



Boletín Médico del Hospital Infantil de México

www.elsevier.es/bmhim



TEMA PEDIÁTRICO

Macroglosia congénita: características clínicas y estrategias de tratamiento en la edad pediátrica



Paulina María Núñez-Martínez^a, Constanza García-Delgado^a,
Verónica Fabiola Morán-Barroso^a y Luis Jasso-Gutiérrez^{b,*}

^a Departamento de Genética, Hospital Infantil de México Federico Gómez, Ciudad de México, México

^b Departamento de evaluación y análisis de medicamentos, Hospital Infantil de México Federico Gómez, Ciudad de México, México

Recibido el 25 de febrero de 2016; aceptado el 25 de marzo de 2016

Disponible en Internet el 4 de junio de 2016

PALABRAS CLAVE

Lengua;
Macroglosia;
Glossectomía

Resumen La macroglosia congénita es una condición que se caracteriza por una lengua que en posición de reposo protruye más allá del borde alveolar; se ha clasificado en dos categorías: verdadera, que puede ser congénita o adquirida, y relativa. Debido a la asociación de esta alteración con múltiples causas, su incidencia es variable. Es más frecuente que la macroglosia se asocie con el síndrome de Beckwith-Wiedemann, con las mucopolisacaridosis y con la enfermedad de Pompe, y con menor frecuencia a linfangioma, hemangioma o hipertrofia muscular aislada. La macroglosia se caracteriza por una lengua alargada, engrosada o ancha, protruida crónicamente en reposo, con presencia o no de fisuras y úlceras, alteraciones del lenguaje, dificultad para la alimentación y deglución, sialorrea e infecciones recurrentes de la vía respiratoria superior u obstrucción de la misma. Su valoración en niños debe iniciarse con una historia clínica y exploración física completas y con la elaboración de un árbol genealógico de al menos tres generaciones, además de investigar la presencia o no de una entidad sindrómica. Se han propuesto más de 20 técnicas quirúrgicas para resolver la macroglosia congénita; sin embargo, a la fecha no existe consenso para la aplicación de una técnica en particular para reducir su tamaño. En esta revisión se pretende destacar los aspectos clínicos y quirúrgicos de la macroglosia, desde la perspectiva de pediatras no cirujanos y genetistas, dirigido a la comunidad de especialistas médicos que atiende a estos pacientes incluyendo a los cirujanos maxilofaciales que atienden a estos pacientes.

© 2016 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Publicado por Masson Doyma México S.A. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licencias/by-nc-nd/4.0/>).

* Autor para correspondencia.

Correos electrónicos: jassogut@prodigy.net.mx, vmoran@himfg.edu.mx (L. Jasso-Gutiérrez).

KEYWORDS

Tongue;
Macroglossia;
Glossectomy

Congenital macroglossia: clinical features and therapeutic strategies in paediatric patients

Abstract Congenital macroglossia is a condition that consists in an enlarged tongue that in resting position protrudes beyond the alveolar ridge. It has been classified in two categories: true macroglossia, which occurs in congenital or acquired forms, and relative macroglossia. As this alteration may be due to different causes, its incidence is not known. It is more frequently associated to Beckwith-Wiedemann syndrome, to mucopolysaccharidosis diseases and to Pompe's disease, and it has been less frequently associated to lymphangioma, hemangioma or isolated muscular hypertrophy. Macroglossia is characterized by an enlarged and thick tongue that may have fissures and ulcers, may cause language alterations, difficulties for feeding and swallowing, sialorrhea and recurrent infections of the upper airway or even its obstruction. Its clinical evaluation must include a complete clinical chart with careful physical exploration and a pedigree of that may identify the presence or absence of a hereditary associated syndrome. Macroglossia management is complex. More than twenty different surgical options to reduce the tongue size have been proposed, however, so far there is not a general agreement in this respect. The objective of this work is to review clinical and surgical aspects related to macroglossia from the point of view of non-surgical pediatricians and genetists, addressed to the different medical specialists, including the maxillofacial surgeons involved in the management of these patients.

