

## Ankyloglosja – przegląd piśmiennictwa

## Ankyloglossia – a literature review

Kornelia Stańczyk<sup>1</sup> **A B D E F**

Edyta Ciok<sup>2</sup> **B E**

Konrad Perkowski<sup>3</sup> **A B D E**

Małgorzata Zadurska<sup>4</sup> **A E**

**Wkład autorów:** **A** Plan badań **B** Zbieranie danych **C** Analiza statystyczna **D** Interpretacja danych  
**E** Redagowanie pracy **F** Wyszukiwanie piśmiennictwa

**Authors' Contribution:** **A** Study design **B** Data Collection **C** Statistical Analysis **D** Data Interpretation  
**E** Manuscript Preparation **F** Literature Search

<sup>1, 2, 3, 4</sup> Zakład Ortodoncji Warszawski Uniwersytet Medyczny  
*Department of Orthodontics Medical University of Warsaw*

### Streszczenie

Ankyloglosja (grec. agkilos – ‘zakrzywiony’, glossa – ‘język’) to najczęściej występująca wrodzona anomalia języka charakteryzująca się krótkim wędzidełkiem językowym lub jego wadliwym przyczepem, co skutkuje całkowitym lub częściowym przytwierdzeniem języka do dna jamy ustnej. W jej następstwie może się zmienić pozycja spoczynkowa języka oraz jego ruchomość, co nie pozostaje bez wpływu na rozwój zgryzu, wymowę oraz czynności ssania, połykania, oblizywania ust, formowania kęsa. Wśród lekarzy różnych specjalności ankyloglosja nadal budzi kontrowersje odnośnie kryteriów prawidłowego i skróconego wędzidełka, skali rzeczywistego oddziaływania na funkcje i kształt struktur jamy ustnej i wskazań do korekty chirurgicznej. **Cel.** Celem pracy jest przedstawienie zagadnienia w świetle aktualnego stanu wiedzy. **Materiał i metoda.** Dokonano przeglądu piśmiennictwa od 1991 do 2014 roku, wykorzystując bazę PubMed z zastosowaniem słów kluczowych: ankyloglossia, tongue-tie oraz short

### Abstract

Ankyloglossia (gr. agkilos – ‘curved’, glossa – ‘tongue’) is the most common congenital tongue anomaly where the lingual frenulum is short or incorrectly attached, and as a result, the tongue is completely or partially attached to the floor of the mouth. As a result, a resting position of the tongue and its mobility may be disturbed and affect occlusion development, speech and such activities as sucking, swallowing, lip sweeping or formation of a bolus. Ankyloglossia is a controversial topic among physicians of various specialisations, especially with regard to criteria for a normal or shortened frenulum, the scale of real effects on the functions and shape of structures in the oral cavity and indications for a surgical intervention. **Aim.** The aim of the work is to present this subject with regard to a current state of knowledge. **Material and methods.** Literature from the period between 1991 and 2014 included in the PubMed database was searched for with the following key words: ankyloglossia, tongue-tie and short frenulum. The studies

<sup>1</sup> lek. dent., specjalista ortodonta / DDS, specialist in orthodontics

<sup>2</sup> lek. dent., rezydent / DDS, postgraduate student

<sup>3</sup> dr n. med., specjalista ortodonta / DDS, PhD, specialist in orthodontics

<sup>4</sup> dr hab. n. med., kierownik Zakładu Ortodoncji WUM / DDS, PhD, associate professor, head of the Department of Orthodontics

Dane do korespondencji/Correspondence address:

Zakład Ortodoncji WUM

ul. Nowogrodzka 59

02-006 Warszawa

e-mail: edytaciok@wum.edu.pl

frenulum. Badania uzupełniono o opracowania autorów polskich i zagranicznych, które nie zostały ujęte w bazie PubMed. **Wnioski.** Istnieją rozbieżne poglądy na temat konsekwencji ankyloglosji. To zagadnienie wymaga dalszych badań w celu ustalenia jej wpływu zwłaszcza na wymowę, powstawanie wad zgryzu oraz ocenę konieczności i wybór odpowiedniego momentu chirurgicznego leczenia tej nieprawidłowości. **(Stańczyk K, Ciok E, Perkowski K, Zadurska M. Ankyloglosja – przegląd piśmiennictwa. Forum Ortod 2015; 11: 123-33).**

Nadesłano: 12.02.2015

Przyjęto do druku: 22.06.2015

**Słowa kluczowe:** ankyloglosja, tongue-tie, short frenulum, krótkie wędzidełko, mowa, okluzja

## Rozwój i dziedziczenie

Wędzidełko językowe to fałd błony śluzowej łączący dno jamy ustnej z dolną powierzchnią języka, który czasem zawiera włókna mięśnia bródkowo-językowego. W okresie embrionalnym ukierunkowuje wzrost doprzedni języka, a w późniejszym stabilizuje go i zapobiega nadmiernemu ruchowi, zwłaszcza dotylnemu. W miarę wzrostu komórki wędzidełka ulegają apoptozie i wędzidełko cofa się, uwalniając koniec języka. Zaburzenie tego procesu skutkuje całkowitym lub częściowym przytwierdzeniem języka do dna jamy ustnej i nosi nazwę ankyloglosji. Odrębnym zagadnieniem jest ankyloglossia superior, gdy język jest przytwierdzony do podniebienia, ale ten stan charakteryzują zupełnie odmienna patogeneza oraz etiologia.

Częstość występowania ankyloglosji jest określana na 0,02 do 10,7% i występuje u chłopców od 1,5–3 razy częściej (1, 2, 3, 4). Jest ona znacząco wyższa w badaniach noworodków (1,72–10,7%) niż u starszych dzieci (0,02–2,08%) (5). Prawdopodobnie łagodne formy skróconego wędzidełka ulegają samokorekcji przy wzroście języka między 6 miesiącem a 6 rokiem życia, co tłumaczy tę rozbieżność. Rozbieżność częstości występowania świadczy również o braku jednego, powszechnie zaakceptowanego kryterium oceny. Ankyloglosja najczęściej występuje jako izolowana wada, choć może współistnieć także z syndromami Smith-Lemli-Opitz, Beckwith Weidmann, Simpson-Golabi-Behmel, Kindler, van der Woude oraz rozszczepem podniebienia sprzężonym z chromosomem X (6, 7, 8, 9, 10, 11, 12). Wywiad rodzinny potwierdzający występowanie krótkiego wędzidełka notuje się w 21–41% przypadków (2, 13). Dziedziczenie ankyloglosji może być sprzężone z chromosomem X (5, 13).

## Diagnostyka

Pojęcie ankyloglosji po raz pierwszy zostało użyte w 1963 r. przez Wallace'a i zdefiniowano je jako stan, gdzie koniec

were supplemented with papers published by Polish and foreign authors that were not included in the PubMed database. **Conclusions.** There are opposing approaches to the consequences of ankyloglossia. This issue has to be studied further in order to determine its effects especially on the speech, development of occlusal defects and to assess the necessity of surgical treatment for this anomaly and to determine when it should be performed. **(Stańczyk K, Ciok E, Perkowski K, Zadurska M. Ankyloglossia – a literature review. Orthod Forum 2015; 11: 123-33).**

Received: 12.02.2015

Accepted: 22.06.2015

**Key words:** ankyloglossia, tongue-tie, short frenulum, speech, occlusion

## Development and inheritance

The lingual frenulum is a fold of the mucous membrane extending from the floor of the mouth to the underside of the tongue, and sometimes it includes fibres of the genioglossus muscle. In the embryonal period it is responsible for the forward growth of the tongue, and in a later period it stabilises the tongue and prevents its excessive movements, especially towards the back. As the growth progresses frenulum cells undergo apoptosis, the frenulum retracts releasing the tip of the tongue. When this process is disturbed the tongue becomes completely or partially attached to the floor of the mouth and this phenomenon is called ankyloglossia. Ankyloglossia superior is another phenomenon, and in this case the tongue is attached to the palate, but this condition has a completely different pathogenesis and aetiology.

