

DISCLAIMER



Onafhankelijke informatie is niet gratis. Het NTvG investeert veel geld om het hoge niveau van haar artikelen te waarborgen, door een proces van peer-review en redactievoering. Het NTvG kan alleen bestaan als er voldoende betaalde abonnementen zijn. Het is niet de bedoeling dat onze artikelen worden verspreid zonder betaling. Wij rekenen op uw medewerking.

Hemorragische shock na frenulotomie bij een neonaat

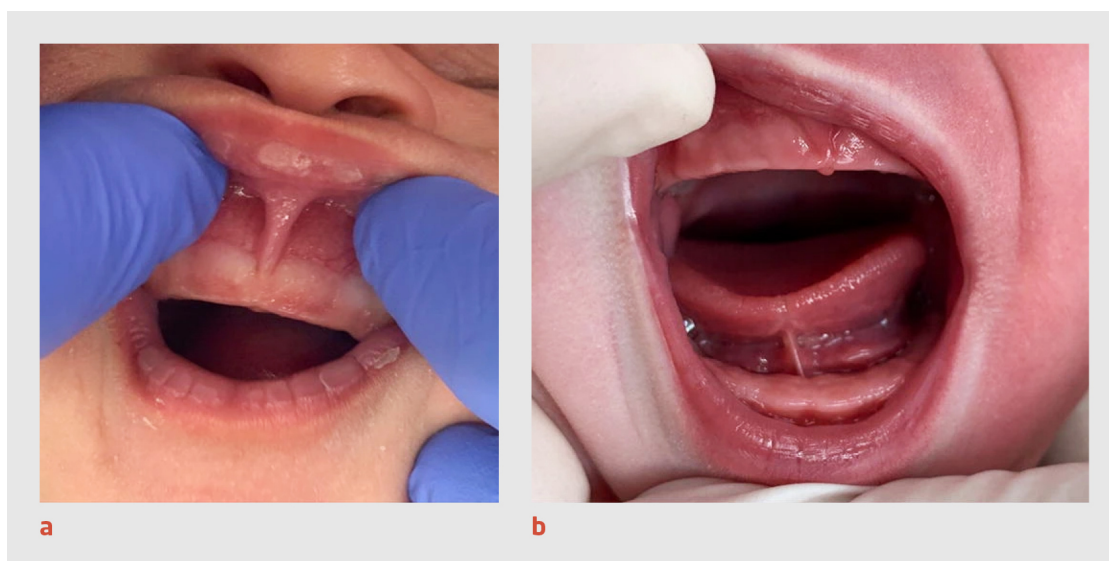
Complicatie na het klieven van frenula van tong en bovenlip

Anne M. Hendriks, Gerbrich N. van der Meulen en Janneke C. van Leeuwen

Beste collega's,

In deze klinische les bespreken we het klieven van het frenulum van de tong en bovenlip bij neonaten. Dit wordt beschouwd als een veilige ingreep die vaak wordt uitgevoerd. Uit de ziektegeschiedenis blijkt echter dat deze ogenschijnlijk onschuldige ingreep soms ernstige gevolgen kan hebben.

Het frenulum is een dun mucoos membraan van de bovenlip en de tong bij neonaten (figuur). Deze frenula verbinden respectievelijk de bovenlip en de bovenkaak, en de tong en de mondbodem. Het klieven van deze structuren heet frenulotomie. Er is geen goede indicatiestelling en onvoldoende bewijs voor de effectiviteit van deze ingreep. Frenulotomie van de tong en bovenlip wordt dus mogelijk meestal ten onrechte uitgevoerd. Aan de hand van de ziektegeschiedenis gaan we in op de indicaties en complicaties van deze ingreep.