© 2016 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Published by Masson Doyma México S.A. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

1. Desarrollo embriológico de la lengua

La lengua se desarrolla a partir de una serie de engrosamientos ventrales (en el piso de la faringe)¹ que ocurren en la cuarta semana de gestación y un par de engrosamientos laterales y uno medial (el tubérculo impar) que tienen lugar en la quinta semana de gestación. Estos engrosamientos están en la cara interna de los arcos mandibulares originados a partir del primer arco branquial², de tal forma que su fusión queda finalmente representada por el surco medio de la lengua³. Por detrás del tubérculo impar hay otra elevación media de mayor tamaño llamada eminencia hipobranquial, que está formada por mesodermo a partir del segundo, tercero y parte del cuarto arcos branquiales⁴.

El crecimiento del cuerpo de la lengua es producto de la expansión de los engrosamientos linguales laterales y del tubérculo impar, que se unen para formar los dos tercios anteriores del cuerpo de la lengua. La raíz de la lengua se deriva de la eminencia hipobranquial y del tejido ventromedial². La línea de fusión de las porciones anterior y posterior de la lengua queda indicada por el surco en forma de V, llamado surco terminal³.

El mesénquima de los arcos branquiales forma el tejido conectivo y los vasos sanguíneos y linfáticos¹. Los músculos intrínsecos de la lengua se desarrollan a partir de mioblastos de las somitas occipitales^{1,5}. Durante la migración de estas células se expresa el gen *PAX-3*^{4,5}. La inervación de los dos tercios anteriores de la lengua está dada por el quinto par craneal (derivado del primer arco branquial), mientras que el tercio posterior se encuentra inervado por el noveno (derivado del tercer arco branquial) y el décimo par craneal. La inervación motora proviene del noveno y del décimo segundo par craneal³.

2. Definición y clasificación de la macroglosia

La lengua es una estructura de la cavidad oral indispensable para la producción del lenguaje, la deglución y la respiración^{6,7}. El mayor crecimiento de la lengua ocurre en los primeros 8 años de vida, alcanzando su tamaño final a los 18; en el caso de los varones es en promedio de 25.3 cm³ y en las mujeres de 22.6 cm³^{8,9}, aunque no se han establecido medidas que estén en relación con los grupos etarios de la niñez¹.

Se acepta que la macroglosia se refiere a una lengua que en posición de reposo protruye más allá del borde alveolar¹⁰, como se muestra en la [figura 1](#). Esta alteración es importante en la práctica pediátrica por las complicaciones que su presentación congénita puede ocasionar, por lo que es necesario detectar si corresponde a una entidad aislada o a una presentación sindrómica (donde se requeriría realizar asesoramiento genético). Ambas situaciones son trascendentales para decidir el curso de acción en cuanto a vigilancia y necesidad de intervención quirúrgica.



Figura 1 Macroglosia en un paciente con síndrome de Beckwith-Wiedemann.

La macroglosia puede causar deformaciones dento-músculo-esqueléticas, alteraciones en la masticación, el lenguaje y obstrucción de las vías aéreas. El entendimiento de los signos y síntomas orienta al diagnóstico y al posible tratamiento de los pacientes; además, ayuda a ubicar a aquellos que puedan beneficiarse de un tratamiento quirúrgico, ya sea para mejorar la función, la estabilidad de las condiciones dentales o solo por un aspecto estético (cuando no exista una indicación quirúrgica precisa)⁹.

La clasificación de la macroglosia realizada por Vogel y colaboradores en 1986¹¹, que aún se encuentra en uso, considera dos categorías: la verdadera y la relativa. La primera, que puede ser de origen congénito o adquirido, es ocasionada por una condición primaria de la lengua o por una alteración sistémica, y sus alteraciones histológicas se correlacionan con los hallazgos clínicos de una lengua alargada. La variedad relativa se debe a una cavidad oral pequeña o a una disfunción neurológica, como sucede con los niños con síndrome de Down, quienes por la hipotonía que presentan tienden a mantener la boca abierta y a protruir la lengua^{11,12}. La segunda clasificación, descrita por Myer y colaboradores en el mismo año¹³, cataloga la macroglosia como generalizada o localizada, subdividiéndola posteriormente de acuerdo con su etiología en congénita, inflamatoria, traumática, metabólica y neoplásica¹².

