



**UNIVERSIDAD  
DE GRANADA**

**EFFECTOS DE LOS EJERCICIOS OROFARÍNGEOS (TERAPIA MIOFUNCIONAL) EN EL PACIENTE CON SÍNDROME DE APNEA HIPOPNEA DEL SUEÑO Y RONQUIDO SIMPLE.**

**Programa de Doctorado en Medicina Clínica y Salud Pública.**

**Facultad de Medicina. Universidad de Granada.**

**TESIS DOCTORAL**

**Laura Rodríguez Alcalá**

**DIRECTORES**

**Raquel Ríos Fernández**

**Francisco Javier Gómez Jiménez**

Editor: Universidad de Granada. Tesis Doctorales  
Autor: Laura Rodríguez Alcalá  
ISBN: 978-84-1117-466-4  
URI: <http://hdl.handle.net/10481/76798>

## ÍNDICE

<b>1. INTRODUCCIÓN</b> .....	<b>7</b>
<b>1. IMPORTANCIA DEL SÍNDROME DE APNEAS-HIPOPNEAS DEL SUEÑO (SAHOS) COMO PROBLEMA DE SALUD PÚBLICA</b> .....	<b>8</b>
<b>1.1. Epidemiología</b> .....	<b>8</b>
<b>1.2. Definiciones</b> .....	<b>10</b>
<b>1.3. Anatomía de la vía aérea superior en el adulto y niño con síndrome de apneas-hiponeas del sueño.</b> .....	<b>11</b>
<b>1.4. Fisiopatología del SAHS</b> .....	<b>21</b>
<b>2. JUSTIFICACIÓN</b> .....	<b>35</b>
<b>3. OBJETIVOS</b> .....	<b>40</b>
<b>4. PACIENTES Y MÉTODOS</b> .....	<b>42</b>
<b>4.1. Criterios de inclusión</b> .....	<b>43</b>
<b>4.2. Criterios de exclusión</b> .....	<b>43</b>
<b>4.4. Estudio del sueño</b> .....	<b>45</b>
<b>4.5. Tratamiento del SAHOS y Ronquido simple con la App AirwayGym</b> ....	<b>46</b>
<b>4.6. Estudio de apraxias linguales</b> .....	<b>46</b>
<b>4.7. Prueba de figura con el instrumento de estereognosis intraoral Profono (ISI)</b> .....	<b>47</b>
<b>4.8. IOPI</b> .....	<b>47</b>
<b>4.9. Cuestionarios</b> .....	<b>48</b>
<b>4.10. Variables recogidas</b> .....	<b>48</b>
<b>4.11. Análisis estadístico</b> .....	<b>49</b>
<b>5. RESULTADOS</b> .....	<b>51</b>
<b>6. DISCUSIÓN</b> .....	<b>62</b>
<b>6.1. Limitaciones</b> .....	<b>67</b>
<b>7. CONCLUSIONES</b> .....	<b>68</b>
<b>8. ANEXOS</b> .....	<b>70</b>
<b>9. BIBLIOGRAFÍA</b> .....	<b>87</b>

# AGRADECIMIENTOS

Tras concluir esta Tesis Doctoral, que representa un objetivo muy importante en mi vida profesional, es momento de recordar a esas personas que han dado fruto a este trabajo.

A mis directores de tesis:

Al Profesor Francisco Javier Gómez, por guiarme y facilitarme estos años de intenso trabajo, por haberme formado como Médico en la Universidad de Granada a la que le tengo especial cariño, y poder coincidir en esta meta de mi vida profesional.

A la Profesora Raquel Ríos, por su contribución fundamental en la realización de esta investigación. Por su orientación y supervisión, y sobre todo, por su ejemplo investigador y humano.

A todo el Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Universitario Clínico San Cecilio de Granada, que me ha visto nacer y crecer en mis andaduras como Otorrinolaringóloga. Gracias a vuestro apoyo y cariño he podido desarrollar mi proyecto de investigación.

A mis padres, a los que les debo mucho más que la vida. Porque sois nuestro ejemplo a seguir. Por vuestro amor y por enseñarnos desde pequeñas que las cosas, aunque requieren esfuerzo y trabajo, siempre llegan.

A mi hermana gemela Cristina, por ser mi espejo diario y mi mejor amiga. Juntas logramos nuestra mayor meta en la vida, y ahora, a pesar de la distancia, seguimos creciendo con el apoyo incondicional de la otra.

Y por último, y con mención especial, a la persona que se ha convertido en mi maestro, mi compañero y mi jefe, el Dr. Carlos O'connor Reina. Porque gracias a él descubrí el papel de Otorrinolaringólogo en la Apnea del Sueño. El desarrollo de este proyecto de investigación nunca se hubiera plasmado sin su experiencia, dedicación y pasión que dio fruto a su creación digital AirwayGym.

# ABREVIATURAS

AOS: apnea obstructiva del sueño

AASM: american academy of sleep medicine

App: aplicación

ATM: articulación temporomandibular

CI: consentimiento informado

CPAP: continuous positive airway pressure

DAM: dispositivo de avance mandibular

ECA: ensayo clínico aleatorizado

ECV: enfermedad cerebrovascular

ESS: epworth sleepiness scale

EVA: escala análoga visual

FM: función de masticación

FML: fuerza máxima de los labios

IAH: índice de apnea-hipopnea

IMC: índice de masa corporal

IOPI: iowa oral performance instrument

ISI: instrumento de esteroagnosia

VAS: vía aérea superior

LG: loop gain.

MTP: presión máxima de la lengua

NOSE: nasal obstruction symptom evaluation

ODI: índice de desaturación de oxígeno

Pcrit: presión crítica de cierre

PSG: polisomnografía

RDI: respiratory disturbance index

RMN: resonancia magnética nuclear

RMS: rehabilitación sensoriomotora de los músculos

RP: ronquidio primario

SAHOS: síndrome de apneas-hipopneas del sueño

TM: terapia miofuncional

TRS: trastorno respiratorio del sueño

VAS: vías respiratorias superiores

# **1. INTRODUCCIÓN**



# **1. IMPORTANCIA DEL SÍNDROME DE APNEAS-HIPOPNEAS DEL SUEÑO (SAHOS) COMO PROBLEMA DE SALUD PÚBLICA**

## **1.1. Epidemiología**

El síndrome de apnea hipopnea del sueño (SAHS) es un problema de salud pública caracterizado por episodios repetitivos de oclusión de la vía aérea durante el sueño asociados con ronquidos, la fragmentación del sueño, hipersomnolencia diurna y aumento del riesgo cardiovascular<sup>1,2</sup>.

La apnea obstructiva del sueño es el trastorno respiratorio (TRS) más común después del insomnio. El colapso que ocurre a nivel faríngeo puede ser completo (causando apnea) o parcial (causando hipopnea). Las alteraciones en el intercambio de gases conducen a la desaturación de oxígeno, la hipercapnia y la fragmentación del sueño, lo que contribuye a las consecuencias de la apnea obstructiva del sueño, por ejemplo, efectos cardiovasculares, metabólicos y neurocognitivos. Aunque existen varios tratamientos, a menudo son mal tolerados o sólo alivian parcialmente los síntomas. Por lo tanto, se necesita mejorar la adherencia del paciente a los tratamientos existentes y el desarrollo de nuevos tratamientos (o combinaciones de tratamientos), porque, aunque la progresión de la enfermedad es poco conocida, los estudios sobre el tema sugieren que el grado de enfermedad tiende a incrementarse<sup>3</sup>.

En vista de la pandemia de obesidad, es probable que aumente la propensión al colapso faríngeo y, por lo tanto, el número de casos de apnea obstructiva del sueño. A diferencia de la prevalencia de SAHS, su incidencia (los casos nuevos que aparecen en un intervalo de tiempo) se desconoce<sup>3</sup>.

El estudio histórico que investigó la prevalencia de la apnea obstructiva del sueño fue el Estudio de cohorte del sueño de Wisconsin de 1993<sup>4</sup>. Este estudio informó que la prevalencia de la AOS, definida como más de cinco apneas o hipopneas por hora de sueño, más somnolencia diurna excesiva, fue del 4% en hombres y 2% en mujeres de edades comprendidas entre 30 a 60 años. Los estudios posteriores sugieren que la prevalencia en los países de altos ingresos es más alta de lo que se informó anteriormente (10% en mujeres y 20% en hombres)<sup>5,6</sup>.

Aunque la prevalencia está aumentando en los países desarrollados especialmente por el aumento de la obesidad en nuestra sociedad, como demuestran Peppard y cols.<sup>5</sup>, nos encontramos ante un problema de salud global; Brasil y varios países asiáticos tienen la misma prevalencia, si no mayor, que EE. UU. Y Europa, a pesar de la menor obesidad general<sup>7</sup>.

#### EDAD Y SEXO

En general, la apnea obstructiva en la población adulta (edad > 18 años), medida como más de 5 IAH/ RDI, varía del 9% al 38%. En los hombres, la prevalencia se sitúa del 13% a 38% y en mujeres del 6% al 19%<sup>8</sup>. Estas diferencias en ambos géneros tienden a igualarse tras el inicio del periodo de la menopausia<sup>9</sup>. Sin embargo, se ha estudiado que en edades >65 años, la prevalencia aumenta al 84% y 90% sobre todo en hombres<sup>9,10</sup>.

En la apnea severa, definida como superior e igual a 15 IAH (índice apnea-hipopnea), la prevalencia en la población de mayores de 18 años oscila entre 6% y 17%, y es mucho más alta (36%) en edad avanzada<sup>9,10</sup>.

## OBESIDAD

El principal factor de riesgo de padecer apnea obstructiva es la obesidad. Se conoce que el 60-70% de los pacientes SAHS son obesos, pero, solamente el 50% de los pacientes obesos tienen SAHS, por tanto, no solamente el acúmulo de grasa en los tejidos blandos de la vía aérea superior (VAS) es el mecanismo fisiopatológico de esta enfermedad. El 40% de SAHS persiste después de una cirugía bariátrica<sup>10</sup>.

Se ha estudiado que un aumento del 10% de peso aumenta un 32% los valores del IAH y que un aumento de 1 en el índice de masa corporal (IMC) aumenta un 14% el riesgo de sufrir SAHS<sup>11</sup>.

### 1.2. Definiciones

El SAHS o conocido también como síndrome de apnea obstructiva del sueño (AOS) se caracteriza por episodios repetitivos de oclusión de la vía aérea durante el sueño asociados con ronquidos, la fragmentación del sueño, hipersomnolencia diurna y aumento del riesgo cardiovascular. Esta definición fue dada por primera vez por Guilleminault en el año 1976<sup>11</sup>. Años después hemos estudiado mediante escalas la somnolencia diurna, y se han cuantificado los episodios de oclusión de la VAS con el índice de apnea-hiponea del sueño (IAH).

Por tanto, definimos el SAHS como la excesiva somnolencia diurna no explicada por otra causa o dos o más signos/síntomas no explicados por otras causas como son: apneas o despertares nocturnos, sensación de no descanso nocturno, fatiga o la falta de concentración junto a un resultado de superior 5 apneas-hipopneas/hora. Según la American Academy of Sleep Medicine (AASM), para poder diagnosticar un paciente de

SAHS, es necesario haber realizado una polisomnografía (PSG) o una poligrafía cardiorrespiratoria<sup>12</sup>.

Para cuantificar el grado de gravedad del SAHS, se utiliza el índice de apneas-hipopneas por hora (IAH) o el índice de alteraciones respiratorias por hora, y según su valor se clasifican en:

- SAHS leve: IAH o IAR entre 5 y menos de 15.
- SAHS moderado: IAH o IAR entre 15 y menos 30.
- SAHS grave: IAH o IAR >30.

El ronquido requiere de una mención aparte, ya que se considera una entidad propia. La roncopatía crónica fue descrita por primera vez por Chouard y cols. en 1986<sup>13</sup> y agrupa las patologías secundarias a un aumento anormal de las resistencias a diferentes niveles de la vía aérea superior. El ronquido es un síntoma común, sin embargo, no todos los pacientes roncadores, tienen síndrome de apnea del sueño o viceversa.

### **1.3. Anatomía de la vía aérea superior en el adulto y niño con síndrome de apneas-hiponeas del sueño.**

La anatomía de la vía aérea superior (VAS) se inicia en las fosas nasales y termina en el cartílago cricoides.

La única porción colapsable es la región que forma la hipofaringe, ya que no está conformada por estructuras de sostén como la tráquea o la nariz. Esto es debido a las funciones que lleva a cabo, entre las que se incluyen, la deglución, fonación y respiración.

Es muy importante su conocimiento para entender la fisiopatología de la enfermedad y la finalidad de los tratamientos disponibles para el SAHS.

La faríngea humana está rodeada de tejidos blandos. Por lo tanto, se requiere de fuerzas activas para mantener una presión transmural positiva durante la inspiración y la permeabilidad al flujo de aire. Durante la vigilia, la activación refleja de los músculos dilatadores de la VAS previene el colapso faríngeo y mantiene una permeabilidad adecuada de la vía aérea<sup>14</sup>. Durante el sueño, estos mecanismos de protección se alteran<sup>15</sup>. Desde los estudios pioneros de Remmers y cols.<sup>16</sup>, se cree que las fuerzas que previenen la obstrucción faríngea se producen principalmente por los músculos dilatadores de las vías respiratorias superiores.