The incidence of ankyloglossia is estimated at 0.02 to 10.7% and it is present by 1.5–3 times more frequently in boys (1, 2, 3, 4). It is significantly higher in studies investigating neonates (1.72–10.7%) than in studies with older children (0.02–2.08%) (5). Probably milder forms of ankyloglossia may resolve spontaneously as the tongue grows between the 6th month and the 6th year of life, what explains this discrepancy. Differences in the incidence rate also reflect the fact that there is no single, commonly accepted criterion to assess this pathology. Ankyloglossia is observed the most frequently as an isolated defect; however, it may also coexist with Smith-Lemli-Opitz syndrome, Beckwith Weidmann syndrome, Simpson-Golabi-Behmel syndrome, Kindler syndrome, van der Woude syndrome and X-linked cleft palate (6, 7, 8, 9, 10, 11, 12). With regard to a family history a short lingual frenulum is observed in 21–41% of cases (2, 13). Inheritance of ankyloglossia may be linked to the chromosome X (5, 13).

## Diagnostics

The term ankyloglossia was used for the first time in 1963 by Wallace and was defined as a condition in which the tip

*Ankyloglossia – a literature review*

języka nie może być wysunięty dalej niż brzeg sieczny dolnych siekaczy ze względu na zbyt krótkie wędzidełko (14). Od tego czasu w literaturze powstało wiele kryteriów rozpoznawczych, jak również wiele nowych określeń anomalii wędzidełka, takich jak tongue-tie, hypertrophic frenulum, thick frenulum, muscular frenulum, fibrotic frenulum, frenulum with anterior insertion, short frenulum oraz short frenulum with anterior insertion (15). Zaproponowano wiele metod klasyfikacji tej anomalii, przeprowadzonej według różnych metod oceny wędzidełka, ale żadna z nich nie została powszechnie zaakceptowana. Do najczęściej stosowanych pomiarów zalicza się badanie długości wolnej części języka, długość wędzidełka oraz różnicę między maksymalnym otwarciem jamy ustnej z językiem w spoczynku i na brodawce przysiecznej.

Kotlow mierzył długość wolnej części języka od końca języka do przyczepu wędzidełka i uznał 16 mm za normę. Długość od 12 mm do 16 mm świadczy o łagodnej (klasa I), od 8 do 11 mm o umiarkowanej (klasa II), od 3 do 7 mm o ciężkiej (klasa III), a poniżej 3 mm – o całkowitej ankyloglosji. Badanie było uzupełnione o testy czynnościowe takie jak prawidłowe przełykanie, możliwość oblizania obu warg, brak anemizacji dziąsła od strony językowej siekaczy przy ruchu dotylnym języka, brak wcięcia w kształcie serca przy protruzji, brak diastemy oraz brak trudności w wymowie (16). Badania Jamilliana, a także Kotłowa wykazały, że pacjenci z wędzidełkiem o długości powyżej 1,5 cm wykazywali prawidłową ruchomość, natomiast wędzidełko krótsze niż 0,7 cm zawsze ograniczało ruchomość języka (16, 17).

Ruffoli mierzył bezpośrednio długość wędzidełka i długość powyżej 2 cm uznał za normę; za łagodną ankyloglosję – 1,6–1,9 cm; umiarkowaną – 0,8–1,5 cm i ciężką – poniżej 0,7 cm. Mierzył również maksymalne otwarcie jamy ustnej z językiem na brodawce przysiecznej. Oceniał, że otwarcie powyżej 2,3 cm świadczy o prawidłowym wędzidełku (18).

Marchesan zaproponowała pomiar różnicy maksymalnego rozwarcia jamy ustnej z językiem na dnie jamy ustnej, z maksymalnym rozwarciem jamy ustnej z językiem umiejscowionym na brodawce podniebiennej. Ponad dwukrotny spadek szerokości rozwarcia wskazuje na ankyloglosję z zaburzeniem czynnościowym, a przy spadku do 40% nie wykazano zaburzeń czynnościowych (15).

Diagnostyka Hazelbaker używana jest głównie u noworodków i opiera się na 5 kryteriach wyglądu i 7 kryteriach czynności. Za każdy aspekt przyznawane są 2 punkty. Skrócenie wędzidełka jest rozpoznawane poniżej 8 punktów dla wyglądu i poniżej 11 pkt dla czynności, a jeśli obie wartości są zaniżone, zaleca się zabieg chirurgiczny (19).

Kryteria oceny ankyloglosji przedstawili również: Hogan, Ricke, Griffiths, Ballard, Messner, Masaitis, Harris, Market, Notestine.

of the tongue cannot be protruded beyond the incisal edge of the lower incisors because of a short frenulum linguae (14). Since that time the literature has included many diagnostic criteria as well as many new expressions to describe frenulum anomalies such as tongue-tie, hypertrophic frenulum, thick frenulum, muscular frenulum, fibrotic frenulum, frenulum with anterior insertion, short frenulum and short frenulum with anterior insertion (15). Many methods to classify this anomaly have been suggested using various methods to assess the lingual frenulum but none of them has been commonly accepted. The most common measurements include a measurement of the free tongue, frenulum length and a difference between the maximum opening of the mouth with tongue at rest and on the incisive papilla.

Kotlow examined the length of the free tongue between the tip of the tongue to the attachment of the lingual frenulum and accepted that the normal range was 16 mm. The range between 12 mm to 16 mm indicates mild (class I), 8 to 11 mm moderate (class II), 3 to 7 mm severe (class III), and less than 3 mm – complete ankyloglossia. The examination was supplemented with functional tests such as normal swallowing, ability to sweep upper and lower lip easily, lack of blanching of the lingual gingivae with the posterior movement of the tongue, lack of heart-shaped tongue during protrusion, lack of diastema and no speech problems (16). Studies by Jamillian, and Kotlow, demonstrated that patients with the frenulum longer than 1.5 cm presented normal mobility, whereas the frenulum shorter than 0.7 cm always limited the mobility of the tongue (16, 17).

Ruffoli measured the frenulum length directly and considered that the length above 2 cm was the norm; mild ankyloglossia – 1.6–1.9 cm; moderate – 0.8–1.5 cm and severe – below 0.7 cm. Additionally, he measured the maximum opening of the mouth with the tongue placed on the incisive papilla. He concluded that the opening larger than 2.3 cm indicated that the frenulum was normal (18).

Marchesan suggested to measure a difference between the maximal opening of the mouth with the tongue placed on the floor of the mouth and the maximal opening of the mouth with the tongue placed on the incisive papilla. When the opening width is reduced more than twice it indicates ankyloglossia with a dysfunction, but when the reduction was below 40% no dysfunctions were observed (15).

The Hazelbaker diagnostic criteria are used mainly in neonates and include 5 criteria of appearance and 5 functional criteria. Each aspect is worth 2 points. A short frenulum is diagnosed when the score is below 8 points for appearance and below 11 points for functions, and when both values are low, a surgical procedure is recommended (19).

The following authors have also presented their criteria for ankyloglossia: Hogan, Ricke, Griffiths, Ballard, Messner, Masaitis, Harris, Market, Notestine.