3. Etiología de la macroglosia

Debido a su asociación con múltiples síndromes genéticos, se desconoce la verdadera incidencia de esta alteración¹⁰. Una estrategia de agrupación con respecto a la etiología que tal vez sea la más adecuada es la referida por Balaji¹⁴, quien la clasifica de acuerdo con sus causas en sobrecrecimiento tisular, como el síndrome de Beckwith-Wiedemann (SBW), el hipotiroidismo congénito, anormalidades cromosómicas, hemihiperplasia y mucopolisacaridosis, entre otras; infiltrado tisular, como es el caso de malformaciones linfáticas o venosas, hemangiomas, neoplasias, mucopolisacaridosis y neurofibromatosis; macroglosia relativa, como en el síndrome de Down, micrognatia, hipotonía muscular y angioedema; por último, causas inflamatorias o infecciosas.

Dentro de las causas más comunes de la macroglosia se encuentran el hemangioma, la hiperplasia glandular y el linfangioma. Este último (con origen en los vasos linfáticos y de etiología desconocida) se ubica en el 75% de los casos en la cabeza y el cuello, y su aparición en la cavidad oral es poco frecuente; sin embargo, cuando está presente se localiza en las dos terceras partes de la superficie dorsal y en el borde lateral de la lengua^{15,16}. Los hemangiomas se localizan en la cabeza y el cuello aproximadamente en el 60% de los casos, y con mucha menor frecuencia en encías, labios, lengua o paladar¹⁷. Entre las causas menos frecuentes de macroglosia están algunos tumores, como el quiste dermoide o el rabdomioma^{7,18}.

La macroglosia está frecuentemente asociada con el SBW, con las mucopolisacaridosis o con la enfermedad de Pompe; puede encontrarse en múltiples síndromes de origen genético^{8,10,11,19}. Por ejemplo, en el Hospital Infantil de México Federico Gómez, el estudio de Moreno-Salgado y colaboradores²⁰ identificó 19 pacientes con SBW entre enero de 2007 y diciembre de 2012, de los cuales el 89%

presentaba macroglosia. En el caso de la macroglosia adquirida, las causas pueden ser de origen sistémico, por ejemplo amiloidosis, mixedema, linfoma o carcinoma, o por cambios reactivos locales como puede suceder en el edema angioneurótico^{8,11}.

4. Manifestaciones clínicas y complicaciones

Para determinar si es necesaria la realización de una glossectomía, es importante identificar los signos y síntomas de la macroglosia⁹: la presencia de una lengua alargada, engrosada o ancha, mordida abierta anterior o posterior, presencia de prognatismo, mala oclusión con o sin mordida cruzada, protrusión crónica de la lengua en reposo, fisuras y úlceras. También debe considerarse la presencia de glositis propiciada por el predominio de una respiración oral, así como alteraciones del lenguaje, especialmente problemas de articulación, asimetría de los arcos maxilares o mandibulares, dificultad para la alimentación y deglución, sialorrea, infecciones recurrentes de la vía respiratoria superior, obstrucción de las vías aéreas y apnea del sueño^{10,11,19-21}.

Debido a su relación con la apariencia física, la macroglosia tiene implicaciones estéticas, ya que puede percibirse como una discapacidad intelectual, lo cual genera angustia en los familiares y en el paciente¹. Mediante técnicas radiográficas se puede apreciar si la lengua ocupa toda la cavidad oral, si protruye a través de una mordida anterior abierta, si existe protrusión mandibular dentoalveolar o protrusión dentoalveolar bimaxilar, sobreangulación de los dientes mandibulares y maxilares anteriores y un crecimiento mandibular excesivo y desproporcionado⁹.