Para el desarrollo de este estudio, nos centraremos en el estudio de la anatomía de **la cavidad oral, la lengua y la faringe:**

**Cavidad oral:** su contenido principal es la lengua. Se delimita anterolateralmente con las arcadas dentarias y posteriormente comunica con la orofaringe a través del istmo de las fauces (espacio que queda medialmente a los pilares periamigdalinos y las amígdalas palatinas). Su límite superior es la bóveda palatina (paladar duro) y el inferior es el suelo de la boca, con el músculo milohiideo. Su contracción eleva el suelo de la boca y la lengua.

**Lengua:** se define como un órgano muscular, móvil situado en el interior de la boca, impar, medio y simétrico.

Sus funciones son la de deglución, el lenguaje y el sentido del gusto.

Presenta un cuerpo, una V lingual y una raíz. El cuerpo o porción bucal comprende los 2/3 anteriores, la raíz o porción faríngea, el 1/3 posterior, separados ambos por la V lingual o istmo de las fauces. La composición de la lengua es la siguiente:

- Esqueleto: es un armazón osteofibroso formado por el hueso hioides, la membrana hioglosa y el septum medio que son dos láminas fibrosas, sobre las que se insertan los músculos de la lengua.
- Musculatura: consiste en músculos extrínsecos, originados fuera de la lengua, y músculos intrínsecos, originados dentro de ella, permitiendo la gran movilidad de la lengua. Son un total de 17 músculos, y los más importantes son:
  1. Músculo geniogloso: es un músculo extrínseco, dilatador de la faringe, por ello se le otorga un papel importante en el SAHS<sup>17</sup>. Su contracción propulsa la lengua anteriormente y abre la vía aérea. Se inserta en la apófisis geni de la mandíbula y se dirige en forma de abanico a la lengua. Riley<sup>18</sup>, en 1984 fue el primero en proponer el avance del músculo geniogloso, sugiriendo que al ponerlo en tensión se reduciría el colapso de la lengua en la vía aérea superior durante la hipotonía del sueño.
  2. Músculo hiogloso: se origina en el hueso hioides y sube hasta penetrar lateralmente en la lengua. Su contracción baja la lengua, lo que puede permitir ampliar el paso de aire a través de la boca.
  3. Músculo estiloso: se origina en la apófisis estiloides y baja hasta penetrar lateralmente en la lengua, pasando lateralmente a la amígdala palatina. Su contracción lleva la lengua hacia arriba y hacia atrás.

La musculatura de la lengua se encuentra inervada por el nervio hipogloso, que es un nervio motor.

La mucosa lingual, tiene su papel anatómico importante en el SAHS, ya que la porción inferior de la base de la lengua está compuesta por tejido linfoide constituyendo

la amígdala lingual que, en mayor o menor desarrollo, puede provocar obstrucción de la luz orofaríngea.

Si realizamos cirugía sobre la base de la lengua, debemos evitar lesionar dos estructuras vasculares y nerviosas: la arteria lingual (rama de la carótida externa) y el nervio hipogloso. En cirugía del sueño se realizan técnicas sobre la misma, y este estudio de Shangkuan y cols<sup>19</sup>. demuestra anatómicamente el recorrido de la arteria lingual. En su trayecto, posee dos puntos de referencia importantes, el nervio hipogloso y el hueso hioides. En relación al nervio hipogloso, se encuentra en un 80% de los casos inferior a este; y en un 92,10% superior al hueso hioides.

La arteria lingual emite 6 ramas colaterales en el 22% de los casos. Con respecto a las ramas colaterales de la arteria lingual, estas son esencialmente ramas para la lengua; siendo la más importante la arteria dorsal de la lengua. Entre las ramas más importantes, el territorio de la arteria lingual profunda para el dorso de la lengua, el territorio de la arteria sublingual en la región ventral, y el territorio que depende de la arteria dorsal para la raíz de la lengua. En un estudio realizado por Sommerz y cols<sup>20</sup>. encontraron que la arteria lingual y el nervio hipogloso se sitúan a 0,9-1cm en posición paramedia al foramen cecum y a una profundidad mayor de 2 cm, en todos los sitios intervenidos tras cirugía de radiofrecuencia de la base lingual.

**Faringe:** es un órgano impar, cilíndrico con una longitud promedio de 14 cm en el hombre y 13 cm en la mujer. Corresponde a un canal mucoso, membranoso y muscular, dispuesto ventral a la columna vertebral, que se extiende desde la base del cráneo hasta el nivel de la sexta vértebra cervical. Las paredes de la faringe están formadas por una mucosa de epitelio columnar pseudoestratificado y ciliado en la nasofaringe. Los músculos faríngeos son estriados y pares. Su principal función no es la respiratoria, si no

que intervienen en la deglución. Son todos constrictores de la VAS, para el acto de la deglución, a excepción del estilofaríngeo, que es dilatador. Se insertan todos en el rafe faríngeo (Figura 1.1).

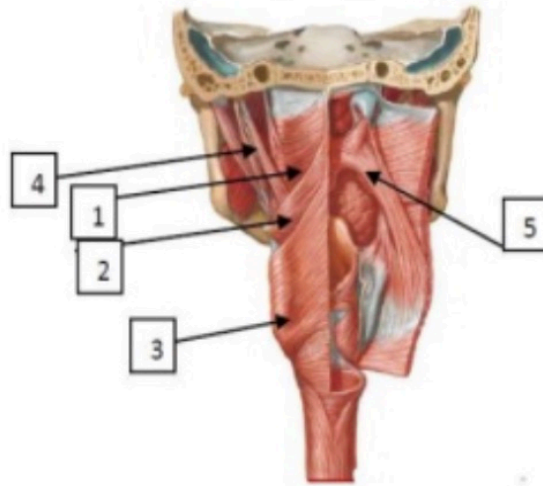


Figura 1.1: Musculatura faríngea. Fuente: Anatomía de la faringe. Revista FASO N°2; 2014. 1: constrictor superior. 2: constrictor medio. 3: constrictor inferior. 4: estilofaríngeo. 5: palatofaríngeo.

### **Músculos faríngeos:**

La musculatura faríngea está compuesta por tres músculos constrictores y dos músculos elevadores o dilatadores. Los constrictores generan una acción peristáltica que desplaza al bolo alimenticio a través de la faringe (proceso conocido como deglución faríngea), hacia el esófago. Los músculos elevadores acortan la faringe y elevan la laringe durante la deglución.



La faringe se encuentra abierta hacia la zona ventral y se relaciona sucesivamente, de arriba abajo con:

- **Nasofaringe**
- **Orofaringe**
- **Laringe** (zona donde ocurre el cruce con de las vía aérea y digestiva), para continuarse con el esófago.

**Nasofaringe:** corresponde a la porción nasal (cavum). Se extiende desde la bóveda de la faringe hasta el velo del paladar. Presenta las siguientes paredes:

Las **paredes superior y posterior** forman un plano óseo continuo. La pared superior, también denominada bóveda o fórnix, se encuentra por debajo del esfenoides y está inclinada abajo y atrás, formando una curva con la pared posterior que se vuelve vertical. Su unión está representada por una línea horizontal que pasa por el tubérculo faríngeo del occipital. El fórnix faríngeo (bóveda faríngea) tiene una curvatura que varía según los sujetos, pudiendo ser arqueada, rebajada u ojival. El paladar ojival se considera una malformación craneofacial involucrada en el SAHOS infantil<sup>21</sup>.

En su **pared lateral** desemboca la trompa auditiva, conducto que comunica con el oído medio.

Entre la pared superior y el tabique nasal se encuentra el pliegue salpingonasal de Zuckerkandl, pliegue mucoso falciforme que se extiende a ambos lados del tabique nasal en el borde lateral de las coanas hasta el orificio tubárico. Está ocupado por una masa de tejido linfoide: la amígdala faríngea, que ocupa el espacio comprendido entre las coanas y el tubérculo faríngeo, y mide 25 mm de longitud, 4 a 6 mm de espesor y 20 mm de

ancho. Como se conoce, el tejido adenoideo es una de las principales causas de SAHS en la infancia, sobre todo si se asocia a la obesidad<sup>21</sup>.

**Orofaringe:** se extiende desde el velo del paladar hasta un plano horizontal que pasa por el borde superior de la epiglotis. Hacia ventral comunica con la cavidad oral a través del istmo de las fauces, estrecho formado por los pliegues palatoglosos (o pilares anteriores del velo, formados por el músculo del mismo nombre).

Hacia atrás de estos se disponen los pliegues palatofaríngeos (o pilares posteriores del velo). En su pared lateral, entre los pilares anterior y posterior del velo palatino se ubica la amígdala palatina.

Su límite superior sería el velo del paladar, el posterior, la columna y los músculos prevertebrales junto con la confluencia de los constrictores, hacia los laterales, las fosas amigdalinas, y por debajo, está limitada por un plano imaginario que pasa por el borde superior de la epiglotis.

Es la subdivisión faríngea más compleja. Es el regulador del pasaje de aire y del alimento a través de la faringe. Debe tener la capacidad de limitar el reflujo faringo nasal, propulsar el bolo, facilitar el pasaje de aire y participar de la fonación.

Para el conocimiento de este trabajo, vamos a explicar la estructura del velo del paladar y la musculatura que forma parte de él:

El paladar blando o velo del paladar es una estructura anatómica musculoaponeurótica móvil, que se origina en la zona posterior del paladar duro. Finaliza en una prolongación medial, la úvula, y dos repliegues laterales, los pilares del velo o pilares amigdalinos (anterior y posterior). Entre ambos pilares se encuentran las amígdalas palatinas.

A) Lámina fibrosa: forma el esqueleto del velo, tiene inserción en el borde posterior del paladar óseo y en las apófisis pterigoides. Constituye un tendón conjunto de los músculos elevadores del velo.

B) Musculatura:

1. **Músculo tensor del velo del paladar (periestafilino externo)**: es un músculo par extrafaríngeo. Tiene dos capas, una superficial de acción velar y una profunda de acción tubárica (dilatadora). La capa superficial tensa el velo palatino lateralmente gracias a una polea facilitada por el hamulus palatino. Ambos músculos realizan un recorrido descendente, de cada lado, para cambiar su dirección casi en 90° y conectarse en la línea media constituyendo el espesor de la lámina fibrosa.

2. **Músculo elevador del velo del paladar (periestafilino interno)**: es un músculo intrafaríngeo, submucoso que se inserta parcialmente en la base del cráneo, delante del agujero carotídeo en la cara inferior del peñasco y continúa su inserción en la cara inferior de la trompa. De ahí sus fibras se dirigen en sentido anteroinferior hasta que se dividen al llegar a la luz faríngea en dos fascículos, uno de ellos prosigue en dirección anterior en busca de su inserción en el velo palatino, el otro fascículo realiza un recorrido medial para entrecruzarse con las fibras mediales contralaterales de su correlativo heterolateral. Su función como su nombre indica, es elevar el paladar blando y dilatar la trompa de Eustaquio.

3. **Músculo faringoestafilino**: posee 5 fascículos, tres de inserción superior (espesor del velo palatino, torus tubario y uncus pterigoideo) y dos de inserción inferior (borde superior y posterior del cartílago tiroideo y fibras del músculo contralateral en la pared faríngea posterior).

4. **Músculo palatogloso (pilar anterior amigdalino):** va por la pared lateral dándole forma al pilar anterior faríngeo para insertarse en la base de la lengua, en su cara lateral. Su acción es la de aproximar los pilares, elevar la lengua en su parte posterior y desciende la úvula.

5. **Músculo palatofaríngeo (pilar posterior amigdalino):** va por el borde posterior del paladar duro hasta la cara lateral de la faringe formando el arco faríngeo. Su función es la de aproximar los pilares del paladar ayudando a la deglución.

6. **Músculos ácidos de la úvula (palatopalatino, palatoestafilino):** discurre longitudinalmente en el espesor del velo palatino y le da forma a la úvula. Es un músculo par cuyo punto fijo anterior se ubica en la espina nasal posterior del hueso palatino.

De la inervación motora de la musculatura del velo del paladar se encarga el plexo faríngeo del n. glossofaríngeo, a excepción del músculo tensor del velo cuya inervación motora la lleva a cabo el n. trigémino a través de su rama mandibular.

Entre las estructuras óseas relevantes en el SAHS, que favorecen la oclusión y comprometen la permeabilidad de la vía aérea superior son el hueso maxilar superior, la mandíbula, el hueso hioides y las vértebras cervicales superiores.

Los movimientos de cierre y apertura de la boca se producen moviendo la mandíbula. La musculatura implicada en el cierre bucal, es decir, que ascienden la mandíbula, son el músculo masetero, el temporal y el pterigoideo interno.

Los músculos que abren la boca, es decir, que bajan la mandíbula, son los músculos suprahioides: genihioideo, milohioideo y digástrico.

La mandíbula o maxilar inferior, sirve de punto de inserción al músculo más importante en la permeabilidad de la vía aérea, el geniogloso, a nivel de la apófisis geni. Presenta una rama vertical que termina anteriormente en la apófisis coronoides y posteriormente en el cóndilo mandibular, que lo articula al cráneo en la fosa mandibular del hueso temporal: articulación temporomandibular (ATM). Ésta permite un movimiento rotatorio y otro traslacional anterior. Además, la mandíbula puede ser propulsada anteriormente mediante la contracción de los músculos pterigoideos mediales, que se originan en las apófisis pterigoideas del esfenoides y se insertan en el cóndilo mandibular. Este movimiento permite la abertura de la vía aérea a nivel de la orofaringe. El estudio de la mordida es importante en la evaluación clínica de la apnea del sueño, ya que la retrognatia, se relaciona con la misma.