## Karmienie

W XVIII wieku powszechny był zabieg podcinania wędzidełka ostrym paznokciem bezpośrednio po porodzie przez akuszerki, co miało usprawnić ssanie (20). Po II wojnie światowej wzrosła popularność karmienia sztucznego, co ułatwiło karmienie noworodków z ankyloglosją i doprowadziło do marginalizacji tego problemu w piśmiennictwie medycznym (20). Wraz z powrotem do karmienia naturalnego wzrosła świadomość anomalii wędzidełka jako przyczyny potencjalnych problemów.

Szacuje się, że około 12,8% kłopotów z karmieniem może być spowodowanych anomaliami wędzidełka (2). Zalicza się do nich: powolne przybieranie na wadze, uszkodzenie sutka, występowanie bólu u matki podczas karmienia, mała ilość mleka, zapalenie gruczołu piersiowego, zmęczenie dziecka w ciągu 1–2 minut od rozpoczęcia ssania, drżenie żuchwy dziecka, częste przerywanie ssania lub odwracanie się niemowlęcia od piersi (21, 22, 23, 24). Niemowlęta z krótkim wędzidełkiem nie potrafią wysunąć języka dalej niż do dolnego wału dziąsłowego i albo naciskają wałami dziąsłowymi na brodawkę sutkową, aby utrzymać pierś podczas ssania, albo uciskają wałami podstawę brodawki i nie potrafią jej utrzymać (5).

Obecnie uznaje się, że zabieg podcięcia wędzidełka u noworodków wpływa korzystnie na jakość karmienia. W dwóch niezależnych badaniach randomizowanych, z podwójną oraz pojedynczą ślepą próbą, wykazano natychmiastową poprawę czynności ssania (26, 27). Podobne rezultaty otrzymano w ultradźwiękowym badaniu czynności ssania noworodków przed i po frenulotomii (22). Korzystny efekt tego zabiegu został również wykazany w badaniach ankietowych przeprowadzonych wśród rodziców (28).

## Ankyloglosja a wady zgryzu

Długość, struktura oraz umiejscowienie przyczepu wędzidełka mają wpływ na pozycję spoczynkową oraz zakres ruchomości języka (29). Proffit wykazał, że istnieje równowaga sił między policzkami, wargami i językiem. Zaburzenie tej równowagi wpływa na szerokość łuków zębowych i położenie zębów. Czas trwania siły, a nie jej wielkość, determinuje zmiany we wzroście, więc nieprawidłowa pozycja spoczynkowa języka wpływa tym samym na wzrost żuchwy (30). Również hipoteza czynnościowego matriksu Mossa sugeruje, że tkanki miękkie mogą modelować wzrost szkieletu (31). Badania Hopkinsa wykazały, że pozycja języka jest najniższa w III klasie szkieletowej (32).

Według hipotez Tureka i Lubita jak również Horton i wsp. ograniczenie ruchu języka w kierunku dotylnym i górnym może spowodować tendencję do tłoczenia języka na przednią część wyrostka żuchwy, a tym samym spowodować zgryz otwarty lub prognatyzm żuchwy (33, 34). Indukowanie wzrostu żuchwy na podobnej zasadzie było założeniem operacji Douglasa wykonywanej w leczeniu syndromu Pierre-Robin. Polega ona na przytwierdzeniu języka do wargi dolnej

## Feeding

In the 18th century midwives used to cut the frenulum with their sharp nails immediately after delivery to improve sucking (20). After World War 2 formula feeding became popular therefore feeding neonates with ankyloglossia was easier and as a result, this problem was marginalized in medical literature (20). As natural feeding regained popularity awareness that frenulum anomalies are potentially responsible for associated problems increased.

It has been estimated that approximately 12.8% of all feeding problems may be associated with frenulum anomalies (2). They include: slow body weight gain, nipple damage, pain during breastfeeding in a nursing mother, low milk amount, mastitis, child fatigue within 1-2 minutes of beginning to suck, child's jaw tremor, sucking interrupted frequently or an infant turns away from the breast (21, 22, 23, 24). Infants with a short frenulum are not able to stick their tongues further than the lower alveolar ridge or they press with their alveolar ridges against the nipple to hold on to a breast while sucking or press with their alveolar ridges against the nipple but cannot hold it (5).

Currently, it is accepted that a procedure to undercut of the frenulum in neonates has a positive effect on the feeding quality. In two independent randomised trials, one double-blind, one single-blind, immediate improvement of sucking was demonstrated (26, 27). Similar results were obtained in an ultrasound examination of sucking in neonates before and after frenulotomy (22). Additionally, positive effects of this procedure were also demonstrated in surveys performed among parents (28).

## Ankyloglossia and occlusal defects

The length, structure and location of the frenulum attachment affect a resting position and a range of tongue mobility (29). Proffit has demonstrated that there is an equilibrium of forces between cheeks, lips and tongue. When this equilibrium is disturbed, it affects the width of dental arches and teeth location. Changes in the growth are affected by time a given force is applied and not its strength, therefore an abnormal resting position of the tongue affects the mandibular growth (30). The functional matrix hypothesis by Moss also suggests that soft tissues may affect the skeletal growth (31). Studies by Hopkin have demonstrated that the tongue position is the lowest in the skeletal class III (32).

According to hypotheses of Turek and Lubit and Horton et al. when the tongue movement is limited towards the back and top the tongue may be forced to be placed on the anterior part of the mandibular process, therefore it may cause an open occlusion or mandibular prognathism (33, 34). Using a similar rule to induce mandibular growth was an assumption of a Douglas operation performed in order to treat Pierre-Robin syndrome. It involves attachment of the tongue to the

*Ankyloglossia – a literature review*

w celu zmniejszenia ryzyka asfiksji w mechanizmie połknięcia języka. Po zabiegu zaobserwowano znacząco większy wzrost części przedniej żuchwy (35). Jednakże doniesienia odnośnie związku ankyloglosji i prognatyzmu żuchwy są niejednoznaczne.

Badania Meenakshi oraz So-Jeonga Janga i innych potwierdziły hipotezę o korelacji długości wędzidełka i tendencji do klasy III szkieletowej (36, 37). W obu badaniach w wadach III klasy średnia długość wędzidełka była statystycznie istotnie większa, a maksymalne otwarcie jamy ustnej z końcem języka dotykającym podniebienia – znacząco ograniczone. W innym badaniu wykazano, że im dłuższe wędzidełko, tym przyczep znajduje się bliżej końca języka, co ogranicza jego ruchomość (15). Mukai, operując pacjentów z wrodzoną ankyloglosją i przemieszczeniem nagłośni oraz krtani, zaobserwował, że u 84% pacjentów występowały III klasy Angle'a (38). Ponieważ koniec wzrostu języka przypada na 8. rok życia, a skok wzrostu żuchwy – na okres pokwitania, niektórzy autorzy uważają, że skrócone wędzidełko może być przyczyną wczesnego prognatyzmu żuchwy i zalecają jego podcięcie (39, 40). Tendencji do klasy III szkieletowej nie potwierdziły jednak badania Srinivasan, w którym pacjenci z ankyloglosją w większości wykazali prawidłowe relacje względem płaszczyzny oczodołowej. W grupie pacjentów nie było jednak przypadków całkowitej ankyloglosji (41). Również Mazzocchi i Clini nie znaleźli korelacji między krótkim wędzidełkiem a wadą zgryzu (42).

Związek ankyloglosji ze zgryzem otwartym nie został potwierdzony w badaniach. Wręcz przeciwnie, obserwowano pogłębiony nagryz pionowy i zmniejszony kąt podstaw u pacjentów z ciężką lub ciężką i umiarkowaną ankyloglosją (18, 41).

