

Anquiloglossia com a causa de deshidratació hipernatrèmica neonatal

Luis Ruiz-Guzmán^{1,2}, Susana Sadino-Vallvé³, Jesús Almeda-Ortega^{4,5}, Julio Basulto-Marset⁶, Violeta Terrazas-Mejía³, Silvia Maya-Enero⁷

¹ Unitat d'Intervenció en Atenció Primària d'Anquiloglossia (UDIADEN). EAP Disset de Setembre. Servei d'Atenció Primària Delta del Llobregat, Direcció d'Atenció Primària Costa de Ponent, Institut Català de la Salut. El Prat de Llobregat (Barcelona). ² Gavà Salut Familiar. Gavà (Barcelona). ³ Equip de pediatria. Centre d'Atenció Primària Manso, Institut Català de la Salut. Barcelona. ⁴ Unitat de Suport a la Recerca. Direcció d'Atenció Primària Costa de Ponent, Institut Català de la Salut. Cornellà de Llobregat (Barcelona). ⁵ IDIAP Jordi Gol. Universitat Autònoma de Barcelona. Barcelona. ⁶ Facultat de Ciències de la Salut i el Benestar. Universitat de Vic, Universitat Central de Catalunya (UVic-UCC). Vic (Barcelona). ⁷ Secció de Neonatologia. Servei de Pediatria. Hospital del Mar. Barcelona

RESUM

Introducció. L'anquiloglossia és una malformació lingual que pot causar dificultat en els moviments de la llengua i de la mandíbula dels nadons, i que provoca dolor als murgons de la mare, una succió dèbil i una inadequada transferència de llet durant les preses al pit. Això pot ocasionar una pèrdua de pes i un deslletament precoç si no es detecta i no es tracta. Presentem el cas de dos nadons amb anquiloglossia i dificultats en la lactància materna que es van complicar amb una deshidratació hipernatrèmica.

Observació clínica. Ambdós nadons van patir una deshidratació hipernatrèmica sense signes d'infecció als deu dies de vida. Tots dos tenien anquiloglossia, no tractada en el primer cas, i no diagnosticada en el segon. L'anquiloglossia del segon cas es va diagnosticar posteriorment, arran de la presentació del primer. La frenectomia feta al primer cas va permetre la relactació completa, cosa que no es va aconseguir en el segon.

Comentaris. Les dificultats que el tel sublingual curt pot provocar a la lactància poden ocasionar una deshidratació hipernatrèmica greu. És important detectar l'anquiloglossia per poder fer un seguiment estret d'aquests nadons i tractar els casos simptomàtics. L'exploració del tel sublingual hauria de ser sistemàtica en l'exploració física inicial de tots els nounats.

Paraules clau: Anquiloglossia. Lactància materna. Hipogalàctia. Deshidratació. Hipernatrèmia. Nadó.

ANKYLOGLOSSIA COMO CAUSA DE LA DESHIDRATACIÓN HIPERNATRÉMICA NEONATAL

Introducción. La anquiloglossia es una malformación lingual que puede causar dificultad en los movimientos de la lengua y de la mandíbula de los recién nacidos, provocando dolor en los pezones de la madre, una succión débil y una inadecuada transferencia de leche durante las tomas al pecho. Ello puede ocasionar una pérdida de peso y un destete precoz si no se detecta y no se trata. Presentamos el caso de dos recién nacidos con anquiloglossia y dificultades en la lactancia materna que se complicaron con una deshidratación hipernatrémica.

Observación clínica. Ambos sufrieron una deshidratación hipernatrémica sin signos de infección a los diez días de vida. Ambos tenían anquiloglossia, sin tratar en el caso 1 y sin diagnosticar en el caso 2. La anquiloglossia del segundo caso se diagnosticó posteriormente, tras la presentación del primero. La frenectomía realizada en el primer caso permitió la relactación completa, que no se logró en el segundo.