El hueso hioides tiene forma de “U” abierta posteriormente, y está formado por un cuerpo y dos astas a cada lado, la menor, más vertical y medial y la mayor, más larga. Es también un hueso móvil, pero no por la presencia de articulaciones, sino que su movimiento es pasivo, por la mandíbula y por la lengua, ya que la musculatura extrínseca de la lengua se inserta en el hioides, así como, en la porción más inferior del geniogloso. Explicada en este apartado la anatomía de la vía aérea superior del ser humano, concluimos en la siguiente tabla con las alteraciones anatómicas más frecuentes que se producen en el SAHS

<b>ALTERACIONES ANATÓMICAS MÁS FRECUENTES EN EL SAHS</b>	
<b>ALTERACIONES ÓSEAS</b>	<b>ALTERACIONES EN TEJIDOS BLANDOS</b>
Desplazamiento caudal	Macroglosia
Del hueso hioides	Hipertrofia adenoamigdalar
	Engrosamiento de las paredes faríngeas laterales
Hipoplasia y/o	Engrosamiento del velo del paladar
Retrodesplazamiento	Hipertrofia uvular
maxilar o mandibular	Paladar ojival
Aumento en la longitud	Desviación septum nasal
de la faringe	Depósito de grasa en el cuello

Tabla 1.1: Alteraciones anatómicas más prevalentes en el SAHS. (Schellenberg JB, G Maislin, R J Schwab. Physical findings and the risk for obstructive sleep apnea. Ann Intern Med 2000; 162:740-8.)

#### **1.4. Fisiopatología del SAHS**

La patogenia del SAHS también es multifactorial. Hay causas "anatómicas" y "no anatómicas". En los últimos años, se ha reconocido el potencial papel que tienen los factores más allá de la anatomía faríngea y la estructura craneofacial en su fisiopatología<sup>22,23</sup>.

Los avances recientes en la comprensión de su patogénesis han arrojado una nueva luz sobre la heterogeneidad de este trastorno y al desarrollo de diferentes fenotipos de pacientes con AOS. Interacciones entre la causa principal, la alteración de la anatomía de la VAS (es decir, la vía aérea anatómicamente estrecha / colapsable) y la actividad muscular dilatadora faríngea se ha estudiado durante mucho tiempo como contribuyentes clave a la patogénesis<sup>22</sup>. Sin embargo, el control neuronal de los músculos faríngeos es mucho más complejo que la simple pérdida de contractilidad muscular durante el inicio

del sueño. Otros rasgos o fenotipos no anatómicos, como la propensión a despertarse durante el estrechamiento de las vías respiratorias (umbral de excitación respiratoria o “arousal threshold”) y la estabilidad del sistema de control respiratorio o “loop gain”, también son importantes contribuyentes en una proporción de estos pacientes<sup>22-23</sup>.

#### 1.4.1. Determinantes anatómicos

El conocimiento del nivel de deterioro anatómico de la vía aérea superior es esencial. Por tanto, es lógico que la mayoría de las terapias existentes para el SAHS tengan como objetivo corregir el problema anatómico. Los estudios de imagen han identificado anomalías anatómicas y faríngeas claves en las personas con SAHS<sup>24-25</sup>. Por ejemplo, una vía aérea y ciertas formas de la luz faríngea están asociadas con la propensión al colapso faríngeo durante el sueño<sup>26-29</sup>. La vía aérea superior puede colapsarse en uno o múltiples sitios. Las estructuras faríngeas que pueden contribuir al colapso son: los músculos dilatadores, el músculo geniogloso, el paladar blando, las paredes faríngeas laterales y la epiglotis. La obesidad es un factor de riesgo importante, de hecho, la circunferencia del cuello se mide de forma rutinaria para ayudar a predecir el riesgo de SAHOS<sup>30</sup>. La morfología craneofacial, la posición del hueso hioides, y la grasa de la lengua son algunos de los factores asociados con el riesgo de SAHS y su gravedad.

Sin embargo, a nivel clínico encontramos algunas limitaciones para su medición debido al alto costo de los procedimientos de imagen y la oportunidad de obtener imágenes dinámicas con el paciente despierto.

Entre los componentes anatómicos: la **anatomía de la vía aérea**: su calibre y forma y la **colapsabilidad de la vía aérea**: presión negativa

intraluminal. Como explicaron Remmers y cols. en su trabajo, el tamaño de la VAS en los enfermos SAHS no es diferente a la de los roncadores no SAHS cuando se comparan teniendo en cuenta su tamaño corporal, pero su forma sí es distinta<sup>31</sup>. Así se ha comprobado que el diámetro mayor faríngeo es transversal en sujetos normales y anteroposterior en pacientes SAHS. Esto probablemente tenga algunas consecuencias dado que el vector de trabajo de los músculos dilatadores también es anteroposterior y en los SAHS su trabajo será menos eficaz, colaborando quizá a la génesis de su fracaso. La longitud de la VAS también es un factor importante, pues es más larga y genera mayor predisposición a la obstrucción en el caso de los hombres; sin embargo, su diámetro parece no tener repercusiones dado que en los hombres es mayor. A pesar de lo anterior, la enfermedad tiene una prevalencia más alta en el género masculino<sup>32</sup>.

Como sabemos, la faringe es un cilindro constituido por tejido musculofacial delgado que se engrosa al nivel de la línea media en su porción posterior, constituyendo la fascia bucofaríngea; este aspecto se debe tener en cuenta, pues, debido a dicha conformación blanda, representa la porción más dinámica del tracto respiratorio superior. Debido a sus funciones de fonación, deglución y respiración, la faringe requiere ser blanda y elástica. Este hecho facilita eventos de obstrucción y colapso. La pared faríngea lateral y el paladar blando son los componentes que, con mayor frecuencia, tienen características de colapsabilidad dada la ausencia de soportes rígidos a este nivel<sup>33,34</sup>. Por otro lado, a nivel de la hipofaringe se encuentra la lengua, un grupo muscular importante en el que se incluye el músculo geniogloso, el mayor dilatador de la vía aérea. Esta capacidad contráctil puede estar disminuida en los pacientes



con SAHS. También se encuentra la epiglotis, que en algunas ocasiones ofrece grados de colapsabilidad importantes. Para comprender el dinamismo de la VAS se tiene que entender el modelo de Starling (Ilustración 3), donde la hipofaringe es un tubo colapsable en el interior de una cámara rígida como es la región cervical. La presión generada arriba de la faringe equivale a la atmosférica y la porción por debajo, a la traqueal. Al mismo tiempo, se generan dos tipos de presiones: la intraluminal, que tiende a abrir la VAS, y la extraluminal, que tiende a cerrarla; la diferencia entre estas dos da como resultado la presión transmural, que determina el diámetro de la VAS<sup>35</sup>. La presión a la cual se genera una obstrucción o colapso se llama presión crítica (Pcrit), siendo más positiva en pacientes con SAHS que en individuos sanos.

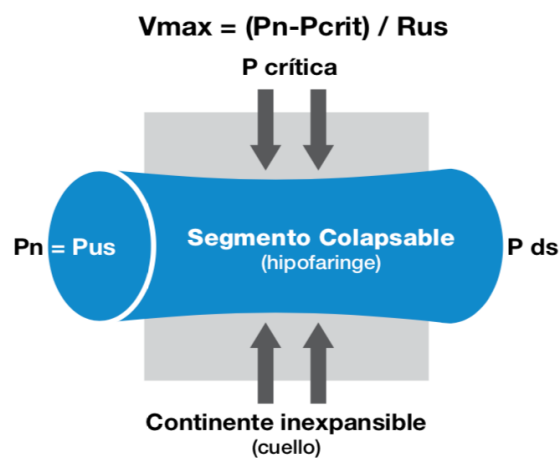


Figura 1. 2: Ley de fuerzas de Starling en la fisiopatología del colapso de SAHS.

Fuente: (36).

#### 1.4.2. Determinantes no anatómicos

##### A) Presión crítica de colapso (Pcrit)

El colapso o apertura de la faringe durante el sueño depende de dos fuerzas opuestas:

- la **fuerza “dilatadora**: dos mecanismos; el primero y más importante es la contracción de los músculos dilatadores de la faringe. El *geniogloso* es el más grande y el más estudiado, y el segundo, es el *volumen pulmonar* que, al ejercer hacia abajo una fuerza de tracción sobre la vía aérea, confiere estabilidad a la faringe.

- la **fuerza “colapsante”** que tiende a cerrar la faringe, está constituida por la presión negativa intraluminal generada por la contracción diafragmática y por la presión positiva extraluminal que ejercen los tejidos blandos, principalmente la grasa, sobre la luz faríngea.

- En personas con alteraciones anatómicas graves, el colapso de las vías respiratorias superiores se produce a presiones lumenales elevadas por encima de la presión atmosférica. Por el contrario, la anatomía “favorable” de las vías respiratorias superiores evita el colapso, de modo que se requieren presiones de succión inferiores a -5 cmH<sub>2</sub>O para cerrar las vías respiratorias. Estas personas están anatómicamente protegidas del SAHS. Además de las propiedades estáticas craneofaciales y de los tejidos blandos que pueden influir en la Pcrit, otros factores también pueden modular la colapsabilidad de las vías respiratorias superiores durante el sueño. Estos incluyen la posición del cuerpo y la cabeza y las propiedades de tensión superficial del revestimiento líquido de la superficie mucosa de las vías respiratorias superiores<sup>37</sup>.

El conocimiento de la Pcrit en el colapso de la faringe durante el sueño con polisomnografía nos permite conocer la variabilidad de los síndromes respiratorios obstructivos del sueño<sup>36</sup>:

**Pcrit en sujetos normales:** (-41 cmH<sub>2</sub>O durante el sueño)

**Pcrit en roncadors asintomáticos:**(-6,5 cm H<sub>2</sub>O)

**Pcrit en pacientes Síndrome de Resistencia Elevada en la Vía Aérea Superior:** (-4 cmH<sub>2</sub>O +/-2,1)

**Pcrit en pacientes con hipopneas:** (+1,6 cmH<sub>2</sub>O)

**Pcrit en pacientes con SAHS:** (+2,5 cmH<sub>2</sub>O durante el sueño).

Tabla 1.2: Valores de la Pcrit en sujetos sanos y sujetos con patología obstructiva respiratoria de sueño. Los valores se hacen más positivos en los pacientes SAHS.

#### B) Respuesta muscular

Hay más de 20 músculos en la vía aérea superior. Un subconjunto de estos músculos desempeña un papel predominante en la estabilidad de las vías respiratorias durante la respiración. Sin embargo, durante el sueño, cuando se combina la reducción de la actividad muscular con la susceptibilidad anatómica (vía aérea estrecha / colapsable) pueden inducir el colapso de la vía aérea. Los músculos de las vías respiratorias superiores tienen patrones complejos de activación neural que difieren entre los músculos. Por ejemplo, el geniogloso, el músculo dilatador faríngeo más grande ubicado en la base de la lengua recibe hasta seis patrones diferentes de impulso. Recibe la entrada central del tronco encefálico (neuronas generadoras de patrones respiratorios) y la entrada refleja de los mecanorreceptores faríngeos y quimiorreceptores. La suma del impulso al geniogloso generalmente produce un patrón de activación fásico (es decir, más actividad durante la inspiración y menos durante la espiración).

La actividad del geniogloso se reduce al inicio del sueño y varía entre las etapas del sueño. Sin embargo, el músculo tensor del paladar muestra

patrones de activación predominantemente tónicos (constantes durante todo el ciclo respiratorio).

Se cree que las combinaciones de una pérdida entre el impulso central y la entrada refleja a los músculos de la VAS durante el sueño contribuyen de manera importante a la patogénesis del SAHS<sup>37,38</sup>. De manera similar, la capacidad de aumentar el impulso reflejo al estrechamiento de las vías respiratorias durante el sueño es importante en la patología. De hecho, aproximadamente el 30% de los pacientes con SAHS tienen poca capacidad de respuesta del músculo geniogloso al estrechamiento de las vías aéreas durante el sueño.

### C) Efectividad muscular

La efectividad muscular es la capacidad de traducir el impulso neural recibido por los músculos dilatadores de la VAS para aumentar el flujo de aire cuando la vía aérea se ve afectada por una hipopnea o una apnea. Por lo tanto, las personas con SAHS que tienen poca capacidad de respuesta muscular (aumentos inadecuados en el impulso neuronal al estrechamiento de las vías respiratorias durante el sueño) también tienen poca efectividad muscular. Sin embargo, hay otras personas con SAHS que generan aumentos considerables en la actividad muscular faríngea (buena capacidad de respuesta muscular) cuando las vías respiratorias se estrechan durante el sueño. Esto a veces puede alcanzar niveles de activación más allá de los generados durante la vigilia. Sin embargo, esto no se debe traducir en una dilatación faríngea efectiva.

En algunos casos, puede ocurrir una dependencia negativa del esfuerzo. Esto es cuando el flujo de aire disminuye, en lugar de aumentar debido a una

reducción en el calibre de la vía aérea, dentro y / o entre respiraciones en respuesta al aumento de la presión intratorácica negativa<sup>39,40</sup>. Sin embargo, la contribución potencial de la actividad muscular de la vía aérea superior en la mediación de la dependencia del esfuerzo negativo en el SAHS es incierta<sup>41,42</sup>.