Nieprawidłowe położenie spoczynkowe języka, podobnie jak u pacjentów oddychających przez usta, może skutkować upośledzeniem rozwoju podniebienia twardego, zwężeniem szczęki i zgryzem krzyżowym na tle zwężenia górnego lub poszerzenia dolnego łuku zębowego (43). W dostępnym piśmiennictwie istnieje niewiele badań na temat wpływu ankyloglosji na rozwój zgryzu w płaszczyźnie strzałkowej. Defabianis opisał przypadek samoistnej ekspansji górnego łuku zębowego po zabiegu ankyloglosji, który wyeliminował konieczność leczenia ortodontycznego (44).

Badania Srinivasan wykazały statystycznie istotne zmniejszenie szerokości międzytrzonowcowej szczęki (średnio 5,6 mm), a także międzykłowej szczęki (średnio 2,4 mm) i międzykłowej żuchwy (średnio 1,4 mm), u pacjentów z ankyloglosją, w porównaniu do pacjentów bez ankyloglosji. Nie wykazano natomiast statystycznie istotnej różnicy szerokości międzytrzonowcowej w żuchwie (średnio 1,1 mm u pacjentów z ankyloglosją). Autorzy wskazują na niefizjologiczne położenie języka jako przyczynę zwężenia górnego łuku, a zwężenie szerokości międzykłowej żuchwy tłumaczą pociąganiem wędzidełka (41).

lower lip to reduce a risk of asphyxia as a result of tongue swallowing. After the procedure the growth of the anterior part of the mandible was significantly higher (35). However, reports on a relationship between ankyloglossia and mandibular prognathism are inconclusive.

Studies by Meenakshi and So-Jeong Jang and other researchers have confirmed a hypothesis that there is a correlation between the length of the frenulum and a tendency for the skeletal class III (36, 37). In both studies with regard to class III defects the mean length of the frenulum was statistically significantly higher, and the maximum opening of the mouth with the tongue touching the palate was significantly limited. Another study demonstrated that if the frenulum is longer its attachment is located more proximally to the tip of the tongue therefore the tongue mobility is limited (15). Operating patients with congenital ankyloglossia and displaced epiglottis and larynx, Mukai observed that in 84% of patients class III Angle defects were observed (38). As the tongue growth is completed at the age of 8 years, and the mandibular growth lasts until maturation, some authors claim that a shortened frenulum may contribute to early mandibular prognathism and therefore recommend to cut it (39, 40). However, studies by Srinivasan did not confirm a tendency for skeletal class III as in this study the majority of patients with ankyloglossia had normal relations with regard to the orbital plane. However, in this group of patients there were no cases of complete ankyloglossia (41). Moreover, Mazzocchi and Clini did not find any correlations between a short frenulum and an occlusal defect (42).

Studies did not confirm any relationship between ankyloglossia and an open bite. On the other hand, there was a deepened overbite and a reduced basal angle in patients with severe or severe to moderate ankyloglossia (18, 41).

An abnormal resting position of the tongue, similarly as in patients breathing through their mouths, may result in impaired growth of the hard palate, maxillary narrowing and a crossbite due to narrow upper dental arch or widened lower dental arch (43). Available literature present only few papers on the effects of ankyloglossia on the occlusal development in the sagittal plane. Defabianis presented a case of spontaneous expansion of the upper dental arch after a procedure on ankyloglossia and as a result, orthodontic treatment was not necessary (44).

The studies by Srinivasan demonstrated that the maxillary intermolar width (mean 5.6 mm), the maxillary intercanine width (mean 2.4 mm) and the mandibular intercanine width (mean 1.4 mm) had reduced statistically significantly in patients with ankyloglossia compared to patients without ankyloglossia. However, there were no statistically significant differences in the mandibular intermolar width (mean 1.1 mm in patients with ankyloglossia). According to the authors a non-physiological position of the tongue is a reason for narrowing of the upper arch and the narrowing of the mandibular intercanine width is a result of a pulled frenulum (41).

Badania Łysiak-Seichter wykazały zwiększenie szerokości międzytrzonowcowej żuchwy (średnio o 3,22 mm). Średnie wartości szerokości łuku górnego były tylko o 0,78 mm niższe dla grupy z ciężką lub całkowitą ankyloglosją według kryteriów Kotłowa. Znaczące jest ich zróżnicowanie (szerokość górnego łuku między 38,77 a 48,96 mm, a dla grupy kontrolnej między 45,16 a 45,94 mm; szerokość dolnego łuku między 44,28 a 53,02 mm i dla grupy kontrolnej między 43,52 a 49,07 mm). Badanie wskazuje na tendencję do znacznej zmienności szerokości dolnego i górnego łuku zębowego u pacjentów z ankyloglosją, a tym samym potwierdza istnienie korelacji między stopniem nasilenia ankyloglosji a szerokością łuków zębowych. Zróżnicowanie szerokości łuków pośrednio wskazuje również na zaburzenia szkieletowe względem płaszczyzny oczodołowej, ponieważ szerokości górnego i dolnego łuku w klasie I szkieletowej powinny być zbliżone (45).

### Ankyloglosja a zaburzenia mowy

Poglądy na temat wpływu wędzidełka na wymowę są rozbieżne, i najczęściej niepotwierdzone obiektywnymi badaniami. Autorzy są jedynie zgodni, że ankyloglosja nie jest przyczyną jąkania ani opóźnionego rozwoju mowy u dziecka (46, 47). Zbyt krótkie wędzidełko ogranicza ruchomość języka (37, 48, 49). W dwóch badaniach po zabiegu frenulotomii uległy polepszeniu ruchy boczne, wysuwanie oraz unoszenie języka (48, 50).

U pacjentów z ankyloglosją wymowa może być utrudniona ze względu na ograniczenie tej ruchomości. W piśmiennictwie najczęściej opisuje się omijanie lub zniekształcenie spółgłoski uderzeniowej dźwiękowej [r] (np. r), a także problemy z wymową spółgłoski szczelinowej dźwiękowej bezdźwięcznej [s] i [z] oraz kilku spółgłosek obok siebie (51). W języku polskim mogą wystąpić trudności w wymowie następujących fonemów: r, t, d, l, s, ś, ć, ź, dź, sz, cz, dż, ż (52). Przy ograniczonej ruchomości języka również inne fonemy, a nawet samogłoski, mogą być wymawiane nietypowo (53).

W literaturze często jest opisywane znaczenie zdolności kompensacyjnych języka podczas wymowy – w ten właśnie sposób tłumaczy się brak bezpośredniej zależności między ciężkością ankyloglosji a zaburzeniem artykulacji. Podkreśla się również znaczącą rolę logopedy w usprawnianiu języka – nawet w cięższej formie ankyloglosji prawidłowa wymowa jest możliwa (54). Kompensacja najczęściej polega na mniejszym otwarciu jamy ustnej podczas mówienia tak, aby język dosięgał podniebienia, przez co mowa może stać się niewyraźna; zmianie pozycji języka w fonemach, gdzie zwykle występuje jego uniesienie; na asymetrycznym ułożeniu języka i warg podczas wymowy. Jako adaptacje opisano również większe ślinienie oraz zwiększenie ruchów bocznych i doprzednich żuchwy (47, 51). Kompensacja może wymagać większego wysiłku pacjenta, a w konsekwencji objawiać się szybkim męceniem i dyskomfortem mówienia (53).

The studies by Łysiak-Seichter demonstrated that the mandibular intermolar width increased (by 3.22 mm on average). The mean values of the width of the upper arch were lower only by 0.78 mm in a group with complete or severe ankyloglossia according to the Kotlow criteria. They present extremely high variability (width of the upper arch between 38.77 and 48.96 mm, in the control group between 45.16 and 45.94 mm; width of the lower arch between 44.28 and 53.02 mm and in the control group between 43.52 and 49.07 mm). Studies indicate that the width of lower and upper dental arches in patients with ankyloglossia is extremely varied, therefore there is a correlation between a degree of ankyloglossia and the width of dental arches. The fact that the width of dental arches varies indirectly indicates there are also skeletal abnormalities with regard to the orbital plane because the width of the upper and lower arch in skeletal class I should be similar (45).