Figuur
Het frenulum van de bovenlip en tong

Voorbeeld van het frenulum van (a) de bovenlip en (b) de tong bij neonaten. (Elders gepubliceerde figuur; deze foto's betreffen niet de besproken patiënt.⁷⁾

Patiënt, een jongen van tien dagen oud met een blanco voorgeschiedenis, werd naar de Spoedeisende Hulp gebracht wegens nabloeden uit de bovenlip. De dag ervoor had een verloskundige het bovenlip- en tongfrenulum van de patiënt gekliefd met een stompe schaar. Na het klieven hadden de wonden gedurende vier uur nagebloed. De ouders hadden de verloskundige hierover ingelicht, maar zij stuurde de patiënt niet in naar het ziekenhuis omdat het bloeden op dat moment was gestopt en de patiënt warm en roze van kleur was. Enkele uren later was de wond in de bovenlip opnieuw gaan bloeden, waarna de patiënt werd ingestuurd. Bij aankomst in het ziekenhuis zag de kinderarts een slapende, maar wekbare neonaat met een actieve bloeding in de mond en een bedreigde ademweg door stolselvorming. De patiënt was bleek van kleur en had een gemarmerde huid. Bij lichamelijk onderzoek constateerde de kinderarts een tachycardie van 170/min (referentiewaarde: 110-160), een capillaire refill van 3 s, een niet-afwijkende bloeddruk (71/48 mmHg) en een cardiale systolische soufflé graad 1 over het gehele precordium. Beiderzijds waren pulsaties van de a. femoralis te voelen. Bij de capillaire bloedgasbepaling was de lactaatconcentratie 3,5 mmol/l (referentiewaarden:

0,5-2,2), wat werd geduid als een uiting van circulatoire insufficiëntie. De werkdiaagnose was hemorragische shock bij een actieve bloeding vanuit de bovenlip, als complicatie van het klieven van het bovenlip- en tongfrenulum. Differentiaaldiagnostisch werd gedacht aan een onderliggende stollingsstoornis, zoals een trombopenie, trombopathie, vitamine K-deficiëntie of hemofilie. De patiënt lag in zijligging en de bloeding werd afgedrukt met een gaasje doordrenkt met xylometazoline. Hij kreeg tweemaal 10 ml/kg 0,9% NaCl i.v. toegediend en eenmalig 1 mg vitamine K i.v., om een eventuele vitamine K-deficiëntie te behandelen; daarnaast werd 50 mg tranexaminezuur i.v. gegeven. Hiermee werd hemostase bereikt.

Veneus bloedonderzoek liet een forse anemie zien (tabel), te wijten aan het bloedverlies, waarna direct een erythrocytentransfusie werd toegediend. Het trombocytenaantal en de leverenzymwaarden waren niet afwijkend. De APTT was licht verlengd en de factor VIII-activiteit was verlaagd (30%; referentiewaarde: 50-150). Hierop rees het vermoeden van hemofilie, hoewel de uitslagen ook het gevolg konden zijn van verlies aan stollingsfactoren door het hevige bloedverlies. De familie van moeder is belast met hemofilie A (oom en overgrootvader van moeder). Voorafgaand aan het klieven van het bovenlip- en tongfrenulum waren er geen aanwijzingen geweest voor stollingsproblemen bij de patiënt, zoals nabloeden van de navelstomp en hielprik, of hematomen.

bepaling	uitkomst	referentiewaarde
hemoglobine	5,0	10-14 mmol/l
hematocriet	0,24	0,32-0,44 l/l
trombocyten	261	150-350 × 10 ⁹ /l
ASAT	24	< 77 U/l
ALAT	16	< 49 U/l
LD	187	< 438 U/l
alkalisch fosfatase	138	< 370 U/l
γ-GT	22	< 178 U/l
albumine	23	27,7-46 g/l
APTT	48	28-42 s
PT	12,4	11-15 s
fibrinogeen	2,0	1,25-3,0 g/l
factor VIII-activiteit	30	50-150 %
factor IX-activiteit	31	28-55 %

Tabel
Laboratoriumuitslagen van de veneuze bloedafname

Anderhalf uur na het stelpen van de bloeding begon er opnieuw bloed te sijpelen uit de wond in de bovenlip. Er werd hemostase bereikt door de bloeding eerst af te drukken met een gaasje doordrenkt met xylometazoline en vervolgens met een gaasje doordrenkt met tranexaminezuur. In overleg met de kinderarts-hematoloog werd een plasmatransfusie gegeven en besloten wij tot overplaatsing naar de Neonatale Intensive Care Unit (NICU), voor observatie en eventuele peroperatieve coagulatie of toediening van factorenconcentraat. Op de NICU trad geen bloeding meer op. Tijdens poliklinische controle stelde de kinderarts-hematoloog nog steeds een beperkte activiteit van stollingsfactor VIII vast (14%), passend bij een milde hemofilie A, wat werd bevestigd met mutatieonderzoek. Achteraf gezien blijkt ook de vader van de moeder van de patiënt hemofilie A te hebben.