La efectividad muscular o el movimiento dilatorio de los músculos de la vía aérea superior se puede evaluar mediante visualización directa con nuevas técnicas de resonancia magnética. También se puede examinar indirectamente a través de la medición del flujo de aire o cambios de ventilación por minuto en la CPAP y comparando respuestas en el estado pasivo versus activo<sup>43</sup>. La comprensión de las razones por las cuales algunas personas con SAHS tienen poca efectividad muscular son incompletas. Sin embargo, la falta de coordinación del impulso neural a los diversos músculos de las vías respiratorias superiores durante el sueño, la orientación de la fibra muscular mecánicamente ineficiente (debido al exceso de grasa o hipertrofia muscular), o los cambios en el tipo de fibra muscular que resultan en una mayor propensión a la fatiga podrían ser factores contribuyentes.<sup>44</sup> En general, hemos identificado que las personas con SAHS tienen una menor efectividad muscular que los sujetos sanos.

#### D) Control respiratorio

La ganancia del bucle (“loop gain”) que se forma en la respiración durante el sueño proviene del CO<sub>2</sub>. Las fluctuaciones en el CO<sub>2</sub> durante el sueño ocurren con el estrechamiento de las vías respiratorias o la excitación cortical. Un sistema de control ventilatorio inestable o demasiado sensible (alta ganancia del bucle / high loop gain) puede contribuir a las oscilaciones en la respiración que ocurren la apnea del sueño. Una relación del control respiratorio

con una ganancia de bucle (LG superior a 1) indica un sistema de control respiratorio inestable que es propenso a las oscilaciones. Estas personas tienen cambios excesivos en su ventilación en respuesta a pequeños cambios en el CO<sub>2</sub> (sobrecompensación). Por el contrario, un LG inferior a 1 denota un sistema de control respiratorio inherentemente estable. Las personas con baja ganancia tienen una respuesta ventilatoria más apropiada a una perturbación en la respiración y vuelven a la homeostasis rápidamente. Sin embargo, si la ganancia es excesivamente baja, esto puede conducir a hipoventilación sostenida y trastornos graves de gases en sangre en individuos susceptibles (por ejemplo, personas con síndrome de hipoventilación por obesidad).

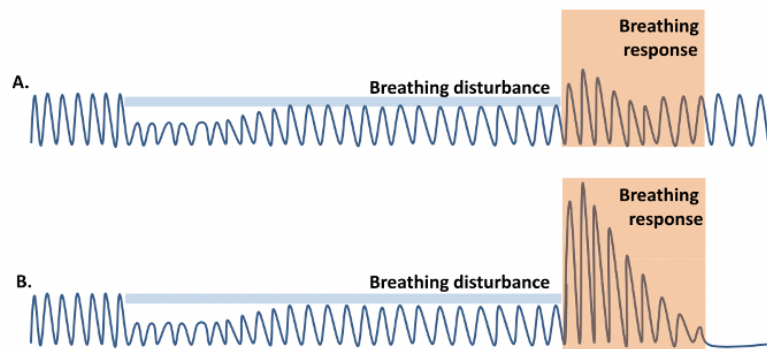


Figura 1.3: Representaciones del bajo (A) y alto (B) loop gain.

Fuente: (22).

E) Umbral de excitación respiratoria (Respiratory arousal threshold)

El papel del umbral de excitación respiratoria en la patogenia del SAHS y las implicaciones para el tratamiento se ha revisado recientemente<sup>45</sup>. Un umbral de excitación respiratoria bajo evita el sueño profundo y promueve la inestabilidad del control respiratorio<sup>46-47</sup>.

Inicialmente se pensó que las excitaciones eran esenciales para restaurar el flujo de aire al final de un evento respiratorio en el SAHS<sup>48</sup>. Es cierto que la mayoría de los eventos respiratorios están asociados con una breve excitación cortical del sueño. Sin embargo, según el trabajo de Younes y cols,<sup>49</sup> ahora está claro que las excitaciones corticales no son necesarias para restablecer el flujo de aire al final de un evento respiratorio y, en muchos casos, las excitaciones probablemente perpetúen los patrones de respiración cíclica en el SAHS. Aunque la magnitud del estímulo requerido varía entre los individuos, independientemente del tipo de estímulo respiratorio (es decir, hipoxia, hipercapnia), las personas tienden a despertarse a un nivel constante de presión intratorácica negativa. Esto ha llevado a la noción de que el impulso respiratorio (medido a través de un catéter de presión esofágica o epiglótica) es el desencadenante clave, o al menos un sustituto preciso, para la excitación del sueño durante los eventos respiratorios<sup>48</sup>. Sin embargo, el aumento del impulso respiratorio y sus componentes (es decir, aumento de los cambios de presión faríngea) son los mismos estímulos que reclutan los músculos dilatadores de las vías respiratorias superiores. Por lo tanto, Younes ha propuesto que, si no se hubiera producido la excitación, los músculos de las vías respiratorias superiores eventualmente se activarían para restablecer el flujo de aire. De hecho, ha demostrado que, en promedio, aproximadamente el 20% de los eventos respiratorios en adultos con SAHS terminan sin excitación<sup>49</sup>. Estas tasas son aún más altas en niños (> 50%) y lactantes (> 90%) con SAHS<sup>50</sup>.

En general, hasta el 75% de los eventos respiratorios en adultos con SAHS pueden terminar sin despertar o el despertar ocurre después de que las vías respiratorias se han reabierto. Estas observaciones indican que la excitación

fue secundaria a la apertura de la vía aérea<sup>49</sup>. Por el contrario, en algunas personas (es decir, aquellas con poca capacidad de respuesta muscular durante el sueño), es posible que no se produzca suficiente reclutamiento de los músculos faríngeos hasta que los cambios en los gases en sangre sean muy grandes. La mala coordinación neural de los músculos faríngeos durante el sueño en respuesta a estímulos respiratorios crecientes también puede prevenir la dilatación de las vías respiratorias en ciertos individuos<sup>44</sup>. Por lo tanto, los despertares corticales, que se asocian con la rápida reintroducción del impulso de vigilia para respirar y la activación y apertura del músculo dilatador de las vías respiratorias superiores, pueden "salvar la vida" en estas circunstancias.

En conclusión, la terminación de un evento apneico por excitación conduce inevitablemente a una respuesta respiratoria, que puede causar inestabilidad muscular ventilatoria y faríngea y promover la recurrencia de eventos obstructivos. Además, como hemos mencionado un umbral de activación bajo provoca la fragmentación del sueño contribuyendo a una somnolencia diurna excesiva.

La colapsabilidad anatómica de las vías respiratorias superiores, el tono, la función neuromuscular, la inestabilidad del control del sueño-vigilia y el umbral de excitación, interactúan contribuyendo a ciertas características fisiopatológicas que caracterizan los diferentes fenotipos de apnea obstructiva del sueño.

El estudio de los diferentes determinantes anatómicos y no anatómicos a través de la PSG, ha permitido establecer una fenotipificación de los pacientes SAHS propuesta por Eckert y cols.<sup>23</sup> con la palabra en inglés **PALM**



refiriéndose a los determinantes no anatómicos mencionados en el apartado 1.4.2: **P**crit de colapso, **A**rousal threshold, **L**oop gain y **M**uscle responsiveness.

Su conocimiento nos permite individualizar las diferentes estrategias terapéuticas disponibles para la AOS<sup>23</sup>:

**PALM 1:** Corresponde al 23% de los pacientes SAHS que presentan problemas anatómicos severos. Como estrategia de tratamiento serían candidatos a CPAP.

**PALM 2:** Corresponde al 58% de los pacientes SAHS que presentan problemas anatómicos moderados. A su vez, se clasifican en:

**2 A: (36%):** Corresponde a los pacientes sin deterioro no anatómico. Estos pacientes se benefician de una de las estrategias de tratamiento aceptadas para la apnea del sueño: CPAP, DAM, cirugía, pérdida de peso etc.

**2 B: (64%):** Pacientes con uno o más de un deterioro de los factores no anatómicos. Para estos pacientes disponemos una nueva estrategia de tratamiento combinada, llamada por sus siglas en inglés “**TARGED COMBINATION THERAPY**”.

**PALM 3: (19%)** Corresponde a los pacientes SAHS con problemas anatómicos menores. Estos pacientes, no se benefician de intervenciones anatómicas (No candidatos a CPAP).

El fenotipo más prevalente corresponde al PALM tipo 2 donde los problemas anatómicos están presentes, y, además en la PSG encontramos factores no anatómicos determinantes. En estos casos se propone la “**terapia combinada dirigida**”, donde se ofrece a los pacientes una combinación de los varios tratamientos disponibles de forma individualizada.

Como conclusión a los nuevos avances en la fisiopatología del SAHS el tradicional tratamiento enfocado únicamente a solucionar el problema anatómico de la enfermedad se está modificando. Clásicamente se ha centrado en tratamientos “convencionales” como la CPAP, la cirugía, los dispositivos de avance mandibular (DAM) y la pérdida de peso. Su principal acción radica en modificar la presión crítica de cierre (Pcrit). Estos tratamientos presentan problemas de adherencia, especialmente con la CPAP, y en algunos casos de efectividad. Es por ello por lo que la mayoría de los pacientes con SAHS permanecen sin tratamiento apropiado y sin diagnóstico aún hoy en día.

Por otro lado, están los pacientes que presentan una fácil fragmentación del sueño con un umbral de despertar muy reducido, este hecho se da del 30 al 50% en los pacientes con SAHS, llegando al 85% en los no obesos. En estos pacientes el tratamiento de elección sería la utilización de medicamentos hipnóticos como son la eszopiclona, zopiclona y trazodona<sup>51</sup>.

El otro fenotipo correspondería a aquellos pacientes que presentan un *loop gain* excesivo (ante situaciones de apnea su centro respiratorio responde con un mensaje de compensación excesivo e inadecuado, lo que provoca un mayor colapso de la vía aérea). Los tratamientos de elección serían la reeducación respiratoria con control del CO<sub>2</sub>, suplementos de oxígeno, e inhibidores de la anhidrasa carbónica como la acetazolamida.

Y por último tenemos el fenotipo de aquellos pacientes que presentan una función deficitaria de la musculatura dilatadora, donde la terapia de elección es la terapia miofuncional, el implante de estimulación del nervio hipogloso y determinados medicamentos en estudio (desipramina).

Por tanto, el futuro del tratamiento del SAHS radica en diagnosticar correctamente a nuestro paciente con el fenotipo de su enfermedad para poder aplicarle el tratamiento que garantice mayor adherencia y efectividad.

## **2. JUSTIFICACIÓN**

El síndrome de apnea hipopnea del sueño (SAHS) es un problema de salud pública importante, caracterizado por episodios repetitivos de oclusión de la vía aérea durante el sueño. Se asocia con ronquidos, fragmentación del sueño, hipersomnolencia diurna y aumento del riesgo cardiovascular<sup>52,53</sup>. Está bien establecido que el tratamiento más eficaz para el SAHS es la presión positiva continua en las vías respiratorias, en inglés “Continuous Positive Airway Pressure” (CPAP)<sup>53</sup> con un cumplimiento por parte del paciente variable. La CPAP elimina virtualmente el SAHS junto con la eliminación del ronquido, la reducción de la somnolencia diurna y la mejora de la calidad del sueño subjetiva<sup>53,54</sup>.

La etiología del SAHS es multifactorial e incluyen factores anatómicos y fisiológicos. Los músculos dilatadores de las vías respiratorias superiores son cruciales para el mantenimiento de la permeabilidad faríngea y pueden contribuir a la incidencia de esta enfermedad<sup>55</sup>.

Clásicamente se organizaba el tratamiento del SAHS en tratamientos quirúrgicos y no quirúrgicos pero hoy en día, las terapias existentes están enfocadas en los diferentes fenotipos que hemos visto de la enfermedad. La idea de “café para todos”, estipulada con el uso generalizado de la CPAP a todos los pacientes con síndrome de apnea obstructiva del sueño (SAOS), está cambiando y el otorrinolaringólogo debe estar familiarizado con este nuevo enfoque.

La terapia miofuncional, es una modalidad de tratamiento aplicada a sujetos con trastornos miofuncionales orofaciales, que pueden interferir con el desarrollo o funcionamiento de dichas estructuras y funciones<sup>56</sup>.

Los estudios revisados sobre la terapia miofuncional demuestran beneficios promoviendo cambios en los músculos disfuncionales de las vías respiratorias superiores<sup>57</sup>, por lo que se ha propuesto con éxito para reducir la severidad de SAHS y los síntomas asociados en adultos<sup>58</sup>. El potencial de la terapia miofuncional también se ha investigado para promover la reducción del Índice de Apneas del ronquido<sup>59</sup>, la mejoría de la calidad de vida y se puede considerar como un tratamiento adyuvante y una estrategia de intervención para apoyar la adherencia a la CPAP<sup>59,60</sup>. Sin embargo, los estudios aleatorizados y de alta calidad aún son poco frecuentes, y los efectos del tratamiento también deben analizarse a largo plazo.