El abordaje inicial para identificar la presencia de macroglosia debe sustentarse en criterios clínicos subjetivos (como la morfología y la protrusión de la lengua) y en las alteraciones en la articulación, deglución y respiración^{7,21,22}. Posteriormente, la evaluación deberá iniciarse con una historia clínica y exploración física completa, que incluya un árbol genealógico de al menos tres generaciones²³. De acuerdo con la etiología sospechada, pueden solicitarse análisis de laboratorio como pruebas de función tiroidea, cariotipo y tamiz metabólico ampliado y estudios de gabinete (radiografías laterales de cráneo o resonancia magnética). Estos estudios apoyarán el diagnóstico de macroglosia al mostrar una lengua que ocupa toda la cavidad oral y protruye más allá del borde alveolar en posición de reposo. También se deberán solicitar pruebas funcionales para identificar alteraciones en el lenguaje, en la masticación o en la permeabilidad de las vías aéreas^{6,9,10,24}. Estudios invasivos como las biopsias pueden utilizarse en lesiones localizadas de la lengua para el diagnóstico de neoplasias y enfermedades de origen sistémico²³. Cuando se sospecha que la macroglosia puede estar asociada con entidades sindrómicas, es necesario efectuar un proceso diagnóstico complejo debido a la gran diversidad de síndromes relacionados con esta alteración. Se ha propuesto un algoritmo diagnóstico para la macroglosia, donde se clasifica como aislada, probable SBW o asociada con otra entidad sindrómica. A todos los pacientes se les debe realizar, al menos, un ultrasonido abdominal para descartar otras manifestaciones clínicas del SBW, ya que es el síndrome que se asocia con mayor frecuencia con macroglosia¹⁰.

El enfoque del diagnóstico y del tratamiento debe ser multidisciplinario para reducir el riesgo de alteraciones maxilofaciales permanentes y del lenguaje²³. El tratamiento médico incluye medidas conservadoras para reducir la inflamación y el sangrado; por ejemplo, en el traumatismo por mordeduras^{15,16,24} o en los linfangiomas, en los que se pueden utilizar agentes esclerosantes, crioterapia, electrocauterización, esteroides y embolización, entre otros^{15,16}. Esto permite corregir complicaciones como obstrucción de las vías aéreas, alteraciones en la articulación del lenguaje, deformación mandibular, deformidades dentales y estéticas, tratando siempre de preservar el gusto, la sensibilidad y el movimiento de la lengua^{7,11,16,24}. Para la elección del tratamiento se deben considerar el tipo y tamaño de la malformación, las estructuras anatómicas involucradas y la infiltración del tejido circundante¹⁶.

En algunos casos de macroglosia, el tratamiento de elección es quirúrgico. Una indicación absoluta para este es la obstrucción de las vías aéreas, y como indicación relativa se encuentra la disfagia o alteración de la deglución secundaria a la macroglosia^{19,24}. Aún no hay criterios clínicos precisos indicativos de glossectomía reportados en la literatura; sin embargo, existen casos de macroglosia adquirida donde los síntomas son tan importantes que se requiere realizar procedimientos quirúrgicos aunados al tratamiento de la enfermedad de base²⁵. La decisión del tratamiento quirúrgico se debe tomar en tres situaciones: presencia de déficits funcionales (alteración de la deglución, articulación del lenguaje, sialorrea u obstrucción de la vía aérea); alteraciones dentales secundarias a la macroglosia; y repercusión psicológica debido a la apariencia física del paciente, lo cual da una impresión falsa de discapacidad mental^{7,26}.

Las técnicas quirúrgicas reportadas en la literatura pueden dividirse en dos grupos: glossectomía a lo largo de la línea media y glossectomía periférica⁷. Sin embargo, no existe un consenso donde se recomiende en particular alguna de ellas, por lo que todos los pacientes deben ser valorados por un experto para seleccionar la más adecuada²⁶. Una de estas técnicas es la incisión periférica con resección marginal del tejido, cuyas complicaciones pueden ser la hipomovilidad y cambios en la forma de la lengua que adquiere un aspecto globular¹⁸. Las incisiones en forma de V en la línea media son efectivas para disminuir la longitud; sin embargo, el ancho no se modifica. Las incisiones elípticas en la línea media sin llegar al ápex de la lengua disminuyen lo ancho pero no lo largo¹⁸. La resección de las porciones centrales de la lengua se ha recomendado para preservar el lenguaje, sensación y gusto²⁷. Cuando en el tratamiento quirúrgico se combinan la incisión en forma de V y la elíptica, se denomina incisión en forma de ojo de cerradura; esta disminuye tanto en lo ancho como en lo largo el tamaño de la lengua. En las revisiones más recientes se promueve evitar la escisión de la punta de la lengua por ser la porción más móvil y sensible²⁵.