De ouders van de patiënt waren gedurende het gehele proces aanwezig en waren zichtbaar aangedaan door de dreigende situatie waarin hun zoon zich bevond. Zij twijfelden aan de noodzaak van de frenulotomie, maar hebben deze laten uitvoeren op advies van de kraamverzorgster. Voorafgaand aan het klieven dronk de patiënt voldoende, al had hij volgens de kraamverzorgster een verkeerde drinktechniek. De patiënt kreeg alleen flesvoeding. De verloskundige die het klieven had uitgevoerd beschreef de procedure als 'ongecompliceerd'. Volgens de ouders waren zij voorafgaand aan het klieven niet ingelicht over de mogelijke complicaties en was er niet geïnformeerd naar stollingsziekten in de familie. Deze casus is gemeld bij de Inspectie Gezondheidszorg en Jeugd.

Beschouwing

Ankyloglossie: een te kort, te dik of te strak tongfrenulum

Het tongfrenulum wordt gekleefd als men meent dat de motiliteit van de tong beperkt is (ankyloglossie). Onder ankyloglossie wordt over het algemeen verstaan dat het tongfrenulum te kort, te strak of te dik is, resulterend in beperkte motiliteit van de tong. Er bestaat echter geen eenduidige definitie van ankyloglossie, waardoor er verscheidene diagnostische classificatiesystemen bestaan

die niet gevalideerd zijn.¹ Dit verklaart de grote variatie in de beschreven prevalentie van ankyloglossie; de prevalentiecijfers lopen uiteen van 0,1 tot 12,1%.^{2,3}

De klinische betekenis van ankyloglossie is controversieel.² Ankyloglossie wordt in de literatuur voornamelijk in verband gebracht met borstvoedingsproblemen. Enerzijds omdat baby's met ankyloglossie niet goed zouden kunnen aanhappen aan de tepel en daardoor minder effectief kunnen drinken, anderzijds omdat een verkeerde drinktechniek kan resulteren in tepelpijn bij moeders.³ Het is echter dubieus of er een verband is tussen ankyloglossie en borstvoedingsproblemen. Sommige studies beschrijven een relatie tussen ankyloglossie en slecht drinken aan de borst, terwijl uit andere studies blijkt dat een groot deel van de kinderen met ankyloglossie probleemloos aan de borst drinkt.¹

De effectiviteit van frenulotomie is niet afdoende bewezen

De richtlijn Borstvoeding van het Nederlands Centrum Jeugdgezondheid (NCJ) stelt dat zuigelingen met een korte tongriem, in het geval van borstvoedingsproblemen, naar een bevoegde en bekwame zorgverlener verwezen dienen te worden voor een frenulotomie. Op basis van een systematische review van de beschikbare literatuur wordt er echter geen consistent positief effect beschreven van het klieven van het tongfrenulum op slecht drinken aan de borst.³

De drie studies waarin deze vraagstelling is onderzocht (bij in totaal 213 zuigelingen) zijn vrijwel onvergelykbaar vanwege inconsistentie in de diagnose 'ankyloglossie'. Zij hebben bovendien alle drie methodologische tekortkomingen. Het betreffen kleine studiepopulaties zonder adequate controlegroep en enkel het kortetermijneffect van het klieven van het tongfrenulum op slecht drinken aan de borst werd geanalyseerd.³ Daarnaast worden borstvoedingsproblemen vaak gedefinieerd op basis van de ervaring van de moeder en niet zozeer op het effectief goed drinken, oftewel of het kind voldoende voeding binnenkrijgt om te kunnen groeien.