Por otro lado, se ha propuesto que la lesión neuronal que afecta a los músculos de las vías respiratorias superiores debido a la exposición repetitiva a la hipoxia intermitente y / o al estrés mecánico es el resultado de los ronquidos y el cierre recurrente de las vías respiratorias superiores que contribuyen a la progresión de la enfermedad. Varios estudios han encontrado un aumento en el porcentaje de fibras musculares tipo IIA (fibras de contracción rápida que pueden usar el metabolismo aeróbico y anaeróbico, pero su umbral de fatiga es más bajo), del orden del 15% en varios músculos de la vía respiratoria superior en pacientes con SAHS, incluida la úvula, el geniogloso, el constrictor faríngeo medio y el palatofaríngeo<sup>61</sup>.

La disfunción motora y sensorial del lenguaje ha sido estudiada en un estudio reciente de Guilleminault y cols.<sup>62</sup> concluyendo que la distinción de los trastornos obstructivos del sueño respiratorio entre niños y adultos puede no ser relevante ya que existen los mismos patrones de apraxia lingual. Esto permitiría detectar un funcionamiento anormal de la lengua en la cavidad oral en las primeras etapas.

Además, el aumento del tejido adiposo en la vía aérea superior puede facilitar su cierre con la aparición posterior de episodios de apnea. El colapso de la vía aérea superior

(VAS), el tono y la función neuromuscular, la inestabilidad del sueño-vigilia y el control ventilatorio y el umbral de excitación (AT) interactúan y contribuyen a ciertas características fisiopatológicas que caracterizan los diferentes tipos de SAHS descritos por Eckert.

La terapia miofuncional (ejercicios orofaciales) es una modalidad de tratamiento aplicada a sujetos con trastornos miofuncionales orofaciales, que pueden interferir con el desarrollo o el funcionamiento de dichas estructuras y funciones.

Los estudios revisados sobre la terapia miofuncional demuestran beneficios al promover cambios en los músculos disfuncionales del tracto respiratorio superior, razón por la cual se ha propuesto con éxito reducir la gravedad del SAHS y los síntomas asociados en adultos. El potencial de la terapia miofuncional también ha sido investigado para promover la reducción del índice de apnea del ronquido, la mejora de la calidad de vida y puede considerarse como un tratamiento adyuvante y una estrategia de intervención para apoyar el cumplimiento de la CPAP. Sin embargo, los estudios aleatorios de alta calidad aún son deficientes y los efectos del tratamiento también deben analizarse a largo plazo. Los metaanálisis más importantes realizados por Camacho, Guilleminault et al.<sup>60</sup> concluyen que la terapia miofuncional ha reducido los ronquidos en adultos basándose tanto en cuestionarios subjetivos como en estudios objetivos del sueño.

En este estudio, queremos proporcionar una modalidad de tratamiento adyuvante con la Aplicación (App) AirwayGym<sup>63</sup>, una herramienta fácil de usar que permite una retroalimentación en los pacientes con ronquido primario y SAHS en tratamiento con CPAP, evaluando la respuesta motora y sensorial de la lengua después de realizar los ejercicios orofaríngeos en los pacientes con trastornos respiratorio del sueño

Airwaygym se puede considerar como una aplicación de fitness portátil, excepto que está destinado a pacientes en lugar de atletas, y los terapeutas en lugar de los

entrenadores proporcionan las instrucciones. La novedad de esta aplicación es que se trata de la primera aplicación del mercado sanitario que permite al paciente interactuar directamente con el teléfono móvil “Smartphone” sin necesidad de ningún otro dispositivo. La aplicación se centra en la enfermedad de la apnea del sueño y en la mejora de los déficits propioceptivos. Cuando se utiliza con la aplicación, el teléfono proporciona información acústica sobre la eficacia de los ejercicios realizados.

La aplicación incluye 9 ejercicios basados en la terapia miofuncional que tienen como objetivo mejorar la tonicidad de los distintos músculos implicados en la patogenia del SAHOS. Antes de cada ejercicio, una demostración animada y un video muestran al paciente cómo realizar el ejercicio. Después de cada ejercicio, el paciente recibe retroalimentación visual, acústica y táctil sobre el éxito de su desempeño como una puntuación. Cuando el paciente termina los ejercicios, los resultados se guardan en red (en una nube) y un fisioterapeuta puede evaluar el desempeño de los ejercicios por parte del paciente. Los usuarios de la aplicación pueden seguir el progreso de su actividad diaria a lo largo del tiempo. Una función de chat está disponible a través de la cual el paciente puede contactar con el terapeuta directamente. Puede encontrar información adicional en la página web de AirwayGym<sup>67</sup>. Esta aplicación cumple con las normativas 2002/58 / CE y (UE) 2016/679 relativas a la protección de datos. Tiene un precio de 5,99 euros.



### **3. OBJETIVOS**

**OBJETIVO PRINCIPAL:**

Demostrar que la musculatura ineficaz de la VAS en los pacientes con un trastorno respiratorio del sueño TRS puede relacionarse con un déficit sensoriomotor no tratado.

**OBJETIVOS SECUNDARIOS:**

Demostrar que los ejercicios orofaríngeos con la App AirwayGym proporcionan una herramienta terapéutica para mejorar la función motora de la lengua y corregir la estereognosis lingual de los pacientes con un TRS.

El conocimiento del “fenotipo hipotónico” por una musculatura ineficaz de la vía aérea superior en el paciente SAHOS podría explicar la mala adaptación a la CPAP en aquellos pacientes que no presentan alteraciones anatómicas determinantes.

## **4. PACIENTES Y MÉTODOS**

## **TIPO DE ESTUDIO**

Se trata de un estudio piloto prospectivo no aleatorizado, que incluye pacientes con ronquidos primarios (PS), y con SAHOS de moderado a grave y sujetos de control sano recogidos entre noviembre de 2019 y octubre 2020, diagnosticados y/o tratados en los Servicios de Otorrinolaringología del Hospital Clínico Universitario San Cecilio de Granada y Otorrinolaringología del Hospital Quirón Salud de Marbella y/o del Campo de Gibraltar.

**Los criterios de inclusión y de exclusión fueron:**

### **4.1. Criterios de inclusión**

- Edades comprendidas entre 18 y 72 años.
- Diagnóstico de ronquido simple, SAHOS en tratamiento con CPAP.
- Firma de consentimiento informado (CI).

### **4.2. Criterios de exclusión**

- IMC>32.
- Alcoholismo grave.
- Uso de medicación hipnótica.
- Enfermedad coronaria inestable.
- Insuficiencia cardiaca descompensada.
- ECV.
- Embarazo.
- Enfermedades sistémicas asociadas a un estado inflamatorio conocido.

- Otros trastornos respiratorios del sueño no obstructivos.
- Enfermedad neuromuscular.
- Presencia de malformaciones craneofaciales.
- Ausencia de frenillo lingual.
- Enfermedad neoplásica activa.
- Antecedentes de tratamiento rehabilitador de la musculatura orofacial, así como cualquier tratamiento para la apnea previo que pueda modificar los resultados del estudio (Cirugía, DAM).

### **4.3. Evaluación del paciente**

Una vez que el paciente cumplía con los criterios de inclusión y ninguno de exclusión, se remitía a una consulta para descartar la presencia de:

- Obstrucción de vía aérea superior (valorar el grado de obstrucción a nivel retropalatal y retrolingual con nasofibrolaringoscopia). También la realización de la Maniobra de Müller que consiste en realizar por parte del paciente una inspiración forzada con la nariz y la boca cerradas, con la finalidad de crear una presión negativa a nivel de la faringe, para observar el colapso de las paredes e identificar si éste es mayor en el diámetro anteroposterior o en el diámetro lateral.

- Presencia de limitación de la movilidad lingual (anquiloglosia/frenillo lingual corto)<sup>64</sup>

- Se pasó la Escala de Friedman para clasificar en estadios a los pacientes según Friedman, con la observación del tamaño y la posición de lengua y del paladar. El grado I alude a la posibilidad de visualizar el paladar duro, blando, úvula, pilares y amígdalas. El grado II permite observar hasta la úvula pero no se observan las amígdalas. El grado III impide ver la úvula y el grado IV solo muestra el paladar duro.

- Problemas en la articulación temporomandibular (ATM).<sup>65</sup>

Además, en la primera consulta, realizamos las mediciones de:

- IOPI geniogloso e IOPI buccinador. Los resultados obtenidos se correlacionaron con unas tablas con los valores estándar de la población en función del rango de edad.<sup>66</sup>

#### **4.4. Estudio del sueño**

Todos los pacientes con SAHS debían estar diagnosticados con una poligrafía/polisomnografía nocturna inicial (con medición de IAH basal, Índice de desaturación nocturno, frecuencia cardíaca (FC) media, episodios de ronquidos). La polisomnografía realizada en el laboratorio de sueño, se hizo de acuerdo con las especificaciones técnicas de la Academia Estadounidense de Medicina del Sueño.<sup>12</sup> Las variables registradas se obtuvieron mediante electroencefalografía, electrooculografía (dos canales), electromiografía de mentón y pierna y electrocardiografía. No se utilizaron electrodos frontales. Las variables respiratorias se midieron utilizando puntas de presión nasal linealizadas y la forma de onda de flujo de las señales térmicas oronasales. Las señales de esfuerzo respiratorio se midieron a través de bandas inductivas que registraron los movimientos de la caja torácica y abdominal. También se registraron la saturación de oxígeno (O<sub>2</sub>), la posición corporal y los ronquidos. La apnea y la hipopnea se analizaron y puntuaron de acuerdo con los siguientes criterios: la hipopnea se definió como una disminución de 30% en la amplitud de la señal del flujo de aire que duraba 10 segundos acompañada de 3% de desaturación de O<sub>2</sub>. La apnea se definió como una disminución de 90% en la amplitud de la señal del flujo de aire que duraba 10 segundos. El índice de desaturación de oxígeno (ODI) se utilizó para cuantificar la desaturación de O<sub>2</sub>. Las

pruebas se utilizaron para definir RP con un IAH inferior de 5 eventos a la hora de sueño, SAHOS moderado como un IAH comprendido entre 15-29,9 eventos / h de sueño y SAHOS severo como la presencia de más de 30 eventos por hora de sueño.

#### **4.5. Tratamiento del SAHOS y Ronquido simple con la App AirwayGym**

Una vez que los participantes fueron incluidos en el estudio, se inició la terapia con la aplicación AirwayGym®. El tiempo de entrenamiento promedio propuesto fue de 15 min / día, 5 días a la semana y 3 meses de duración. Incluyó ejercicios para fortalecer el tono de la musculatura lingual y faríngea.

#### **4.6. Estudio de apraxias linguales**

Se pidió a los pacientes que realizaran maniobras específicas con la lengua como queda reflejado en la tabla 4.1. Estas maniobras se realizaron dos veces. Si el sujeto no pudo realizar una maniobra después de una demostración visual, la prueba se calificó como anormal. Estas maniobras se han informado anteriormente, ya que se utilizan en terapia miofuncional (TM).

**Maniobras linguales al inicio del examen**

1. Saque la lengua de la boca lo más que pueda
2. Con la lengua fuera, úsela para tocar la mejilla derecha.
3. Con la lengua fuera, úsela para tocar la mejilla izquierda.
4. Coloque la punta de la lengua en el medio del paladar.
5. Coloque su lengua en la parte superior de sus dientes.
6. Con la lengua fuera, úsela para intentar tocarse la nariz.

Tabla 4.1. Maniobras linguales al inicio del examen del estudio de praxias

**4.7. Prueba de figura con el instrumento de estereognosis intraoral Profono (ISI) (anexo1)**

En la prueba de la figura, mostramos al paciente una serie de formas: círculo, semicírculo, óvalo, rectángulo, triángulo y cuadrado. Posteriormente, se le vendaron los ojos al paciente y se le pidió que identificara cada figura colocada individualmente en la lengua durante 10 segundos. La prueba se repitió hasta tres veces si era necesario.<sup>62</sup>

**4.8. IOPI (anexo 4)**

Esta prueba se utilizó para medir variables relacionadas con la función de la lengua. En el manual de referencia se proporciona una descripción técnica del IOPI: 'El instrumento es un transductor de presión conectado a un amplificador que funciona con batería, un circuito de acondicionamiento de señal y un voltímetro digital.' Un circuito de retención de picos muestra la presión de pico en kPa en una lectura digital. Medimos las variables hasta tres veces y registramos el valor más alto.



#### **4.9. Cuestionarios**

Los siguientes cuestionarios se pasaron a cada paciente al inicio y la final del estudio, es decir, a los 3 meses:

##### Escala de somnolencia de epworth (ESS) (anexo 2)

La ESS para evaluar cualquier cambio subjetivo de la somnolencia en la enfermedad.

##### Escala analógica visual (EVA)

Se utilizó para cuantificar los cambios en los ronquidos evaluados por la pareja de la persona que duerme al principio y al final del estudio.

##### Escala de obstrucción nasal y efectividad de la septoplastia (NOSE)<sup>69</sup>(anexo 3)

Esta escala se utilizó para evaluar cualquier síntoma nasal antes de comenzar el estudio. Se excluyó a los pacientes con síntomas graves (NARIZ > 70%) y se les propuso una cirugía de optimización.