Comentarios. Las dificultades que el frenillo sublingual corto puede provocar en la lactancia pueden ocasionar una deshidratación hipernatrémica grave. Es importante detectar la presencia de anquiloglossia para poder realizar un seguimiento estrecho de estos recién nacidos y tratar los casos sintomáticos. La exploración del frenillo sublingual debería de ser sistemática en la exploración física inicial de todos los neonatos.

Palabras clave: Anquiloglossia. Lactancia materna. Hipogalactia. Deshidratación. Hipernatremia. Recién nacido.

ANKYLOGLOSSIA AS A CAUSE OF NEONATAL HYPERNATREMIC DEHYDRATION

Introduction. Ankyloglossia is a lingual malformation that may cause difficulty in tongue and mandibular movements in the newborn resulting in nipple pain in the mother, weak suction and inadequate milk transfer during breastfeeding, which may lead to weight loss and an early cessation of breastfeeding if undetected and untreated. We report the case of two tongue-tied neonates with breastfeeding difficulties that presented with neonatal hypernatremic dehydration.

Case report. Both infants experienced a hypernatremic dehydration, with no signs of infection, at 10 days of life. Both had ankyloglossia, which was untreated in case 1 and undiagnosed in case 2. The undetected ankyloglossia of case 2 was diagnosed *a posteriori* after the identification of case 1. The frenotomy eventually performed in case 1 enabled complete re-lactation, which was not achieved in case 2.

Comments. Breastfeeding difficulties caused by tongue-tie may lead to severe hypernatremic dehydration. It is important to detect the presence of ankyloglossia in all affected newborns so that symptomatic cases can be closely monitored and treated. Screening for ankyloglossia should be routinely performed at the initial physical examination of all neonates.

Keywords: Ankyloglossia. Breastfeeding. Hypogalactia. Hypernatremia. Dehydration. Newborn.

Correspondència: Luis Ruiz Guzmán
EAP Disset de Setembre
C/ Empúries, s/n. 08820 El Prat de Llobregat
luruizguz@gmail.com

Treball rebut: 29.06.2020
Treball acceptat: 08.03.2021

Introducció

La pèrdua de fins al 10% del pes de naixement es considera normal els primers dies de vida i és deguda, entre altres causes, a l'adaptació a l'ambient aeri venint d'un ambient hídric (cosa que fa augmentar les pèrdues per evaporació), a l'eliminació de l'excés d'aigua del fetus i a una mala tècnica de lactància o a una tècnica deficient durant els primers tres dies de vida¹. L'establiment d'una adequada producció de llet pot trigar uns dies, tot i que aquest temps s'escurça si es permet el contacte precoç entre mare i nadó, i fer preses freqüents i amb una succió adequada². Els primers dies postpart, la mare produeix calostre en petites quantitats, adequades a la capacitat gàstrica del nadó i a la seva necessitat de nutrients. La lactogènesi II, coneguda com a «pujada de llet», sol començar al cap de tres o quatre dies. El dolor i l'estrès matern poden dificultar l'establiment de la lactància, així com la posició incorrecta al pit i un aferrament inadequat². L'anquiloglossia (o tel sublingual curt) pot dificultar que el nadó s'agafi al pit, i provocar dolor a la mare, una succió dèbil i una inadequada aportació de llet; això afecta la nutrició del lactant, i li ocasiona una pèrdua de pes excessiva i un deslletament precoç³⁻⁴. A la llarga, l'anquiloglossia també pot provocar problemes dentals i de la parla, problemes per a la deglució de sòlids, roncs, apnees i dificultat per a la respiració nasal a causa d'un paladar ogival³⁻⁴.

Presentem dos casos d'anquiloglossia neonatal que il·lustren la possible relació entre les dificultats per a l'alimentació i la deshidratació hipernatrèmica.

