <https://doi.org/10.1002/ca.23343>.
- Nehring-Gugulska, M., Żukowska-Rubik, M., Pietkiewicz, A., (red.) (2017). *Karmienie piersią w teorii i praktyce. Podręcznik dla doradców i konsultantów laktacyjnych oraz położnych, pielęgniarek i lekarzy*. Medycyna Praktyczna.
- Netter, F.H. (2020). *Atlas anatomii człowieka*. S.A. Spillane (red.). J.H. Spodnik (tłum. z jęz. ang.). Wyd. 3. Elsevier Urban & Partner.
- Obladen, M. (2010). Much ado about nothing: Two millenia of controversy on tongue-tie. *Neonatology*, 97(2), 83–89. <https://doi.org/10.1159/000235682>.
- Obladen, M. (2021). *Oxford textbook of the newborn: A cultural and medical history*. Oxford University Press.
- O'Connor, M.E., Gilliland, A.M., LeFort, Y. (2022). Complications and misdiagnoses associated with infant frenotomy: Results of a healthcare professional survey. *International Breastfeeding Journal*, 17(1), 39. <https://doi.org/10.1186/s13006-022-00481-w>.
- O'Shea, J.E., Foster, J.P., O'Donnell, C.P., Breathnach, D., Jacobs, S.E., Todd, D.A., Davis, P.G. (2017). Frenotomy for tongue-tie in newborn infants. *Cochrane Database of Systematic Reviews*, 3, CD011065. <https://doi.org/10.1002/14651858.cd011065.pub2>.
- Ostapiuk, B. (2005). Logopedyczna ocena ruchomości języka. W: M. Młynarska, T. Smereka (red.), *Logopedia. Teoria i praktyka* (s. 299–306). Agencja Wydawnicza a linea.

- Ostapiuk, B. (2006). Poglądy na temat ruchomości języka w ankyloglosji a potrzeby artykulacyjne. *Annales Academiae Medicae Stetinensis*, 52 (Supl. 3), 37–47.
- Ostapiuk, B. (2008). Standard postępowania w dyslalii ankyloglosyjnej. *Logopedia*, 38, 141–166.
- Ostapiuk, B. (2013). *Dyslalia ankyloglosyjna. O krótkim wędzidełku języka, wadliwej wymowie i skuteczności terapii*. Wydawnictwo Naukowe Uniwersytetu Szczecińskiego.
- Pluta-Wojciechowska, D., Sambor, B. (2016). O różnych typach skróconych wędzidełek języka, ich ocenie i interpretacji wyników badań w logopedii. *Logopedia*, 45, 123–155.
- Ruffoli, R., Giambelluca, M., Scavuzzo, M., Bonfigli, D., Cristofani, R., Gabriele, M., Giuca, M., Giannessi, F. (2005). Ankyloglossia: A morphofunctional investigation in children. *Oral Diseases*, 11(3), 170–174. <https://doi.org/10.1111/j.1601-0825.2005.01108.x>.
- Van Biervliet, S., Van Winckel, M., Vande Velde, S., De Bruyne, R., D'Hondt, M. (2020). Primum non nocere: Lingual frenotomy for breastfeeding problems, not as innocent as generally accepted. *European Journal of Pediatrics*, 179(8), 1191–1195. <https://doi.org/10.1007/s00431-020-03705-5>.
- Walsh, J., Links, A., Boss, E., Tunkel, D. (2017). Ankyloglossia and lingual frenotomy: National trends in inpatient diagnosis and management in the United States, 1997–2012. *Otolaryngology-Head and Neck Surgery*, 156(4), 735–740. <https://doi.org/10.1177/0194599817690135>.
- Zaghi, S., Shamtoob, S., Peterson, C., Christianson, L., Valcu-Pinkerton, S., Peeran, Z., Fung, B., Kwok-keung Ng, D., Jagomagi, T., Archambault, N., O'Connor, B., Winslow, K., Lano, M., Murdock, J., Morrissey, L., Yoon, A. (2021). Assessment of posterior tongue mobility using lingual-palatal suction: Progress toward a functional definition of ankyloglossia. *Journal of Oral Rehabilitation*, 48, 692–700. <https://doi.org/10.1111/joor.13144>.
- Żukowska-Rubik, M., Jasińska, K., Raczek-Pakuła, K., Nehring-Gugulska, M., Castello-Rokicka, M. (2019). Frenotomia u noworodków i niemowląt – przegląd aktualnej literatury i propozycja zaleceń. *Standardy Medyczne/Pediatrica*, 16, 188–200.
- Żukowska-Rubik, M., Nehring-Gugulska, M., (oprac.) (2021, 6 grudnia). *Stanowisko Centrum Nauki o Laktacji w sprawie wskazań do podcinania wędzidełka języka (frenotomii) u noworodków i niemowląt*. Centrum Nauki o Laktacji. https://cnol.kobiety.med.pl/wp-content/uploads/2021/12/Stanowisko-CNoL_WJ_2021.pdf.

Agnieszka Jarzyńska – doktor nauk humanistycznych, neurologopeda, logopeda, filolog polski. Adiunkt w Zakładzie Logopedii i Lingwistyki Edukacyjnej Akademii Pedagogiki Specjalnej im. Marii Grzegorzewskiej w Warszawie, neurologopeda na Oddziale Neonatologii i Intensywnej Terapii Noworodka w Instytucie Matki i Dziecka w Warszawie.

ajarzynska@aps.edu.pl

Barbara Sambor – doktor nauk humanistycznych, logopeda medialny, neurologopeda, pedagog w Akademii Sztuk Teatralnych im. Stanisława Wyspiańskiego w Krakowie. W obszarze jej zainteresowań naukowych znajdują się m.in. analiza fizjologii i patofizjologii narządu żucia oraz neurogenne zaburzenia mowy.

sambor.logopedia@gmail.com