#### **4.10. Variables recogidas**

Las variables a analizar en todos los pacientes del estudio serán:

- Edad
- Sexo
- Peso
- Altura
- Índice de masa corporal
- Dentición completa
- Presencia de retrognatía
- Escala de Friedman
- Presencia de frenillo lingual
- Problemas nasales
- Capaz de realizar las maniobras linguales completas

- Epworth pre/ post tratamiento
- NOSE pre/ post tratamiento
- Mejoría de síntomas nasales tras tratamiento corticoideo tópico
- Número de figuras reconocidas en ISI
- Medición mediante IOPI de fuerza lingual y musculo bucinador.
- IAH

#### **4.11. Análisis estadístico**

##### **4.11.1. Cálculo del tamaño muestral**

La evaluación de la efectividad de la utilización de la terapia miofuncional en los pacientes con síndrome de apnea hipoapnea del sueño tratados con CPAP y ronquido simple, se llevó a cabo con los datos del estudio longitudinal, a partir del porcentaje de mejoría de la apnea observadas durante el seguimiento del estudio.

Este porcentaje se ha estimado en función de los resultados previos publicados en estudios de terapia miofuncional, tras la revisión bibliográfica previa de dichos estudios.

Para un nivel de confianza del 95%, un poder estadístico del 80% y estimando un nivel de mejora de la apnea con el uso de ejercicios orofaríngeos 60%, y una pérdida del 20% de los pacientes a lo largo del estudio, se necesitaban incluir 25 pacientes en el grupo experimental y 25 pacientes en el grupo control. El tamaño muestral se calculó con el uso del programa *estadístico IBM SPSS Statistics 25*.

#### **4.11.2. Aleatorización**

La aleatorización se realizó en función del número del sujeto por orden consecutivo, siendo los números 1 y 2 (pacientes con ronquido simple y SAHOS respectivamente) el grupo experimental, tratados con ejercicios orofaríngeos y el número 0 el grupo control.

#### **4.11.3. Test estadísticos**

Para el análisis estadístico de las variables estudiadas, utilizamos las pruebas no paramétricas, el test Kruskal wallis para las variables cualitativas y el test de Mann-Whitney para las variables no paramétricas. Los resultados se consideraron estadísticamente significativos con un valor de  $P < 0,005$ .

Nuestro comité de ética local aprobó el estudio (AWGAPN-2019-01) y todos los participantes dieron su consentimiento informado por escrito.

## **5. RESULTADOS**

Examinamos un total de 21 pacientes con SAHOS de los 25 seleccionados, 4 se excluyeron por abandono del estudio. En el grupo con ronquido primario RP se estudiaron 22 de los 25 seleccionados, se excluyeron 3 por abandono del estudio. En el grupo control se incluyeron 20 controles sanos después de que cumplieran los criterios de inclusión y que habían seguido los ejercicios durante 3 meses.

Los 21 pacientes con SAHOS siguieron utilizando el dispositivo CPAP durante la realización del estudio.

### **5.1. Características de los pacientes**

En el grupo de los RP, había 12 hombres y 10 mujeres, con una media de edad de  $49.7 \pm 7.9$  años y con una media de IMC de  $24,1 \pm 3,4$  kg/m<sup>2</sup>. En el grupo de los pacientes con SAHOS, 16 hombres y 5 mujeres con una media de edad de  $51.4 \pm 9.3$  años y con una media de IMC de  $25,4 \pm 4,1$  kg/m<sup>2</sup>. En el grupo de controles sanos había 14 hombres y 11 mujeres con una media de edad de  $44 \pm 6.4$  años y con una media de IMC de  $22,8 \pm 5,6$  kg/m<sup>2</sup>.

Los resultados de la evaluación inicial de IMC, IAH y somnolencia se muestran en la Tabla 4.1. No encontramos ningún cambio significativo en los valores de IMC, circunferencia del cuello o cintura después de realizar los ejercicios. Sin embargo, sí hubo diferencias significativas en el IAH con una  $p = <0,001$ .

**Tabla 5.1.** Características de los pacientes con ronquido primario (RP), apnea obstructiva del sueño (AOS) y sanos. Media y desviación estándar (DE).

Variable	RP (N=22)		AOS (N=21)		Sanos(N=20)		<i>p</i> <sup>a</sup>
	Media	DE	Media	DE	Media	DE	
Edad (años)	49.7	7.9	51.4	9.3	44	6.4	0.57
IMC (Kg/m <sup>2</sup> )	24.1	3.4	25.4	4.1	22,8	5.6	0.4
Cuello (cm)	39.4	5.2	40.8	5.6	38.2	4.8	0.8
Cintura(cm)	95.0	9.6	98.0	0.3	88	11.1	0.06
IAH (e/h)	1.1	0.27	21.8	6.3	< 5	-	<0.001*

<sup>a</sup>Prueba no paramétrica de Kruskal wallis. P <0,05 diferencia estadísticamente significativa.

## 5.2. Maniobras de praxia lingual

En cuanto a las maniobras de praxia lingual, los controles realizaron correctamente las 6 maniobras, mientras que en los grupos de RP y OAS realizaron una media de  $5.6 \pm 1.4$  y  $4.5 \pm 1.9$  maniobras, respectivamente (Tabla 5.2). En el análisis estadístico entre cada uno de los grupos, hubo diferencias significativas en el número de maniobras realizadas por el grupo AOS, que fue menor en comparación con el grupo control (P <0,05).

**Tabla 5.2.** Media ( $\bar{x}$ ) del número total de maniobras de lengua (N = 6) realizadas en los diferentes grupos de estudio antes del tratamiento con los ejercicios de la aplicación AirwayGym®.

<b>Grupo</b>	$\bar{x}$	$p^a$
<b>Grupo control</b> (N = 20)	6.0 ± 0.0	Control vs grupo RP; >0.05
<b>Grupo RP</b> (N = 21)	5.6 ± 1.4	Control vs grupo AOS; <0.05*
<b>Grupo AOS</b> (N = 22)	4.5 ± 1.9	Grupo RP vs grupo AOS; >0.05

<sup>a</sup>Mann–Whitney test

\*P<0.05

RP ronquido primario

AOS apnea obstructiva del sueño

### 5.3. Estereognosis lingual

La estereognosis lingual fue significativamente diferente entre los tres grupos (Tabla 5.3). En la prueba de estereognosis, el número medio de figuras reconocidas fue de  $2,6 \pm 2,2$  en el grupo SAHOS,  $3,4 \pm 1,2$  en el grupo de ronquidos y  $5,7 \pm 0,9$  en el grupo control ( $p < 0,05$ ). Los pacientes con SAHOS reconocían círculos y óvalos con menos frecuencia (Figura 5.1).

**Tabla 5.3** Evaluación de la estereognosis con la prueba Profono Intraoral Stereognosis Instrument (ISI) en los grupos control sano, ronquido primario (RP) y apnea obstructiva del sueño (AOS) antes de realizar ejercicios linguales AirwayGym®.

	No. de figuras ISI test ( $N = 6$ )	$p^a$
<b>Controles (<math>N = 20</math>)</b>	$5.7 \pm 0.9$	Control vs RP 0.045*
<b>RP (<math>N = 21</math>)</b>	$3.4 \pm 1.2$	Control vs AOS 0.01*
<b>AOS (<math>N = 22</math>)</b>	$2.6 \pm 2.2$	RP vs AOS 0.06

<sup>a</sup>Mann–Whitney test.  $P < 0,05^*$

RP ronquido primario

AOS apnea obstructiva del sueño

ISI Instrumento de estereognosis intraoral

#### 5.4. Mediciones IOPI

La fuerza de la lengua fue estadísticamente significativa entre los tres grupos (Tabla 5.4). Los valores medios en el grupo control fueron de  $66 \pm 18.2$  kPa para el IOPI de la lengua y de  $42 \pm 9.3$  kPa para el IOPI de los labios (músculo buccinador). En el grupo de RP los valores medios fueron de  $42 \pm 16.7$  kPa y de  $29 \pm 13.4$  kPa. En el grupo AOS los valores medios de IOPI lingual y labial fueron de  $31 \pm 19.5$  kPa y de  $21 \pm 8.8$  kPa respectivamente. En el análisis estadístico hubo diferencias significativas entre los valores medios de IOPI entre los grupos control y AOS ( $p=0,03$ ) y control y RP ( $p=0,05$ ).



**Tabla 5.4.** Evaluación mediante prueba de IOPI en los grupos control sano, RP y AOS antes de realizar ejercicios orofaríngeos.

	<b>IOPI-I</b>	<b>IOPI-I</b>	<b><i>p</i><sup>a</sup></b>
<b>Control (N = 20)</b>	66 ± 18.2	42 ± 9.3	Control vs RP; <0.05*
<b>RP (N = 22)</b>	42 ± 16.7	29 ± 13.4	Control vs AOS; 0.03*
<b>AOS (N = 21)</b>	31 ± 19.5	21 ± 8.8	RP vs AOS; 0.06

<sup>a</sup>Prueba de Mann-Whitney. P<0,05\*

Iowa Oral Performance Instrument (IOPI)

RP ronquido primario

AOS apnea obstructiva del sueño

I, lengua; I, labios.

## **RESULTADOS TRAS REALIZAR LAS MANIOBRA DE AIRWAY GYM**

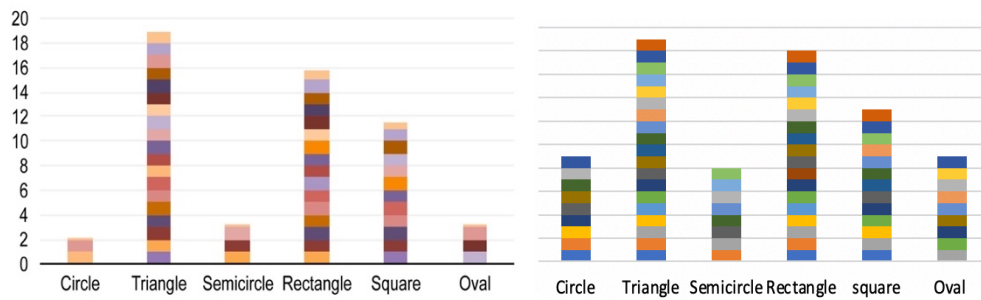
Después de realizar los ejercicios con la aplicación Airway Gym®, encontramos una ligera mejoría en los dos grupos de sujetos con TRS, en las variables principales del estudio (cuestionarios, mediciones de IOPI y el ISI test) (Tabla 5.5).

### **Esteroagnosia**

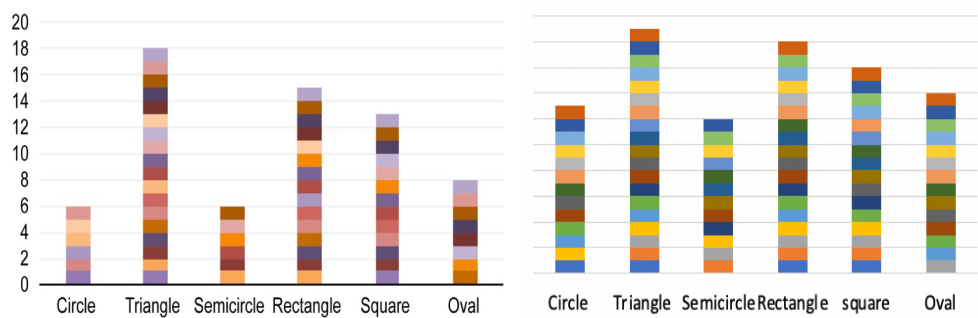
Tras realizar los ejercicios con la aplicación Airway Gym®, encontramos mejoría significativa en la esteroagnosia en el grupo RP con un reconocimiento de las figuras medio de 3.4 preAirwayGym a 5.4 postAirwayGym (p=0,04). En el grupo AOS estos valores mejoraron de 2,6 a 4,6 (p=0,04).

Además, en la figura 5.1 observamos cómo hay un incremento en el reconocimiento de las principales figuras no detectadas por los pacientes con TRS (círculo, semicírculo y la figura ovalada).

**Figura 5.1.** Representación de las figuras identificadas por los pacientes con apnea obstructiva del sueño (AOS) (A) y ronquido primario (RP) (B). Los diferentes colores representan cada uno de los pacientes que realizó la prueba de estereognosia y las diferentes figuras reconocidas.



(A) Figuras test profundo de estereognosia intraoral (ISI) identificadas por el grupo AOS (N = 20) antes y después de realizar los ejercicios AirwayGym®.