Observació clínica

Cas 1

Primera filla d'una mare sana i sense antecedents d'interès, nascuda a terme mitjançant un part instrumentat amb espàtules. Apgar 9-10-10, pes de 3.300 g. Després d'un puerperi sense incidències, es va donar l'alta als tres dies de vida amb un pes de 2.900 g (pèrdua de pes >10%) i lactància materna exclusiva. Als deu dies va ser portada al pediatre per una somnolència marcada, motiu pel qual va ser derivada al servei d'urgències: presentava una afectació de l'estat general (hipoactiva tot i que reactiva), pèrdua de pes del 24% (pesava 2.400 g) i una deshidratació greu (fontanel·la anterior enfonsada, ullerosa i amb signe del plec). Les anàlisis de sang mostraven una acidosi metabòlica (pH 7,23, pCO₂ 45,8 mmHg, bicarbonat 17,2 mmol/L, excés de base -7,5 mmol/L) i una hipernatrèmia greu (176 mmol/L), sense signes d'infecció. Els cultius de sang, de líquid cefalorraquidi (LCR) i d'orina van ser negatius. Es va iniciar una reposició intravenosa de líquids, amb bona resposta clínica i normalització de l'exploració física i neurològica. Es va donar l'alta cinc dies després amb un pes de 2.740 g i

lactància artificial. Als vint-i-cinc dies de vida i amb 3.070 g, es va derivar a una consulta de lactància. Durant les preses se sentien espetecs, hi havia obstrucció nasal i els mugrons de la mare s'envermellien. Es va observar un tel sublingual de tipus 3 segons la classificació de Coryllos⁵, amb anquiloglossia i amb una puntuació de l'aspecte segons Hazelbaker⁶ de 6, així com una retrognàtia i la presència d'un call de succió (Fig. 1). Es va proposar la relactació a la mare: se li van donar consells per millorar la posició al pit, es va tractar amb domperidona, i es va començar a treure llet amb un tirallets i a posar-se el nadó al pit amb mugroneres, perquè no s'agafava bé. Amb tot, va aconseguir una relactació completa en un mes. Es va practicar una frenectomia al nadó als dos mesos, amb la qual cosa va millorar la succió. L'alimentació complementària es va iniciar als sis mesos, amb una bona tolerància als sòlids. El desenvolupament als vuit mesos era normal.

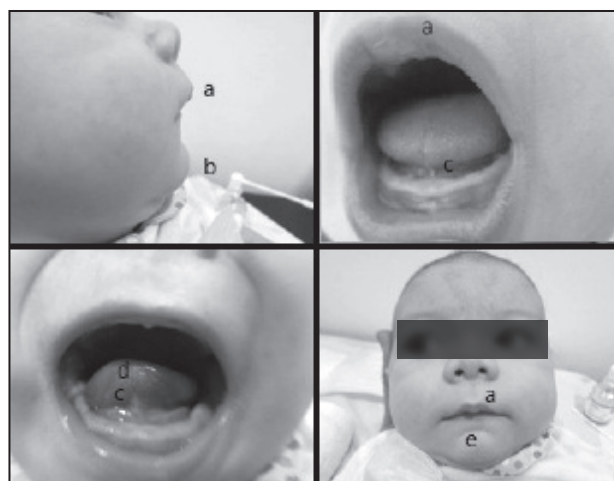


Fig. 1. Manifestacions clíniques del cas 1: call de succió (a), retrognàtia (b), tel sublingual submucós (c) amb anquiloglossia: la llengua no puja cap al paladar (d). A nivell de la cara, s'observa una asimetria (e).