Ook enkele prospectieve studies die na de systematische review zijn verschenen hebben methodologische problemen. Het uitvoeren van gerandomiseerd onderzoek met langdurige follow-up en een controlegroep zonder interventie is essentieel om het effect van het klieven van het tongfrenulum op slecht drinken aan de borst vast te kunnen stellen.^{3,4}

Er bestaat wel wetenschappelijk bewijs dat het klieven van het tongfrenulum bij de baby op korte termijn tepelpijn reduceert bij moeders die borstvoeding geven.³ Bij oudere kinderen en volwassenen wordt ankyloglossie als mogelijke oorzaak genoemd van spraakvertraging, gebitsproblemen en problemen met het bespelen van blaasinstrumenten, likken en zoenen.^{1,3} Er is echter geen wetenschappelijk bewijs dat dergelijke problemen voorkomen kunnen worden door het tongfrenulum van baby's te klieven.⁵ Het klieven van het bovenlipfrenulum wordt uitgevoerd vanwege vermeend beperkte motiliteit van de bovenlip. Op basis van de beschikbare scoringscriteria bestaat er geen consensus over de vraag wanneer het bovenlipfrenulum te strak is. De indicaties voor het klieven van een bovenlipfrenulum zijn onduidelijk en de effectiviteit van de ingreep is onbekend.^{1,6} In een onderzoek naar de anatomische variaties van het bovenlipfrenulum bij 161 pasgeborenen was de prevalentie van 'de meest strakke' variant ruim 70%. Deze variant ging echter niet gepaard met meer borstvoedingsproblemen.⁶

Zorgen over frenulotomie van de tong en bovenlip bij neonaten

Het klieven van het bovenlip- en tongfrenulum bij neonaten is de afgelopen jaren internationaal gezien exponentieel toegenomen.² Het tongfrenulum wordt vaker gekleefd bij baby's die het eerste kind zijn van ouders die een hoge sociaal-economische status en een private zorgverzekering hebben en die wonen in bepaalde geografische gebieden; dat suggereert overdiagnostiek en overbehandeling.^{2,7} Mogelijke overdiagnostiek en overbehandeling van ankyloglossie blijken ook uit enquêteonderzoek waarin 40% van de verloskundigen en lactatiekundigen, 19% van de tandartsen en slechts 8% van de artsen (voornamelijk kinderartsen en neonatologen) aangeven van mening te zijn dat ankyloglossie samenhangt met borstvoedingsproblemen.⁸ Het klieven van het bovenlip- en tongfrenulum bij neonaten wordt voornamelijk door verloskundigen en tandartsen uitgevoerd na verwijzing van een kraamverzorgster of lactatiekundige, zonder tussenkomst van een arts.

Overbehandeling van ankyloglossie stelt neonaten onnodig bloot aan risico's op complicaties, geeft ouders valse hoop op verbetering van het drinkgedrag en kan leiden tot vertraagde diagnose en behandeling van andere mogelijke oorzaken van slecht drinken.^{2,9} De complicaties van het klieven van het tongfrenulum zijn terugkerende ankyloglossie, slecht drinken, gewichtsverlies, pijn, bloeding, anemie, apneus, ademhalingsproblemen en infecties.^{2,10} Volgens onderzoek in Nieuw-Zeeland is de gemiddelde jaarlijkse incidentie van lichte en ernstige complicaties na het klieven van het tongfrenulum 13,9 per 100.000 kinderen jonger dan een jaar (95%-BI: 7,96-22,6).⁹ Dezelfde studie beschrijft dat bij 75% van de kinderen met complicaties (n = 16) een ziekenhuisopname noodzakelijk was om de complicatie te behandelen; bij 25% was er sprake van een apneu of ander ademhalingsprobleem en bij 13% was toediening van bloedproducten geïndiceerd.⁹

De studiepopulatie in het onderzoek naar de veiligheid van het klieven van het tongfrenulum is te klein om de procedure veilig te

kunnen noemen.³ In een Nederlandse studie met 175 neonaten waren er geen postoperatieve complicaties na het klieven van het bovenlip- of tongfrenulum.⁷ De veiligheid van het klieven van het bovenlipfrenulum wordt verder niet in de literatuur beschreven.