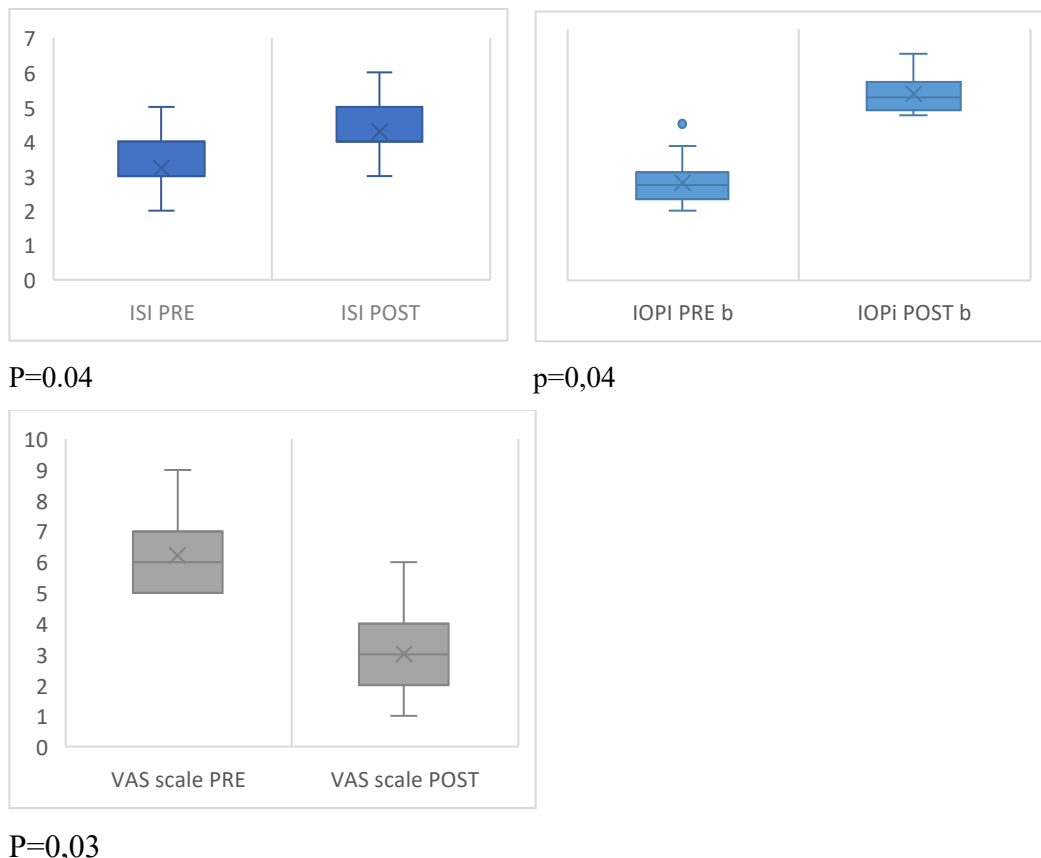


(B) Figuras de test profundo de estereognosia intraoral (ISI) identificadas por el grupo RP (N = 20) antes y después de realizar los ejercicios AirwayGym®.

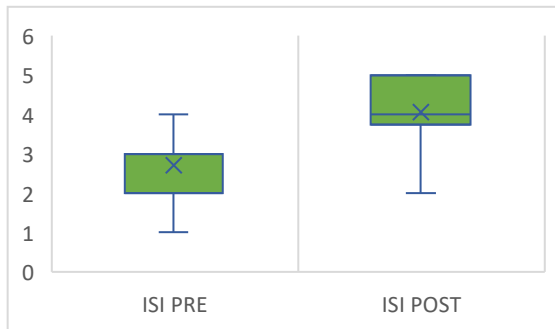
## IOPI

La fuerza de la lengua o el tono muscular evaluados con la herramienta IOPI mejoró significativamente en ambos grupos ( $p = 0.034$ ) después del tratamiento con la aplicación Airway Gym® (Figura 5.2).

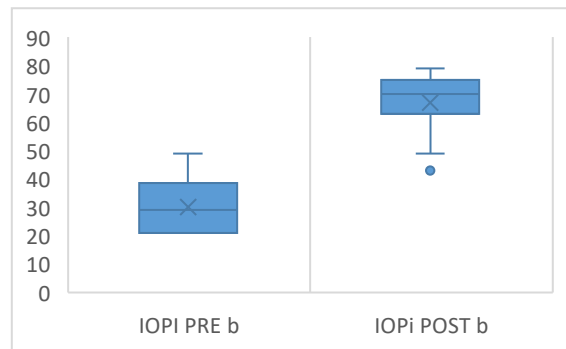
**Figura 5.2.** Diagrama de caja-bigotes que muestra diferencias estadísticamente significativas antes (pre) y después (post) de los ejercicios AirwayGym® en las variables analizadas en los dos grupos de pacientes con TRS.



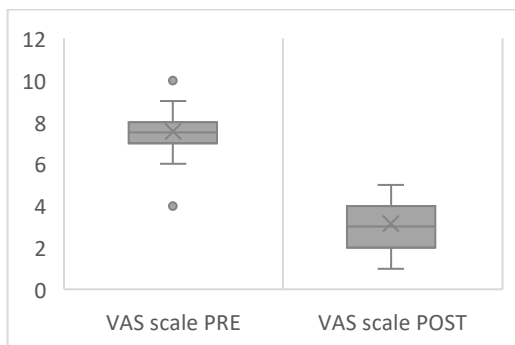
- a) Diagrama de caja-bigotes que muestra diferencias estadísticas antes y después de los ejercicios de AirwayGym® en las variables analizadas en el grupo de pacientes con ronquido primario (RP) (N=22).



P=0,04



P=0,04



P>0,05

- b) Diagrama de caja-bigotes que muestra diferencias estadísticas antes y después de los ejercicios de AirwayGym® en las variables analizadas en el grupo de pacientes con AOS (N = 21).

Los valores alcanzaron los rangos de referencia para la población normal enumerados en el manual de IOPI. En el grupo de PS, las puntuaciones de lengua de IOPI cambiaron de  $42 \pm 16,7$  a  $68 \pm 12,4$  kPa ( $p = 0,04$ ), y la puntuación de labios de IOPI cambió de  $29 \pm 13,4$  a  $45 \pm 9,4$  kPa ( $p = 0,03$ ). En el grupo de SAHOS, la puntuación de lengua de IOPI cambió de  $31 \pm 19,5$  a  $57 \pm 14,2$  kPa ( $p = 0,04$ ), y la puntuación de labios de IOPI cambió de  $21 \pm 8,8$  a  $37 \pm 12,3$  kPa ( $p = 0,03$ ) (Tabla 5.5).

**Tabla 5.5.** Variables analizadas en el grupo de pacientes TRS antes y después de 3 meses de tratamiento con la app AirwayGym®.

**Grupo RP**

	<b>Pre-AirwayGym® Media (DE) (N = 22)</b>	<b>Post-AirwayGym® Media (DE) (N = 22)</b>	<b><i>p</i><sup>a</sup></b>
<b>Escala Epworth</b>	9 (7.3)	7 (4.5)	>0.05
<b>Escala EVA</b>	7 (2.5)	3 (1.2)	0.04*
<b>ISI (N=6 figuras)</b>	3.4 (1.2)	5.4 (0.6)	0.04*
<b>Maniobras linguales</b>	5.6 (1.4)	5.7 (0.9)	>0.05
<b>IOPIlengua(kPa)</b>	42 (16.7)	68 (12.4)	0.04*
<b>IOPI labios (kPa)</b>	29 (13.4)	45 (9.4)	0.03*
<b>Cuello (cm)</b>	39.4 (5.2)	38.1 (7.3)	>0.05
<b>Cintura (cm)</b>	95 (9.6)	92 (6.2)	>0.05

**Grupo AOS**

	<b>Pre-AirwayGym® Media (DE) (N = 22)</b>	<b>Post-AirwayGym® Media (DE) (N = 22)</b>	<b><i>p</i><sup>a</sup></b>
<b>Escala Epworth</b>	15 (6.5)	11 (3.6)	>0.05
<b>Escala EVA</b>	8 (2.5)	6 (1.2)	>0.05
<b>ISI (N=6 figuras)</b>	2.6 (1.2)	4.6 (1.2)	0.04*
<b>Maniobras linguales</b>	4.5 (1.9)	5 (0.8)	>0.05
<b>IOPIlengua(kPa)</b>	31 (19.5)	57 (14.2)	0.04*
<b>IOPI labios (kPa)</b>	21 (8.8)	37 (12.3)	0.05*
<b>Cuello (cm)</b>	40.8 (5.6)	40.1 (7.3)	>0.05
<b>Cintura (cm)</b>	98 (10.3)	95.6 (9.1)	>0.05

<sup>a</sup> Prueba de Mann-Whitney

(TRS) Trastornos respiratorios del sueño.

Escala analógica visual EVA

Prueba de figura ISI utilizando el instrumento de estereognosis intraoral Profono

Instrumento de interpretación oral IOPI Iowa

### **Cuestionarios**

Tres meses después del tratamiento con la aplicación Airway Gym® encontramos una mejora significativa en la EVA de los ronquidos medidos por la pareja de sueño en el grupo de RP con un EVA pre-AirwayGym de 8 y de 3 post-AirwayGym;  $p=0,04$  (Tabla 5.5 y figura 5.2). Sin embargo, aunque la ESS también mejoró, no alcanzó significación estadística. Esto se evidenció más en los pacientes con SAHOS, donde la puntuación de la ESS disminuyó de  $16 \pm 7,3$  a  $12 \pm 4,5$  después de la terapia ( $p = 0,53$ ), aunque no fue significativo (Tabla 5.5).

## **6. DISCUSIÓN**

Con este estudio es el primer estudio piloto controlado no aleatorizado en analizar la respuesta sensorial y motora lingual en pacientes con TRS antes y después de realizar ejercicios orofaríngeos. Con este trabajo demostramos que existe un deterioro en la función sensoriomotora en pacientes con TRS que mejora después de terapia.

La musculatura de la vía aérea superior en pacientes con TRS debe evaluarse desde tres aspectos: praxia, estereognosia y tono. Sabemos que los pacientes con apnea obstructiva del sueño frecuentemente tienen una VAS estrecha. Sin embargo, no se produce respiración obstructiva durante la vigilia. Esto pone de relieve la importancia de la disminución del tono neuromuscular y de los factores compensatorios dependientes del estado (sueño-vigilia).

Este tono está coordinado por más de 20 músculos que controlan la función faríngea expandiendo y estabilizando la faringe humana, que tiene un soporte rígido limitado, a la base del cráneo y al cartílago laríngeo. La respiración oral condiciona la posición de la lengua hacia abajo y hacia adelante. Ésta puede causar un patrón de crecimiento anormal, que puede llevar a una postura de cabeza y cuello hacia adelante, maloclusión dentaria y trastornos respiratorios del sueño (TRS)<sup>70</sup>. Respirar por la boca también implica la falta de cierre de los labios, que es necesaria para la estabilidad de la mandíbula y para crear la presión negativa dentro de la cavidad oral, necesaria para sujetar la lengua. Además, en la respiración oral hay una falta de contacto entre el paladar y la lengua, necesario para crear el efecto de "ventosa" que mantiene la lengua en su lugar y evita que caiga en la faringe. Otra causa de respiración oral es la hipertrofia amigdalina, que evita que la lengua realice el movimiento de deglución correctamente, lo que obliga a la lengua a moverse hacia adelante durante la deglución y a descansar hacia adelante y abajo. Sin embargo, la extirpación de las amígdalas y adenoides no siempre cambia el patrón respiratorio de oral a nasal, especialmente a largo plazo. Finalmente, el frenillo



lingual o labial patológico puede causar estos problemas<sup>71</sup>; si la lengua no es capaz de crear “un sellado” en el paladar, puede resultar un paladar alto y estrecho, que se considera un factor de riesgo para el SAOS.

Para ello puede ser necesaria la terapia miofuncional que entrena la movilidad de la lengua, la respiración, masticación y deglución, y elimina los hábitos orales desadaptativos. Una forma de mejorar la estabilidad de las vías respiratorias superiores es conseguir una coordinación de la lengua con las actividades de protrusión mejorando la excitabilidad cortical producida por el músculo geniogloso<sup>22</sup>. En este estudio la realización de maniobras linguales fue significativamente peor en pacientes con TRS que en controles sanos. Sin embargo, después de realizar terapia miofuncional (TM) no encontramos mejoras significativas en esta medida. Creemos que esto podría deberse a que excluimos a los pacientes con anquiloglosia u otras limitaciones anatómicas, y al pequeño tamaño de la muestra.

Observamos una mejora significativa en la respuesta de la prueba de estereognosia después de que los pacientes completaron la terapia de 3 meses con la aplicación Airway Gym®. La aplicación tuvo éxito en esta cohorte de población. Komoda y col.<sup>72</sup> investigaron el efecto del entrenamiento repetido de levantamiento de la lengua sobre la excitabilidad de la representación corticomotora de la lengua humana y la musculatura de la mandíbula. Dieciséis participantes se sometieron a estimulación magnética transcraneal y registros electromiográficos de potenciales evocados motores. Sus resultados sugieren que la aplicación repetida y estandarizada del entrenamiento desencadena cambios neuroplásticos significativos en la representación corticomotora, no solo de la musculatura de la lengua sino también de los músculos que cierran la mandíbula. Estos resultados tienen implicaciones en los aspectos funcionales de la rehabilitación oral y podrían conducir a una mejora en los procedimientos de tratamiento.

En nuestro trabajo hemos utilizado el IOPI para medir las respuestas motoras de la lengua después de que los pacientes realizaran los ejercicios orofaríngeos. Encontramos cambios significativos en estas respuestas después de la terapia. Pocos estudios se han centrado en el uso de IOPI para medir el tono de la lengua y los labios en pacientes con SAHS. Una revisión sistemática publicada en 2013 por Adams et al.<sup>73</sup> encontró que la IOPI se ha utilizado principalmente para medir la fuerza de la lengua (38 estudios) y la resistencia (15 estudios). El ochenta por ciento de los estudios basados en la población se han centrado en patologías del habla o de la deglución<sup>72-73</sup>. En este caso, queríamos medir esta deficiencia en la fuerza orofacial y determinar si podría corregirse mediante un enfoque de MT. Descubrimos que el uso de la aplicación Airway Gym® dio como resultado valores dentro de los rangos normales para el IOPI en pacientes con SAHS y aquellos con EP, que eran mucho peores antes del tratamiento<sup>67</sup>. Un estudio publicado recientemente sobre el uso de IOPI en pacientes con SAHOS por O'Connor-Reina y cols.<sup>74</sup> utiliza las puntuaciones máximas de la lengua como una herramienta útil en el diagnóstico topográfico del colapso de las vías respiratorias en pacientes con SAHS. Otro estudio, llevado a cabo por Arakawa et al.<sup>75</sup>, evalúa la comparabilidad entre las pruebas de evaluación clínica cuantitativa de la función oral. Para hacer esto, utiliza pares de instrumentos para medir la presión máxima de la lengua (MTP), la función de masticación (FM) y la fuerza máxima de los labios (FML) en 26 sujetos sanos. Los valores con el MTP medido con el IOPI o con el JMS (dispositivo JMS Co., Ltd.), fueron comparables entre sí ( $P < 0.049$ ).