Cas 2

Primera filla d'una mare sana i sense antecedents d'interès, fruit d'una gestació a terme sense incidències. Apgar 9-10-10, pes de 2.950 g. Després d'un puerperi immediat normal, se li va donar l'alta als tres dies de vida amb un pes de 2.680 g (pèrdua del 9,1%) i lactància materna exclusiva a demanda. Als nou dies de vida la va veure el pediatre. Pesava 2.530 g (pèrdua del 14% del pes), es veia francament deshidratada i amb un aspecte general regular, però reactiva. Les anàlisis de sang mostraven una hipernatrèmia (152 mmol/L), sense signes d'infecció. Els cultius van ser negatius. Va rebre fluidoteràpia intravenosa amb una bona resposta clínica i neurològica. Es va donar l'alta als vint-i-un dies de vida, amb lactància artificial. El dia posterior a l'alta el seu pediatre va proposar a la mare la relactació, que va començar als vint-i-vuit dies amb extraccions freqüents i tractament amb domperidona oral. Tot i corregir la posició al pit, les molèsties i l'envermelliment als mugrons persistien. Un mes des-

prés el nadó rebia lactància materna pràcticament exclusiva, amb una presa nocturna de 120 mL de llet adaptada. Va continuar així fins que la mare va decidir deixar la lactància als nou mesos. Als sis mesos es va introduir l'alimentació complementària, amb escopinades freqüents i problemes amb la deglució. Als quatre anys i, arran del diagnòstic del cas 1, se la va citar per fer una exploració. El desenvolupament era normal i s'observava una retrognàtia, un retorçiment de la boca quan l'obria, un paladar ogival, un solc a la llengua i una rotació dels incisius centrals inferiors (Fig. 2). Es va diagnosticar d'un tel sublingual 3 segons Coryllos⁵ amb component submucós. El logopeda va detectar també trastorns de la parla.

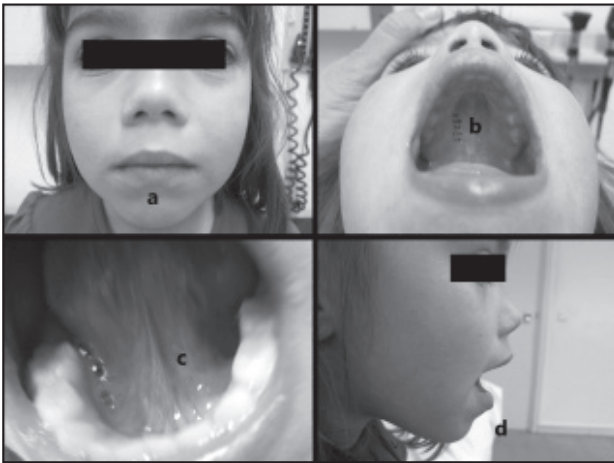


Fig. 2. Manifestacions clíniques del cas 2: asimetria facial (a), paladar ogival (b), tel sublingual submucós (c) i retrognàtia (d).

Discussió

Els dos casos presentats mostren moltes similituds i donen suport a la hipòtesi que l'anquiloglòssia pot condicionar una mala tècnica de lactància i una deshidratació hipernatrèmica neonatal¹. Un aferrament pobre, l'alletament amb horaris prefixats, les pressions familiars i socials, i l'anquiloglòssia s'han associat amb el fracàs de la lactància i la deshidratació neonatal^{1,4}. El dolor durant les preses i les dificultats per a l'extracció de llet que pot ocasionar l'anquiloglòssia poden provocar una pèrdua de pes considerable al nou-nat fins i tot quan la tècnica de lactància és adequada³⁻⁴. La hipogalàctia primària és molt rara, i la producció de llet sol augmentar ràpidament millorant la tècnica de lactància i la postura al pit, com demostren els casos presentats. Tots dos casos eren primers fills de mares sense experiència en alletament, sense suport familiar proper i amb un gran desig d'alletar. Els dos nadons van ingressar per una deshidratació hipernatrèmica als deu dies de vida i les dues mares van poder relactar. Els dos casos tenien un tel sublingual curt i no tenien altres causes aparents de deshidratació. La frenectomia del primer cas va permetre una relactació completa. En el segon, les molèsties maternes van continuar, cosa que va precipitar el deslletament als nou mesos. En ambdós