Verklaringen voor slecht drinken aan de borst

Veelvoorkomende oorzaken voor slecht drinken aan de borst zijn prematuriteit, anatomische afwijkingen, neurologische, cardiovasculaire en pulmonale problemen, en maternale factoren.¹ Er wordt aangeraden alleen een frenulotomie uit te voeren bij neonaten bij wie geen alternatieve oorzaak voor de borstvoedingsproblemen kan worden aangetoond.² Een systematische multidisciplinaire benadering van neonaten met drinkproblemen, waarbij ouders technieken leren om met borstvoedingsproblemen om te gaan, is effectief gebleken als het gaat om het minimaliseren van het klieven van het tongfrenulum.^{2,10}

Wat leren we hiervan?

De belangrijkste les die de beschreven casus ons leert, is dat het klieven van het bovenlip- en tongfrenulum ernstige complicaties kan hebben. De patiënt in deze klinisch les had een levensbedreigende hemorragische shock, naast pijn en een kans op infecties. Het klieven wordt veelal uitgevoerd door verloskundigen en tandartsen zonder tussenkomst van een arts. Hierbij worden mogelijke risico's en contra-indicaties ingeschat door hulpverleners die wellicht niet altijd over de benodigde expertise beschikken en die niet geoutilleerd zijn om alle mogelijke complicaties te behandelen.

Hoewel er weinig tot geen bewijs bestaat voor de noodzaak tot frenulotomie, wordt deze handeling op grote schaal uitgevoerd, zelfs bij indicaties die in de literatuur niet in verband worden gebracht met beperkte motiliteit van de tong en bovenlip, zoals problemen met flesvoeding. De patiënt in deze klinische les kreeg echter volledige flesvoeding – wat een andere drinktechniek vereist dan borstvoeding – en kon voldoende drinken, wat aangeeft dat zijn drinktechniek adequaat was.

Beste collega's, zorgverleners dienen zich bewust te zijn van het feit dat het klieven van het bovenlip- en tongfrenulum controversieel is en ernstige complicaties kan hebben. Het optreden van complicaties is in Nederland slechts in een kleine populatie kinderen onderzocht, dus een betere registratie hiervan is wenselijk. We pleiten ervoor dat het klieven van de tong- en bovenlipriem niet meer wordt uitgevoerd bij een kind dat flesvoeding krijgt, aangezien er geen bewijs voor de effectiviteit daarvan bestaat. Het bewijs voor een positief effect van een frenulotomie op effectieve borstvoeding is matig. Zoals eerder beschreven in het *NTvG* is terughoudendheid op zijn plaats zolang er een gebrek is aan overtuigend bewijs voor deze ingreep.⁴ Daarom pleiten wij ervoor om ouders in het geval van borstvoedingsproblemen eerst te verwijzen naar bijvoorbeeld een jeugdarts of lactatiekundige om begeleiding bij de borstvoeding te krijgen. Als de borstvoedingsproblemen daarna blijven bestaan en mogelijke medische oorzaken door een jeugdarts of kinderarts zijn uitgesloten, maar er wel sprake lijkt te zijn van ankyloglossie (waar echter uiteenlopende definities voor bestaan), dan kan een verwijzing voor een eventuele frenulotomie worden overwogen. Hierbij geldt wat ons betreft het gezegde 'bij twijfel niet doen', zeker als het kind borstvoeding krijgt en goed groeit, en dus voldoende voeding binnenkrijgt. De Koninklijke Nederlandse Organisatie van Verloskundigen heeft als standpunt dat een frenulotomie een voorbehouden handeling is waarvoor verloskundigen niet bevoegd zijn. Conform de NCJ-richtlijn adviseren wij dat deze ingreep enkel door bevoegde en bekwaame zorgverleners wordt uitgevoerd, die complicaties van een frenulotomie kunnen herkennen en eventueel behandelen, dan wel adequaat kunnen doorverwijzen.