En la revisión que reporta Balaji¹⁴, se informa que en las intervenciones quirúrgicas que existen para la glossectomía es recomendable preservar la punta y el borde lateral de la lengua por ser áreas de vital importancia. La forma final de la punta de la lengua es importante estéticamente tanto para el paciente como para sus padres, además de que es el sitio para la identificación de los sabores. La preservación de los bordes laterales evita que se produzca una fibrosis de la musculatura de la lengua.

Se ha propuesto que la edad óptima para el tratamiento quirúrgico es entre 4 y 7 años de edad; sin embargo, puede ser necesaria la corrección en etapas más tempranas si las complicaciones de la macroglosia ponen en riesgo la vida del paciente¹².

Las principales complicaciones postquirúrgicas son la alteración del movimiento y la disminución del gusto, principalmente en la detección de sabores salados y amargos²⁸. Finalmente, es importante considerar que todo paciente que se haya sometido a una glossectomía deberá ser sujeto a terapias de lenguaje que intenten reparar o mejorar los déficits²⁷.

La bibliografía anexa con respecto a la glossectomía en niños con macroglosia de distintas causas²⁹⁻⁵⁰ muestra que no existe un consenso en cuanto a la mejor técnica quirúrgica para corregir esta alteración, aun en los casos de igual etiología.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Referencias

- Hall JG, Allanson JE, Gripp KW, Slavotinek AM. Chapter 7: Craniofacies. En: Handbook of physical measurements. New York: Oxford University Press; 2007. p. 175-6, <http://dx.doi.org/10.1136/adc.2007.124057>
- Mueller DT, Callanan VP. Congenital malformations of the oral cavity. *Otolaryngol Clin North Am.* 2007;40:141-60.
- Moore KL, Persaud TVN. El Aparato Faríngeo. En: Embriología clínica. España: Elsevier; 2004. p. 217-20.
- Carlson BM. Cabeza y Cuello. En: Embriología humana y biología del desarrollo. España: Elsevier; 2005. p. 344-5.
- Sadler TW. Head and Neck. En: Sun B, editor. Langman's medical embryology. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2004. p. 382-90.
- Ruscello DM, Douglas C, Tyson T, Durkee M. Macroglossia: a case study. *J Commun Disord.* 2005;38:109-22.
- Gasparini G, Saltarel A, Carboni A, Maggiulli F, Becelli R. Surgical management of macroglossia: Discussion of 7 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2002;94:566-71.
- Martínez LP. Macroglosia: Etiología multifactorial, manejo múltiple. *Colomb Med.* 2006;37:67-73.
- Wolford LM, Cottrell DA. Diagnosis of macroglossia and indications for reduction glossectomy. *Am J Orthod Dentofacial Orthop.* 1996;110:170-7.
- Prada CE, Zarate YA, Hopkin RJ. Genetic Causes of Macroglossia: Diagnostic Approach. *Pediatrics.* 2012;129:e431-7, <http://dx.doi.org/10.1542/peds.2011-1732>
- Vogel JE, Mulliken JB, Kaban LB. Macroglossia: a review of the condition and a new classification. *Plast Reconstr Surg.* 1986;78:715-23.
- Okoro PE, Akadiri OA. Giant macroglossia with persistent nonocclusion in a neonate. *Afr J Paediatr Surg.* 2011;8:229-31, <http://dx.doi.org/10.4103/0189-6725.86070>
- Myer CM 3rd, Hotaling AJ, Reilly JS. The diagnosis and treatment of macroglossia in children. *Ear Nose Throat J.* 1986;65:444-8.
- Balaji SM. Reduction glossectomy for large tongues. *Ann Maxillofac Surg.* 2013;3:167-72, <http://dx.doi.org/10.4103/2231-0746.119230>
- Usha V, Sivasankari T, Jeelani S, Asokan GS, Parthiban J. Lymphangioma of the tongue - a case report and review of literature. *J Clin Diagn Res.* 2014;8:12-4, <http://dx.doi.org/10.7860/JCDR/2014/9890.4792>