### Ankyloglossia and speech disturbances

Opinions on the effects of the frenulum on speech are divergent, and usually not confirmed by objective studies. However, authors only agree that ankyloglossia is not a reason for stuttering or delayed speech development in children (46, 47). When the frenulum is too short the tongue mobility is reduced (37, 48, 49). In two studies after frenulotomy the lateral movements improved, as well as tongue protrusion and lift (48, 50).

In patients with ankyloglossia pronunciation may be more difficult due to limited mobility. The literature the most commonly reports that the alveolar tap [r] (e.g. r) is omitted or deformed, and there are also problems pronouncing voiceless alveolar sibilant affricate [s] and [z] and several consonants together (51). In Polish there might be problems pronouncing the following phonemes: r, t, d, l, s, ś, ć, ź, dź, sz, cz, dż, ż (52). When the tongue mobility is limited other phonemes or even vowels may be pronounced atypically (53).

The literature often describes significance of compensatory mechanisms of the tongue during pronunciation – and this mechanism explains why there is no direct relation between severity of ankyloglossia and speech disturbances. A speech therapist has also a significant role in speech improvement – even in severe ankyloglossia correct pronunciation is possible (54). Compensation usually involves smaller opening of the mouth while talking so as the tongue could reach the palate, therefore speech may be slurred; change of the tongue position in such phonemes when the tongue is usually raised; asymmetric position of the tongue and lips while speaking. Increased salivation and more intense lateral and anterior movements of the mandible have also been described as adaptations (47, 51). Compensation may require more effort from a patient therefore it may be associated with earlier fatigue and discomfort while speaking (53).

*Ankyloglossia – a literature review*

W badaniu kliniczno-kontrolnym z zastosowaniem ślepej próby nie wystąpiły statystycznie istotne różnice w zrozumieniu słów i zdań, a także płynności mowy dzieci z ankyloglosją, dzieci z leczoną ankyloglosją i dzieci w grupie kontrolnej. Natomiast dzieci z nieleczoną ankyloglosją robiły znacznie więcej błędów artykulacyjnych spółgłosek t, d, r, l, co jednak nie miało wpływu na ogólną jakość rozumienia mowy. Dzieci nieleczone i leczone robiły podobnie dużo błędów artykulacyjnych (55).

W standaryzowanym teście przeprowadzonym w grupie 200 dzieci w wieku 6–12 lat wykazano związek między ograniczoną ruchomością języka a obecnością zaburzenia wymowy, ale tylko w przypadkach umiarkowanej i ciężkiej ankyloglosji. Większość pacjentów z lekką ankyloglosją (wolny koniec języka między 1,6–1,9 cm) wykazywała prawidłową wymowę, natomiast wszyscy pacjenci zakwalifikowani do grupy z najcięższą postacią ankyloglosji mieli wadę wymowy (18).

Również w badaniach Fletchera i Meldrum oraz Garcii wystąpiła korelacja między krótkim wędzidełkiem a dysglosją językową, np. rotacyzmem (29, 56). W badaniu przeprowadzonym wśród 1402 pacjentów, u 9,1% stwierdzono zmienione wędzidełko. W tej wyodrębnionej grupie u 48,8% pacjentów stwierdzono problemy z wymową takie jak: pomijanie fonemu r, zniekształcenia r, l, s, z oraz seplenienie boczne i przednie (57).

W doniesieniach naukowych ukazywały się bardzo rozbieżne poglądy na temat konieczności zabiegu chirurgicznego na wędzidełku ze wskazań logopedycznych, począwszy od kwalifikowania go jako błędu w sztuce lekarskiej, do przedstawiania licznych wskazań do zabiegu (16, 53). Piśmiennictwo wskazuje na istnienie korelacji między zaburzeniami wymowy a ankyloglosją, natomiast nie ma statystycznie istotnych dowodów na istnienie relacji przyczynowo-skutkowej. Profilaktyczne skrócenie wędzidełka w celu eliminacji ewentualnego późniejszego zaburzenia wymowy nie jest zalecane (14, 54).

W badaniu porównującym wymowę pacjentów przed i po zabiegu korekty wędzidełka uzyskano szybką poprawę błędów polegających na pomijaniu oraz zastępowaniu głoski inną, które zostały zamienione na zniekształcenie, co jest uważane za mniejszy błąd. Uznano, że zaprzestanie zniekształcenia głosek wymaga więcej czasu i pozostaje nawykiem u niektórych pacjentów (59).

W dwóch badaniach po frenulotomii u połowy pacjentów stwierdzono poprawę w wymowie ze względu na większą ruchomość języka oraz większe otwarcie jamy ustnej (48, 50). Ponadto autorzy wielu badań ankietowych donosili o poprawie artykulacji po zabiegach przeprowadzonych na wędzidełku. Ograniczeniami powyższych badań były jednak subiektywność, mała grupa testowa, brak grupy kontrolnej, a także brak weryfikacji.

Ostapiuk wykazała na nagraniach audiowizualnych, że często, mimo tylko lekko dostrzegalnej różnicy w brzmieniu

In a case-control single blind study there were no statistically significant differences with regard to understanding words and sentences or speech fluency in children with ankyloglossia, children with treated ankyloglossia and children in the control group. However, children with ankyloglossia that had not been treated made significantly more articulation errors pronouncing t, d, r, l, but in general, it did not affect the general quality of speech understanding. Articulation errors were observed at a similar incidence among treated and untreated children (55).

A standard test performed in a group of 200 children at the age of 6-12 years demonstrated a relationship between limited mobility of the tongue and presence of speech disturbances, but only in cases of moderate and severe ankyloglossia. The majority of patients with mild ankyloglossia (the free tongue of 1.6–1.9 cm) presented normal pronunciation, but all patients classified as the most severe ankyloglossia had a speech defect (18).

Also in studies by Fletcher and Meldrum and Garcia there was a correlation between a short frenulum and dysglossia, e.g. rhoticism (29, 56). An abnormal frenulum was observed in 9.1% of subjects in a study including 1402 patients. In this group in 48.8% of patients there were speech defects such as: omission of r, abnormal r, l, s, z and frontal and lateral lisp (57).

Scientific reports presented extremely divergent approaches regarding the necessity of a surgical intervention on the frenulum for logopaedic indications – it has been classified as a medical error or, on the other hand, many indications for this procedure have been presented (16, 53). According to the literature there is a correlation between speech disturbances and ankyloglossia, but there is no statistically significant evidence confirming a causal relationship. It is not recommended to shorten the frenulum prophylactically in order to avoid any speech disturbances in the future (14, 54).

In a study comparing speech among patients before and after frenulum correction errors such as omission or replacement of some sounds were rapidly corrected and these sounds were articulated but with deformation, and it is considered to be a less important error. It was concluded that it would take time to refrain from sound deformation and it would remain a habit in some patients (59).

In two studies speech improvement was observed in half of patients after frenulotomy as a result of increased tongue mobility and larger opening of the mouth (48, 50). Additionally, authors of numerous surveys reported that articulation had improved after interventions performed on the frenulum. However, these studies had some limitations like subjectivity, a low number of subjects, no control group and no verification.