casos, la presència d'anquiloglòssia i el retard de l'ajuda a la lactància van tenir un paper important en la deshidratació dels nadons. El tipus de tel sublingual era similar en tots dos casos segons la tipificació de Coryllos⁵ i el diagnòstic del segon cas va ser més clínic en no poder utilitzar el mètode de Hazelbaker⁶, destinat a lactants. La utilització de protocols de diagnosi més actuals, com el *Test de la Lengüeta*⁷ o el *Bristol Tongue tie Assessment Tool* en nadons i lactants, i el *Test de la Lengua* per a infants més grans⁸⁻⁹, permetrien identificar de manera objectiva l'anquiloglòssia, que possiblement té una incidència més gran de la suposada¹⁰. Probablement, si l'hospital on van néixer hagués format part de la xarxa Iniciativa Hospital Amic dels Nens, aquesta situació no s'hagués produït.

En resum, es recomana tenir en compte l'anquiloglòssia com a causa d'una deshidratació neonatal greu en nadons amb dificultats en la lactància perquè, a més, el tractament (la frenectomia) és senzill. Cal explorar tots els nadons buscant si tenen o no un tel sublingual curt i tractar els que siguin simptomàtics segons protocols adequats.

Agraïments

Volem agrair al Dr. Alejandro Allepuz, a la Dra. Natalie Garcia, a la Dra. Esther Grunnis i al DUI Norberto Murillo els seus comentaris, aportacions i revisions.

Bibliografia

- Mujawar NS, Jaiswal AN. Hyponatremia in the Neonate: Neonatal Hyponatremia and Hyponatremic Dehydration in Neonates Receiving Exclusive Breastfeeding. *Indian J Crit Care Med.* 2017;21(1):30-3.
- Lactancia materna. Documento de Consenso. Sociedad Española de Ginecología y Obstetricia. Accessible a la xarxa [data de consulta: 6-11-2020]. Disponible a: https://www.aeped.es/sites/default/files/11-sego_doc_de_consenso.pdf.
- Rowan-Legg A. Ankyloglossia and breastfeeding. *Paediatr Child Health.* 2015;20(4):209-18.
- Kumar M, Kalke E. Tongue-tie, breastfeeding difficulties and the role of Frenotomy. *Acta Paediatr.* 2012;101(7):687-9.
- Coryllos EW, Genna CW, Salloum AC. Congenital tongue-tie and its impact on breastfeeding. *American Academy of Pediatrics. Section on breastfeeding;* 2004. Accessible a la xarxa [data de consulta: 28-9-2020]. Disponible a: https://www.researchgate.net/publication/301346077_Congenital_tongue-tie_and_its_impact_on_breastfeeding.
- Walsh J, Tunkel D. Diagnosis and Treatment of Ankyloglossia in Newborns and Infants: A Review. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 2017;143(10):1032-9.
- Lopes de Castro Martinelli R, Queiroz Marchesan I, Lauris JR, Marques Honório H, Jordão Gusmão R, Berretin-Felix G. Validade e confiabilidade da triagem: "teste da linguinha". *Rev CEFAC [revista electrónica].* 2016;18(6):1323-31.
- Ingram J, Johnson D, Copeland M, Churchill C, Taylor H, Emond A. The development of a tongue assessment tool to assist with tongue-tie identification. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed.* 2015;100(4):F344-8.
- Araujo MDCM, Freitas RL, Lima MGS, Kozmhinsky VMDR, Guerra CA, Lima GMS, et al. Evaluation of the lingual frenulum in newborns using two protocols and its association with breastfeeding. *J Pediatr (Rio J).* 2020;96(3):379-85.
- González Jiménez D, Costa Romero M, Riaño Galán I, González Martínez MT, Rodríguez Pando, Lobete Prieto C. Prevalencia de anquiloglòssia en recién nacidos en el Principado de Asturias. *An Pediatr (Barc).* 2014;81(2):115-9.