16. Yesil S, Bozkurt C, Tanyildiz HG, Tekgunduz SA, Candir MO, Toprak S, et al. Successful treatment of macroglossia due to lymphatic malformation with sirolimus. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2015;124:820–3, <http://dx.doi.org/10.1177/0003489415583330>
17. Reddy KV, Roohi S, Maloth KN, Sunitha K, Thummala VS. Lipoma or hemangioma: A diagnostic dilemma? *Contemp Clin Dent*. 2015;6:266–9, <http://dx.doi.org/10.4103/0976-237X.156064>
18. Araújo PCS, Pereira BMC, Almeida da Silva R, Hacomas dos Santos D, Naruhito TM. Surgical treatment of congenital true macroglossia. *Case Rep Dent*. 2013;2013:1–5, <http://dx.doi.org/10.1155/2013/489194>
19. Shott SR. Surgical management of macroglossia in children. *Operat Tech Otolaryngol Head Neck Surg*. 2001;12:210–3, [http://dx.doi.org/10.1016/S1043-1810\(01\)80023-3](http://dx.doi.org/10.1016/S1043-1810(01)80023-3)
20. Moreno-Salgado R, García-Delgado C, Cervantes-Peredo A, García-Morales L, Martínez-Barrera LE, Peñaloza-Espinosa R, Morán-Barroso VF. Perfil clínico de una cohorte de pacientes con síndrome de Beckwith-Wiedemann atendidos en el Hospital Infantil de México Federico Gómez de 2007 a 2012. *Bol Med Hosp Infant Mex*. 2013;70:166–73.
21. Gorlin RJ. Tongue. En: Stevenson RE, Hall JG, editores. *Human malformations and related anomalies*. New York: Oxford University Press; 2006. p. 405–8.
22. García de Guilarte RF, Fröhner BB, Urcelay PR, Nájera RC, Meli BG, Enríquez de Salamanca Celada J. An idiopathic case of macroglossia. *J Plast Reconstr Aesthet Surg*. 2009;62:41–3, <http://dx.doi.org/10.1016/j.bjps.2007.10.091>
23. Ueyama Y, Mano T, Nishiyama A, Tsukamoto G, Shintani S, Matsumura T. Effects of surgical reduction of the tongue. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 1999;37:490–5.
24. Murthy P, Laing MR. Macroglossia. *BMJ*. 1994;309:1386–7.
25. Perkins JA. Overview of macroglossia and its treatment. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg*. 2009;17:460–5, <http://dx.doi.org/10.1097/MOO.0b013e3283317f89>
26. Matsumoto K, Morita K, Jinno S, Omura K. Sensory changes after tongue reduction for macroglossia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2014;117:1–2, <http://dx.doi.org/10.1016/j.oooo.2012.02.037>
27. Dios PD, Posse JI, Sanroman JF, García EV. Treatment of macroglossia in a child with Beckwith-Wiedemann syndrome. *J Oral Maxillofac Surg*. 2000;58:1058–61.
28. Kovach TA, Kang DR, Triplett RG. Massive Macroglossia secondary to angioedema: a review and presentation of a case. *J Oral Maxillofac Surg*. 2015;73:905–17, <http://dx.doi.org/10.1016/j.joms.2014.12.029>
29. Matsune K, Miyoshi K, Kosaki R, Ohashi H, Maeda T. Taste after reduction of the tongue in Beckwith-Wiedemann syndrome. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2006;44:49–51.
30. Hikita R, Kobayashi Y, Tsuji M, Kawamoto T, Moriyama K. Long-term orthodontic and surgical treatment and stability of a patient with Beckwith-Wiedemann syndrome. *Am J Orthod Dentofacial Orthop*. 2014;145:672–84, <http://dx.doi.org/10.1016/j.ajodo.2013.08.019>
31. Boku A, Tachibana K, Shinjo T, Hanamoto H, Takeuchi M, Kinouchi K. Perioperative management of tongue reduction surgery for macroglossia associated with Beckwith-Wiedemann syndrome - A retrospective evaluation of 14 patients. *Masui*. 2013;62:416–20.
32. Heggie AA, Vujcich NJ, Portnof JE, Morgan AT. Tongue reduction for macroglossia in Beckwith Wiedemann syndrome: review and application of new technique. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2013;42:185–91, <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijom.2012.09.003>