Using audio-visual recording Ostapiuk demonstrated that the position of the lips and tongue in patients with ankyloglossia was often atypical while speaking despite only

poszczególnych fonemów, ułożenie warg i języka u pacjentów z ankyloglosją jest nietypowe podczas mówienia. W ten sposób pacjenci kompensują ograniczoną ruchomość i choć wymowa brzmi tak samo i jest zrozumiała, to zostaje uzyskana kosztem symetrii i nierzadko wygody. Autorka uważa, że asymetria ruchu języka jest bezpośrednio, a asymetria warg pośrednio, związana z ograniczoną ruchomością języka w ankyloglosji i popiera konieczność zabiegu na wędzidełku przed wytworzeniem mechanizmów kompensacyjnych w wymowie (53).

Amerykańskie Towarzystwo Mowy, Języka i Słuchu opublikowało artykuł, w którym uczy i zachęca do kompensacyjnego ułożenia języka podczas wymowy typowo problematycznych fonemów i znacznie ogranicza wskazania do zabiegu chirurgicznego.

## Leczenie

W ankyloglosji zaleca się wykonywanie ćwiczeń mięśniowych języka w celu zwiększenia jego zdolności kompensacyjnych. Przy znacząco ograniczonej ruchomości języka wędzidełko może być skorygowane trzema rodzajami zabiegów chirurgicznych. Frenulotomia to przecięcie wędzidełka i gojenie przez ziarninowanie; frenektomia to całkowite wycięcie wędzidełka; frenuloplastyka to różne metody jego korekty. Zalecane są również pooperacyjne ćwiczenia mięśnia języka (60). Frenulotomia jest bezpieczną i efektywną metodą rozwiązania problemów karmienia skojarzonych z ankyloglosją (61). U noworodków do 3 miesiąca życia może być wykonywana bez znieczulenia lub w znieczuleniu powierzchniowym (62). Starsze dzieci powinno się przed zabiegiem znieczulić. Obecność asymptomatycznej ankyloglosji nie wymaga leczenia (45).

## Inne zależności

W literaturze postulowano, że przetrwały niemowlęcy typ połykania może mieć przyczynę w niemożności uniesienia języka spowodowanego ankyloglosją. Jednak w badaniach Ruffoli nie zostało to potwierdzone – pacjenci z niemowlęcym typem połykania nie wykazali skróconego wędzidełka statystycznie częściej niż pacjenci z prawidłowym wzorcem przełykania (18). Istnieje jednak możliwość występowania nietypowego połykania, jak również ograniczenia w prawidłowym formowaniu kęsa pokarmowego i przeprowadzania go do tyłu jamy ustnej, co może skutkować problemami żołądkowymi (16, 24, 49, 60, 63). Niemożność wykonania zabiegów higienizacyjnych jamy ustnej może prowadzić do większego zagrożenia próchnicą. Należy również rozważyć aspekty społeczne ograniczonej ruchomości języka.

Ankyloglosja zazwyczaj współistnieje z wyższą i doprzednią pozycją kości gnykowej, jako rezultat nadmiernego napięcia mięśni nadgnykowych, co pociąga za sobą mięśnie

a mildly visible difference in sounds of individual phonemes. Using this approach patients compensate limited mobility and although speech is similar and understandable, it has been achieved at the expense of symmetry and comfort, in many cases. According to the author asymmetry of the tongue motion is directly and of the lips - indirectly associated with limited mobility of the tongue in ankyloglossia and she concludes it is necessary to perform a surgical intervention on the frenulum before compensatory mechanisms in speech have been formed (53).

The American Speech-Language-Hearing Association has published an article teaching and encouraging to position a tongue in a compensatory position while pronouncing typical problematic phonemes and significantly limits indications for a surgical intervention.

## Treatment

In ankyloglossia it is recommended to perform tongue muscle exercises in order to increase its compensatory abilities. When the tongue mobility is significantly limited the frenulum may be corrected with three types of surgical procedures. Frenulotomy is the procedure in which the frenulum is cut and healing depends on granulation tissue; frenectomy is the procedure in which the frenulum is completely cut out and frenuloplasty is the procedure to correct the frenulum using various methods. Tongue exercises after a surgery are also recommended (60). Frenulotomy is a safe and effective method to solve feeding problems associated with ankyloglossia (61). In neonates below 3 months old it may be performed without anaesthesia or in local anaesthesia (62). Anaesthesia is necessary in older children. Asymptomatic ankyloglossia does not have to be treated (45).

## Other relationships

The literature states that permanent immature swallowing may be caused by the fact that the tongue cannot be lifted due to ankyloglossia. However, in the studies by Ruffoli it has not been confirmed – patients with immature swallowing did not have a shortened frenulum more frequently than patients who a normal swallowing pattern (18). Nonetheless, an atypical swallowing pattern may also be observed, as well as limitations regarding normal bolus formation and passing it to the back of the mouth, and as a result, gastric problems may develop (16, 24, 49, 60, 63). As it is not possible to apply hygiene to the inside of the mouth a patient may be at a higher risk for caries. Social aspects of limited tongue mobility also have to be taken into account.

Ankyloglossia usually coexists with a higher position of the hyoid bone located more anteriorly due to excessive tension of the suprahyoid muscles, as a result, there is pulling of the infrahyoid muscles connected to the sternum, clavicles

*Ankyloglossia – a literature review*

podgnykowe połączone z mostkiem, obojczykami i łopatkami, krtanią i osierdziem przez powięź szyjną. W rezultacie może to prowadzić do zaburzenia postawy ciała i objawiać się jako hiperlordoza odcinka szyjnego z pogłębioną kifozą piersiowego lub jako hiperlordoza odcinka lędźwiowego, albo prowadzić do nachylenia doprzedniego głowy z wyprostowaniem odcinka szyjnego (63, 64).

Istnieją doniesienia o częstym współwystępowaniu ankyloglosji z przemieszczeniem nagłośni oraz krtani objawiające się u noworodków dusznością oraz defektami skłory, a u dorosłych – niewydolnością oddechową oraz chrapaniem (38, 65).

W piśmiennictwie są opisywane przypadki ankyloglosji współistniejącej z recesją dziąsłową od strony językowej (66, 67). Wykazano również statystycznie ważną korelację ich występowania, natomiast nie istnieją dowody potwierdzające tezę, że ankyloglosja powoduje ich powstawanie (4).

and shoulder blades, larynx and pericardium via a cervical fascia. As a result, it may lead to a disturbed body posture and manifest as cervical hyperlordosis with deepened thoracic kyphosis, or as lumbar hyperlordosis, or lead to anterior inclination of the head combined with straightening of the cervical spine (63, 64).

There are reports on frequent coexistence of ankyloglossia and dislocation of the epiglottis and larynx manifesting as dyspnoea and skin defects in neonates and as respiratory failure and snoring in adults (38, 65).

Literature presents cases of ankyloglossia combined with gingival recession from the lingual side (66, 67). Additionally, a statistically important correlation between these conditions has been demonstrated, but there is no evidence to confirm a thesis that ankyloglossia is responsible for their development (4).