- Online artikel en reageren op ntvg.nl/D7285
- Martini Ziekenhuis, afd. Kindergeneeskunde, Groningen: dr. A.M. Hendriks, anios (thans: aios kindergeneeskunde Medisch Spectrum Twente, Enschede); drs. G.N. van der Meulen, kinderarts-allergoloog; dr. J.C. van Leeuwen, kinderarts.
- Contact: J.C. van Leeuwen (j.vanleeuwen@mzh.nl)
- Belangenconflict en financiële ondersteuning: geen gemeld.
- Aanvaard op 5 april 2023
- Citeer als: Ned Tijdschr Geneeskd. 2023;167:D7285

Literatuur

1. Messner AH, Walsh J, Rosenfeld RM, et al. Clinical Consensus Statement: Ankyloglossia in children. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2020;162:597-611. [doi:10.1177/0194599820915457](https://doi.org/10.1177/0194599820915457). [Medline](#)
2. Van Biervliet S, Van Winkel M, Vande Velde S, De Bruyne R, D'Hondt M. Primum non nocere: lingual frenotomy for breastfeeding problems, not as innocent as generally accepted. *Eur J Pediatr.* 2020;179:1191-5. [doi:10.1007/s00431-020-03705-5](https://doi.org/10.1007/s00431-020-03705-5). [Medline](#)
3. O'Shea JE, Foster JP, O'Donnell CP, et al. Frenotomy for tongue-tie in newborn infants. *Cochrane Database Syst Rev.* 2017; (3):CD011065. [Medline](#).
4. Bekhof J. [Tongriem over de tong: klieven of niet?](#) *Ned Tijdschr Geneeskd.* 2021;165:D6026. [Medline](#).
5. Chinnadurai S, Francis DO, Epstein RA, Morad A, Kohanim S, McPheeters M. Treatment of ankyloglossia for reasons other than

- breastfeeding: a systematic review. *Pediatrics*. 2015;135:e1467-74. [doi:10.1542/peds.2015-0660](https://doi.org/10.1542/peds.2015-0660). [Medline](#)
6. Razdan R, Callahan S, Saggio R, Chafin M, Carr MM. Maxillary frenulum in newborns: association with breastfeeding. *Otolaryngol - Head Neck Surg (United States)*. 2020;162:954-8.
 7. Slagter KW, Raghoobar GM, Hamming I, Meijer J, Vissink A. Effect of frenotomy on breastfeeding and reflux: results from the BRIEF prospective longitudinal cohort study. *Clin Oral Investig*. 2021;25:3431-9. [doi:10.1007/s00784-020-03665-y](https://doi.org/10.1007/s00784-020-03665-y). [Medline](#)
 8. Jin RR, Sutcliffe A, Vento M, et al. What does the world think of ankyloglossia? *Acta Paediatr*. 2018;107:1733-8. [doi:10.1111/apa.14242](https://doi.org/10.1111/apa.14242). [Medline](#)
 9. Hale M, Mills N, Edmonds L, et al. Complications following frenotomy for ankyloglossia: a 24-month prospective New Zealand paediatric surveillance unit study. *J Paediatr Child Health*. 2020;56:557-62. [doi:10.1111/jpc.14682](https://doi.org/10.1111/jpc.14682). [Medline](#)
 10. Solis-Pazmino P, Kim GS, Lincango-Naranjo E, Prokop L, Ponce OJ, Truong MT. Major complications after tongue-tie release: a case report and systematic review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2020;138:110356. [doi:10.1016/j.ijporl.2020.110356](https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2020.110356). [Medline](#)

Kernpunten

- Er is geen goede indicatiestelling en onvoldoende bewijs voor de effectiviteit van het klieven van het bovenlip- en tongfrenulum bij neonaten, een handeling die laagdrempelig op grote schaal wordt uitgevoerd.
- Het klieven van het bovenlip- en tongfrenulum bij neonaten kan ernstige complicaties hebben; over de frequentie en ernst van deze complicaties is onvoldoende bekend.
- Het klieven van het tongfrenulum dient alleen overwogen te worden nadat een medische oorzaak van borstvoedingsproblemen is uitgesloten en mogelijke contra-indicaties voor het klieven in kaart zijn gebracht.