33. Kittur MA, Padgett J, Drake D. Management of macroglossia in Beckwith-Wiedemann syndrome. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2013;51:6–8, <http://dx.doi.org/10.1016/j.bjoms.2012.01.015>
34. Abeleira MT, Seoane-Romero JM, Outumuro M, Caamaño F, Suárez D, Carmona IT. A multidisciplinary approach to the treatment of oral manifestations associated with Beckwith-Wiedemann syndrome: a long-term case report. *J Am Dent Assoc*. 2011;142:1357–64.
35. Kadouch DJ, Maas SM, Dubois L, van der Horst CM. Surgical treatment of macroglossia in patients with Beckwith-Wiedemann syndrome: a 20-year experience and review of the literature. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2012;41:300–8, <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijom.2011.10.021>
36. Chau H, Soma M, Massey S, Hewitt R, Hartley B. Anterior tongue reduction surgery for paediatric macroglossia. *J Laryngol Otol*. 2011;125:1247–50, <http://dx.doi.org/10.1017/S0022215111002015>
37. Shipster C, Morgan A, Dunaway D. Psychosocial, feeding, and drooling outcomes in children with Beckwith Wiedemann syndrome following tongue reduction surgery. *Cleft Palate Craniofac J*. 2012;49:e25–34, <http://dx.doi.org/10.1597/10-232>
38. Krsić D, Radović P, Burić N, Drasić D, Pešić Z, Videnović G. Macroglossia and Beckwith-Wiedemann syndrome. *Srp Arh Celok Lek*. 2011;139:366–9.
39. Hettinger PC, Denny AD. Double stellate tongue reduction: a new method of treatment for macroglossia in patients with Beckwith-wiedemann syndrome. *Ann Plast Surg*. 2011;67:240–4, <http://dx.doi.org/10.1097/SAP.0b013e3181f77a83>
40. Van Lierde KM, Mortier G, Huysman E, Vermeersch H. Long-term impact of tongue reduction on speech intelligibility, articulation and oromyofunctional behaviour in a child with Beckwith-Wiedemann syndrome. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2010;74:309–18, <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2009.12.006>
41. Yilmaz M, Mercan H, Karaman E, Kaytaz A. Tongue reduction in Beckwith-Wiedemann syndrome with CO(2) laser. *J Craniofac Surg*. 2009;20:1202–3, <http://dx.doi.org/10.1097/SCS.0b013e3181acdd72>
42. Tomlinson JK, Morse SA, Bernard SP, Greensmith AL, Meara JG. Long-term outcomes of surgical tongue reduction in Beckwith-Wiedemann syndrome. *Plast Reconstr Surg*. 2007;119(3):992–1002.
43. Kamata S, Kamiyama M, Sawai T, Nose K, Usui N, Kawahara H, et al. Assessment of obstructive apnea by using polysomnography and surgical treatment in patients with Beckwith-Wiedemann syndrome. *J Pediatr Surg*. 2005;40:E17–9.
44. Wang J, Goodger NM, Pogrel MA. The role of tongue reduction. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2003;95:269–73.
45. Giancotti A, Romanini G, Di Girolamo R, Arcuri C. A less-invasive approach with orthodontic treatment in Beckwith-Wiedemann patients. *Orthod Craniofac Res*. 2002;5:59–63.
46. Miyawaki S, Oya S, Noguchi H, Takano-Yamamoto T. Long-term changes in dentoskeletal pattern in a case with Beckwith-Wiedemann syndrome following tongue reduction and orthodontic treatment. *Angle Orthod*. 2000;70:326–31.
47. Mixer RC, Ewanowski SJ, Carson LV. Central tongue reduction for macroglossia. *Plast Reconstr Surg*. 1993;91:1159–62.
48. Friede H, Figueroa AA. The Beckwith-Wiedemann syndrome: a longitudinal study of the macroglossia and dentofacial complex. *J Craniofac Genet Dev Biol Suppl*. 1985;1:179–87.
49. Pau M, Reinbacher KE, Feichtinger M, Kärcher H. Surgical treatment of macroglossia caused by systemic primary amyloidosis. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2013;42:294–7, <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijom.2012.05.015>
50. Bochlogyros PN. [Indications for the surgical management of macroglossia in children]. *Hell Period Stomat Gnathopathoprosopike Cheir*. 1989;4:157–64.