**Tab. 1. Zestawienie najważniejszych informacji na temat ankyloglosji**

*Tab. 1. List of the most important information on ankyloglossia*

<b>Częstość występowania:</b> 0,02–10,7% (chłopcy 1,5–3 razy częściej)	<b>Incidence:</b> 0.02–10.7% (1.5–3 times more frequently in boys)
<b>Kryteria diagnostyczne:</b> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Kotlow: długość części wolnej języka od końca języka do przyczepu wędzidełka poniżej 16 mm.</li> <li>• Ruffoli: wędzidełko języka krótsze niż 20 mm.</li> <li>• Marchesan: procentowy stosunek amplitudy rozwarcia jamy ustnej z językiem umiejscowionym na brodawce podniebiennej do amplitudy rozwarcia jamy ustnej z językiem na dnie jamy ustnej mniejszy niż 40%.</li> <li>• Hazelbaker: kryteria wyglądu wędzidełka i czynności języka.</li> </ul>	<b>Diagnostic criteria:</b> <ul style="list-style-type: none"> <li>• <i>Kotlow: the length of the free tongue between the tip of the tongue to the attachment of the lingual frenulum below 16 mm.</i></li> <li>• <i>Ruffoli: the lingual frenulum shorter than 20 mm.</i></li> <li>• <i>Marchesan: a percentage ratio of the amplitude of the maximal opening of the mouth with the tongue placed on the incisive papilla and the amplitude of the maximal opening of the mouth with the tongue placed on the floor of the mouth lower than 40%.</i></li> <li>• <i>Hazelbaker: criteria including frenulum appearance and tongue functions.</i></li> </ul>
<b>Wpływ na budowę układu stomatognatycznego:</b> Predylekcja do wad zgryzu III klasy, zgryzu krzyżowego na tle zwężenia górnego łuku zębowego lub poszerzenia dolnego łuku zębowego.	<b>Effects on the structure of the stomatognathic system:</b> <i>Predilection for class III occlusal defects, crossbite due to narrowing of the upper dental arch or widening of the lower dental arch</i>
<b>Wpływ na czynność układu stomatognatycznego:</b> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Utrudnione ssanie (podczas karmienia piersią).</li> <li>• Nieprawidłowa wymowa: <ul style="list-style-type: none"> <li>• omijanie lub zniekształcanie głosek r, t, d, l, s, ś, ć, ź, dź, sz, cz, dż, ż</li> <li>• seplenienie boczne i przednie.</li> </ul> </li> <li>• Nietypowe połykanie.</li> <li>• Trudności w formowaniu kęsa pokarmowego.</li> </ul>	<b>Effects on the functions of the stomatognathic system:</b> <ul style="list-style-type: none"> <li>• <i>Sucking more difficult (while breastfeeding)</i></li> <li>• <i>Abnormal speech:</i> <ul style="list-style-type: none"> <li>• <i>omitting or deforming following sounds: r, t, d, l, s, ś, ć, ź, dź, sz, cz, dż, ż</i></li> <li>• <i>lateral and anterior lisp.</i></li> </ul> </li> <li>• <i>Atypical swallowing.</i></li> <li>• <i>Problems forming a bolus.</i></li> </ul>
<b>Leczenie:</b> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Ćwiczenia mięśni języka.</li> <li>• Frenulotomia.</li> <li>• Frenulektomia.</li> <li>• Frenuloplastyka.</li> </ul>	<b>Treatment:</b> <ul style="list-style-type: none"> <li>• <i>Tongue muscle exercises.</i></li> <li>• <i>Frenulotomy.</i></li> <li>• <i>Frenulectomy.</i></li> <li>• <i>Frenuloplasty.</i></li> </ul>

## Podsumowanie

Brak jednoznacznej definicji oraz jednolitej klasyfikacji ankyloglosji tłumaczy różnorodność wyników badań nad jej powszechnością oraz konsekwencjami. Najbardziej uznany wydaje się być negatywny wpływ krótkiego wędzidełka na czynność ssania u noworodków. Dotychczas wykonano tylko kilka badań na temat związku ankyloglosji z wadami zgryzu i wadliwą wymową, i na dodatek są to badania na niewielkich grupach. Wydaje się, że anomalie wędzidełka predysponują do wadliwej artykulacji i do kompensacyjnej wymowy niektórych fonemów oraz korelują z nieprawidłowościami zgryzu. Niewiele jest natomiast obiektywnych danych potwierdzających te zależności. Dlatego istnieje potrzeba ujednoczenia klasyfikacji oraz dalszych badań, aby wyjaśnić wpływ zaburzeń wędzidełka i ustalić jednoznaczne kryteria wskazań do zabiegu chirurgicznego z przyczyn ortodontycznych lub logopedycznych.

## Summary

As there is no unequivocal definition or unanimous classification of ankyloglossia the results of studies on its incidence and consequences are so varied. Negative effects of ankyloglossia on sucking in neonates have been confirmed the most frequently. So far, there have only been few studies on relationships between ankyloglossia and occlusal defects or speech disorders, and additionally, these studies included small groups. It seems that frenulum anomalies predispose to incorrect articulation and to compensatory pronunciation of some phonemes and correlate with occlusal defects. However, there are few objective data confirming such correlations. Therefore it is necessary to standardise classifications and to conduct further studies in order to explain the effects of frenulum abnormalities and to determine unanimous criteria for indications for a surgical procedure for orthodontic or logopaedic reasons.

## Piśmiennictwo / References

- Segan LM, Stephenson S, Dawes M, Feldman. Prevalence, diagnosis, and treatment of ankyloglossia. Methodologic review. *Can Fam Physician* 2007; 53: 1027-33.
- Ballard JL, Auer CE, Khoury JC. Ankyloglossia assessment, incidence and effect of frenuloplasty on the breastfeeding. *Pediatrics* 2002; 110:e63.
- Messner AH, Lalakea ML. Ankyloglossia: controversies in management. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2000; 54: 123-31.
- Suter V, Bornstein MM. Ankyloglossia: Facts and myths in diagnosis and treatment. *J Periodontol* 2009; 80: 1204-19.
- Moore GE, Ivens A, Chambers J, Farrall M, Williamson R, Page DC et al. Linkage of an X-chromosome cleft palate gene. *Nature* 1987; 326: 91-2.
- Hacham-Zadeh S, Garfunkel AA. Kindler syndrome in two related Kurdish families. *Am J Med Genet* 1985; 20: 43-8.
- Burdick AB, Ma LA, Dai ZH, Gao NN. Van der Woude syndrome in two families in China. *J Craniofac Genet Dev Biol* 1987; 7: 413-8.
- Saeid M, Mobin Y, Reza R, Ali AP, Mohsen G. Familial ankyloglossia (tongue-tie): a case report. *Acta Medica Iranica* 2010; 48: 123-4.
- Meinecke P, Blunck W, Rodewald A. Smith-Lemli-Opitz syndrome. *Am J Med Genet* 1987; 28: 735-9.
- Neri G, Gurrieri F, Zanni G, Lin A. Clinical and molecular aspects of the Simpson Golabi Behmel syndrome. *Am J Med Genet* 1998; 79: 279-83.
- 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: 179-83.
- Kantaputra PN, Paramee M, Kaewkhampa A et al. Cleft lip with cleft palate, ankyloglossia, and hypodontia are associated with TBX22 mutations. *J Dent Res* 2011; 90: 450-55.
- Soo-Hyung H, Min-Cheol K, Yun-Seok C, Jin-Soo L, Ki-Taik Ha. A study on the genetic inheritance of ankyloglossia based on pedigree analysis. *Arch Plast Surg* 2012; 39: 329-32.
- Wallace AF. Tongue tie. *Lancet* 1963; 2: 377-8.
- Marchesan IQ. Lingual frenulum: quantitative evaluation proposal. *Int J Orofacial Myol* 2005; 31: 39-48.
- Kotlow LA. Ankyloglossia (tongue-tie): A diagnostic and treatment quandary. *Quintessence Int* 1999; 30: 259-62.
- Jamilian A, Fattahi FH, Kootanayi NG. Ankyloglossia and tongue mobility. *Eur Arch Paediatr Dent* 2014; 15: 33-5.
- Ruffoli R, Giambelluca MA, Scavuzzo MC, Bonfigli D, Cristofani R., Gabriele M, Giuca MR, Giannessi F. Ankyloglossia: a morphofunctional investigation in children. *Oral Diseases* 2005; 11: 170-4.
- Hazelbaker A. Assessment Tool for Lingual Frenulum Function (ATLFF); Use in a lactation consultant's private practice. Pacific Oaks College. Pasadena 1993.
- Catlin FI. Tongue-tie. *Arch Otolaryngol* 1971; 94: 548-57.
- Genna CW. The influence of anatomic and structural issues on sucking skills. In: Supporting sucking skills in breastfeeding infants. Burlington, MA: Jones & Barlett Publishers 2007: 197-242.
- 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. *Pediatrics* 2008; 122: 188-94.
- Miranda BH, Milroy CJ. A quick snip – a study of the impact of outpatient tongue tie release on neonatal growth and breastfeeding. *J Plast Reconstr Aesthet Surg* 2010; 63: 683-5.
- Henry L, Hayman R. Ankyloglossia and its impact on breastfeeding. *Nurs Womens Health* 2014; 18: 122-9.

*Ankyloglossia – a literature review*

25. Edmunds J, Miles SC, Fulbrook P. Tongue-tie and breastfeeding: a review of the literature. *Breastfeed Rev* 2011; 19: 19-26.
26. Berry J, Griffiths M, Westcott C. A double-blind, randomized, controlled trial of tongue-tie division and its immediate effect on breastfeeding. *Breastfeed Med* 2012; 7: 189-93.
27. Buryk M, Bloom D, Shope T. Efficacy of neonatal release of ankyloglossia: a randomized trial. *Pediatrics* 2011; 128: 280-8.
28. Amir L, James JP, Beatty J. Review of tongue-tie release at a tertiary maternity hospital. *J Paediatr and Child Health* 2005; 41: 243-5.
29. Garcia MJ, Garcia M, Garcia JM. A study of pathology associated with short lingual frenum. *ASDC J Dent Child* 2002; 69: 59-62.
30. Proffit WR, Fields HW. *Contemporary Orthodontics*. Mosby Elsevier 2009.
31. Moss ML, Rankow RM. The role of the functional matrix in mandibular growth. *Angle Orthod* 1968; 38: 95-103.
32. Hopkin GB. Neonatal and adult tongue dimensions. *Angle Orthod* 1967; 37: 132-3.
33. Horton CE, Crawford HH, Adamson JE, Ashbell TS. Tongue-tie. *Cleft Palate J* 1969; 6: 8-23
34. Tuerk M, Lubit EC. Ankyloglossia. *Plast Reconstr Surg Transplant Bull* 1959; 24: 271-6.
35. Douglas B. The treatment of micrognathia associated with obstruction by a plastic operation: a twenty-year follow-up report. *J Am Med Womens Assoc* 1966; 21: 1027-33.
36. Jang SJ, Cha BK, Ngan P, Choi DS, Lee SK, Jang I. Relationship between the lingual frenulum and craniofacial morphology in adults. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2011; 139: e361-7.
37. Meenakshi S, Jagannathan N. Assessment of lingual frenulum lengths in skeletal malocclusion. *J Clin Diagn Res* 2014; 8: 202-4.
38. Mukai S, Mukai C, Asaoka K. Congenital ankyloglossia with deviation of the epiglottis and larynx: symptoms and respiratory function in adults. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1993; 102: 620-4.
39. Strader RJ, House RE. Treatment of tongue ankylosis with Z-plasty. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1966; 22: 120-4.
40. Proffit WR, Mason RM. Myofunctional therapy for tongue-thrusting: background and recommendations. *J Am Dent Assoc* 1975; 90: 403-11.
41. Srinivasan B, Chitharanjan AB. Skeletal and dental characteristics in subjects with ankyloglossia. *Prog Orthod* 2013; 7: 14-44.
42. Mazzocchi A, Cline F. Short lingual frenum: clinical and therapeutic considerations. *Pediatr Med Chir* 1992; 12: 643-6.
43. Kaczmarek A, Łysiak-Seichter M. Ankyloglossja i jej wpływ na powstawanie wad zgryzu – przegląd piśmiennictwa, opis przypadków. *Forum Ortod* 2005; 1: 133-41.
44. Defabianis P. Ankyloglossia and its influence on maxillary and mandibular development (A seven year follow-up case report). *Funct Orthod* 2000; 17: 25-33.
45. Łysiak-Seichter M. Transverse arch changes in cases of ankyloglossia. Dissertation, Ernst-Moritz-Arndt-Universität Greifswald 2008.
46. Williams WN, Waldron CM. Assessment of lingual function when ankyloglossia (tongue-tie) is suspected. *J Am Dent Assoc* 1985; 110: 353-6.
47. Lalakea ML, Messner AH. Ankyloglossia: does it matter? *Pediatr Clin N Am* 2003; 50: 381-97.
48. Messner AH, Lalakea ML. The effect of ankyloglossia on speech in children. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2002; 127: 539-45.
49. Wright JE. Tongue-tie. *J Paediatr Child Health* 1995; 31: 276-8.
50. Marchesan IQ, Lopes de Castro Martinelli R, Gusmão RJ. Lingual frenulum: changes after frenectomy. *J Soc Bras Fonoaudiol* 2012; 24: 409-12.
51. Marchesan IQ, Teixeira AD, Cattoni DM. Correlations between different lingual frenulums and speech disorders. *Rev Disturb da Comun* 2010; 22: 3.
52. Ostapiuk B. Poglądy na temat ruchomości języka w ankyloglosji a potrzeby artykulacyjne. *Ann Acad Med Stetin* 2006; 3: 37-47.
53. Ostapiuk B. Asymmetry in sound production in persons with ankyloglossia. *Logopedia* 2010; 39/40: 113-37.
54. Webb AN, Hao W, Hong P. The effect of tongue-tie division on breastfeeding and speech articulation: A systematic review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2013; 77: 635-46.
55. Dollberg S, Manor Y, Makai E, Botzer E. Evaluation of speech intelligibility in children with tongue-tie. *Acta Paediatrica* 2011; 100: e125-7.
56. Fletcher SG, Meldrum J R. Lingual function and relative length of the lingual frenulum. *J Speech Hear Res* 1968; 11: 282-90.
57. Marchesan IQ. Lingual frenulum: classification and speech interference. *Int J Orofacial Myology* 2004; 30: 31-8.
58. Mitrinowicz-Modrzejewska A, Głuchota wieku dziecięcego. *PZWL* 1968.
59. Ito Y, Nakamura T, Takatama C. Effectiveness of tongue-tie division for speech disorder in children. *Pediatr Int* 2014.
60. Mayur S, Bhattad MS, Baliga K, Kriplani R. Clinical Guidelines and Management of Ankyloglossia with 1-Year Followup: Report of 3 Cases. *Case Reports in Dentistry* 2013.
61. Segal LM, Stephenson R, Dawes M, Feldman P. Prevalence, diagnosis, and treatment of ankyloglossia. *Can Fam Physician* 2007; 53: 1027-33.
62. Division of Ankyloglossia (Tongue-Tie) for Breastfeeding. National Institute for Health and Clinical Excellence 2005.
63. Olivi G, Signore A, Olivi M, Genovese MD. Lingual frenectomy: functional evaluation and new therapeutical approach. *Eur J Paediatr Dent* 2012; 13: 101-6.
64. Scoppa F. Glosso-postural syndrome. *Annali di Stomatologia* 2005; 1: 27-34.
65. Mukai S, Mukai C, Asaoka K. Ankyloglossia with deviation of the epiglottis and larynx. *Ann Otol Rhinol Laryngol Suppl* 1991; 153: 3-20.
66. Ewart NP. A lingual mucogingival problem associated with ankyloglossia: a case report. *N Z Dent J* 1990; 86: 16-7.
67. Chaubal TV, Dixit MB. Ankyloglossia and its management. *J Indian Soc Periodontol* 2011; 15: 270-2.