Algunas de las principales debilidades de los estudios publicados sobre TM es que utilizan diferentes grupos de ejercicios para tratar los pacientes y su baja adherencia por parte de los participantes<sup>76</sup>. La aplicación Airway Gym® en la terapia de pacientes con TRS ha supuesto un avance tecnológico en el concepto de rehabilitación orofacial<sup>67,74,77</sup>.

Esta aplicación ofrece el mismo grupo de ejercicios lo que permiten una evaluación objetiva de la eficacia de la terapia y ayuda a que los pacientes aumenten la adherencia al tratamiento. En nuestra serie logramos tasas de cumplimiento exitosas del 84% en los grupos de SAHOS y del 82% en el grupo de PS después de TM. Queda por ver si los resultados de la terapia de seguimiento a largo plazo serán los mismos. Creemos que el principal éxito de esta aplicación es que proporciona rehabilitación propioceptiva basada en retroalimentación visual, acústica y táctil.

Hasta ahora los ejercicios realizados con AirwayGym muestran eficacia en el SAHOS severo, pero no han sido diseñados para tratar los trastornos miofuncionales convencionales<sup>67</sup>. Según nuestra experiencia, se podría proponer un nuevo nombre para los ejercicios orofaríngeos de los TRS como “rehabilitación sensitivomotora de los músculos” (RMS), ya que algunos de los pacientes con TRS tenían principalmente hipotonía y déficits sensitivomotores que mejoran. La recomendación de los ejercicios de la terapia miofuncional sería exclusivamente para mejorar la posición de la lengua, el sellado de los labios y la respiración nasal.

Utilizando imágenes de resonancia magnética (RMN) del cuello, Marín et al.<sup>78</sup> demostraron que el volumen total de grasa en la vía aérea superior es más significativo en pacientes con SAHOS que en sujetos sanos. Este cambio se acompaña de una disminución del diámetro de las vías respiratorias, un aumento de la resistencia y una mayor colapsabilidad. Un estudio reciente que utilizó resonancia magnética volumétrica mostró que los volúmenes de la lengua y de la pared lateral son factores de riesgo independientes para el SAHOS; de hecho, la pérdida de peso reduce la grasa de la lengua y esto conduce a una mejora del IAH<sup>79</sup>. En nuestro estudio no encontramos ningún cambio significativo en la circunferencia del cuello, lo que sugiere que esta aplicación funciona aumentando el tono muscular y sensoriomotor. No obstante, sería interesante

realizar estudios de imagen en los pacientes que realizan ejercicios orofaríngeos para evaluar la posible reducción de grasa en la vía aérea.

El uso concomitante de la CPAP en el grupo SAHOS durante la realización de los ejercicios, podría ser un sesgo en los resultados de nuestro trabajo. Sin embargo, O'Connor Reina et al<sup>67</sup>, en su ensayo clínico aleatorizado (ECA) basado en dos grupos con SAHOS severo, un grupo sin terapia y otro que sólo usaba esta aplicación, no encontraron cambios significativos en el grupo control en los parámetros de IAH y ODI, y sí en el grupo de estudio.

### 6.1. Limitaciones

Nuestros resultados deben interpretarse con cautela debido al número limitado de participantes y porque nuestra investigación no ha sido aleatoria. Otras limitaciones son que no estudiamos la capacidad de respuesta muscular usando PSG ya que el objetivo de este trabajo era evaluar la mejoría sensoriomotora tras el uso de esta aplicación en pacientes con TRS.

Estamos comenzando un nuevo ECA, sólo con pacientes con SAHOS severo evaluando las respuestas sensoriomotoras y los parámetros respiratorios con esta aplicación en comparación con la terapia simulada, y sin CPAP como terapia concomitante.

## **7. CONCLUSIONES**

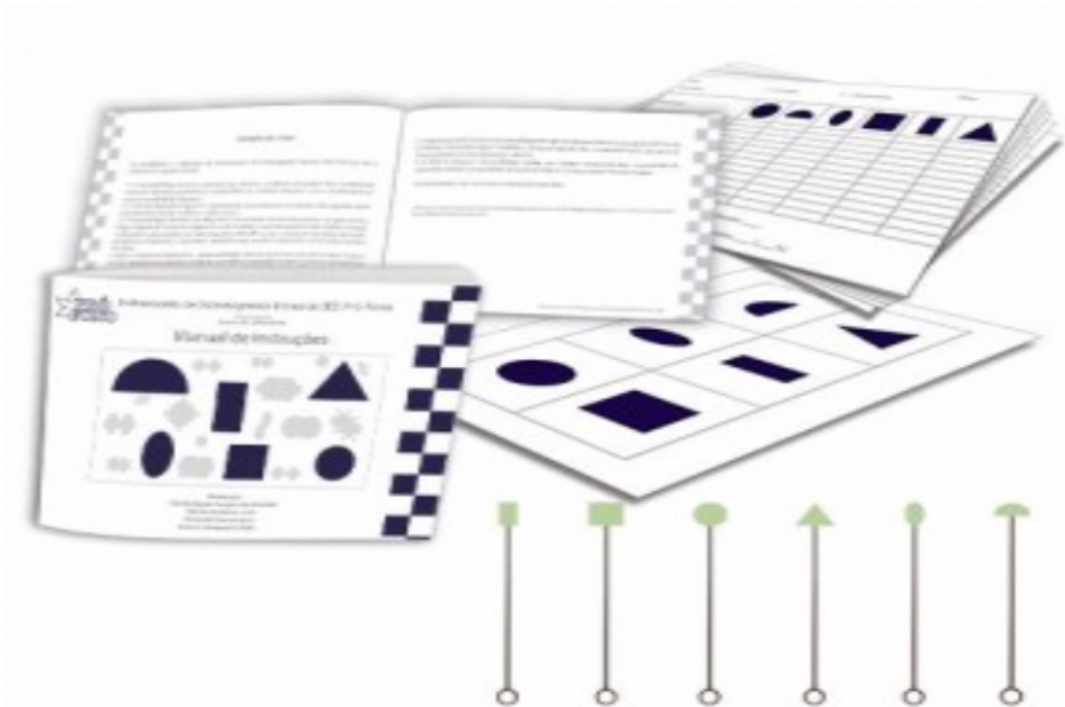
- La musculatura ineficaz de la VAS en los pacientes con un trastorno respiratorio del sueño TRS se relacionan con un déficit sensoriomotor no tratado.
- Los ejercicios utilizados por la aplicación Airway Gym® proporcionan una herramienta terapéutica para mejorar la función motora de la lengua y corregir la estereognosia lingual de los pacientes con un trastorno respiratorio del sueño (TRS).
- La musculatura ineficaz de la vía aérea superior en el paciente SAHOS podría explicar la mala adaptación a la CPAP en aquellos pacientes que no presentan alteraciones anatómicas determinantes.
- El estudio de un trastorno miofuncional en los pacientes con TRS supone un nuevo reto diagnóstico y terapéutico por los profesionales del sueño.

## **8. ANEXOS**

## ANEXO 1:

### Set de estereognosia

El instrumento de estereognosia intraoral Pró-Fono (IEI, por sus siglas en inglés) es un instrumento que nos sirve para evaluar el reconocimiento de diferentes formas en la cavidad oral. Las funciones orales dependen del buen funcionamiento del sistema neuromuscular. El pack incluye los dispositivos acrílicos con las diferentes formas, un manual de instrucciones, una pizarra ilustrada con las formas, un protocolo de evaluación y capacitación.



<https://neurotec.es/tienda/logopedia/instrumental-de-estereognosia-intraoral-ie/>



**ANEXO 2:****Cuestionario de Somnolencia Diurna de Epworth**

Nombre:..... ID#:..... Fecha:..... Edad:.....

Este cuestionario pretende valorar la facilidad para amodorrarse o quedarse dormido en cada una de las diferentes situaciones. Aunque no haya vivido alguna de estas situaciones recientemente, intente imaginar cómo le habría afectado.

Situación Probabilidad de que le dé sueño

1.- Sentado y leyendo

- a) Nunca tengo sueño
- b) Ligera probabilidad de tener sueño
- c) Moderada probabilidad de tener sueño
- d) Alta probabilidad de tener sueño

2.- Viendo la TV

- a) Nunca tengo sueño
- b) Ligera probabilidad de tener sueño
- c) Moderada probabilidad de tener sueño
- d) Alta probabilidad de tener sueño

3.- Sentado, inactivo en un lugar público (ej: cine, teatro, conferencia, etc.)

- a) Nunca tengo sueño
- b) Ligera probabilidad de tener sueño
- c) Moderada probabilidad de tener sueño
- d) Alta probabilidad de tener sueño

4.- Como pasajero de un coche en un viaje de 1 hora sin paradas

- a) Nunca tengo sueño
- b) Ligera probabilidad de tener sueño
- c) Moderada probabilidad de tener sueño
- d) Alta probabilidad de tener sueño

5.- Estirado para descansar al mediodía cuando las circunstancias lo permiten

- a) Nunca tengo sueño

- b) Ligera probabilidad de tener sueño
- c) Moderada probabilidad de tener sueño
- d) Alta probabilidad de tener sueño

6.- Sentado y hablando con otra persona

- a) Nunca tengo sueño
- b) Ligera probabilidad de tener sueño
- c) Moderada probabilidad de tener sueño
- d) Alta probabilidad de tener sueño

7.- Sentado tranquilamente después de una comida sin alcohol

- a) Nunca tengo sueño
- b) Ligera probabilidad de tener sueño
- c) Moderada probabilidad de tener sueño
- d) Alta probabilidad de tener sueño

8.- En un coche, estando parado por el tránsito unos minutos (ej: semáforo, retención,...)

- a) Nunca tengo sueño
- b) Ligera probabilidad de tener sueño
- c) Moderada probabilidad de tener sueño
- d) Alta probabilidad de tener sueño

Baremación del cuestionario:

Asigne los siguientes puntos a cada situación:

0 puntos -----Nunca.....

1 Punto.....Ligera...

2 Puntos.....Moderada...

3 Puntos.....Alta...

Suma total :.....

Si su puntuación es inferior a 6 puntos su somnolencia diurna es baja o ausente; si está comprendida entre 7 y 8 , se encuentra en la media de la población y si es superior a 9 su somnolencia es excesiva y debe consultar a un especialista.

**ANEXO 3:****CUESTIONARIO NOSE PARA EVALUACIÓN DEL SÍNTOMA DE OBSTRUCCIÓN NASAL**  
(NOSE: Nasal Obstruction Symptom Evaluation)

Nombre:

Fecha:

Le agradeceríamos que nos ayudase a entender mejor el impacto que tiene la obstrucción nasal en su calidad de vida completando el siguiente cuestionario:

En el último mes, ¿cómo han sido de molestos los siguientes síntomas para usted?

Por favor marque con un círculo la respuesta más correcta.

La puntuación varía de 0 a 100 obtenida al multiplicar el resultado por 5.

	Sin molestias	Muy poca molestia	Moderadamente molesto	Muy molesto	Severamente molesto
Congestión nasal	0	1	2	3	4
Obstrucción nasal	0	1	2	3	4
Problemas para respirar por la nariz	0	1	2	3	4
Problemas para dormir	0	1	2	3	4
Incapacidad para tomar suficiente aire por la nariz durante el ejercicio	0	1	2	3	4
<b>TOTAL =</b>	<b>(max. 20).</b>		<b>Puntuación NOSE (TOTAL x 5) =</b>		<b>( max. 100)</b>

**EVALUACIÓN NOSE**

< 25 es sugestivo de obstrucción nasal leve

25 a 50 es sugestivo de obstrucción nasal moderada

> 50 es sugestivo de obstrucción nasal severa

## **ANEXO 4:**

### Mediciones con el IOPI.

Las principales medidas del IOPI se centran en evaluar la fuerza de la musculatura lingual y la fuerza de la musculatura peri labial. Se realiza tras una compresión de un balón conectado al aparato que el paciente se introduce en la boca. Para la medición de la fuerza máxima lingual anterior se le pide al paciente que realice una compresión máxima con la lengua contra el balón apoyada en la papila. Este valor correspondería con el tono del musculo geniogloso. Se realizan 3 medidas, descansando un minuto entre cada una de ellas y se toma el valor más alto obtenido como referencia. Para la musculatura buccinadora se coloca el balón entre la mucosa gingival y la mejilla, y se solicita que el paciente haga una contracción con esta. El valor obtenido correspondería con el tono del musculo buccinador. Las medidas se obtienen en kilopascales (KPa). Existen tablas que referencian los valores obtenidos con la población normal, y que permiten al paciente saber en qué situación se encuentra su musculatura en el momento de la prueba, y donde idealmente debería estar por su edad y sexo.

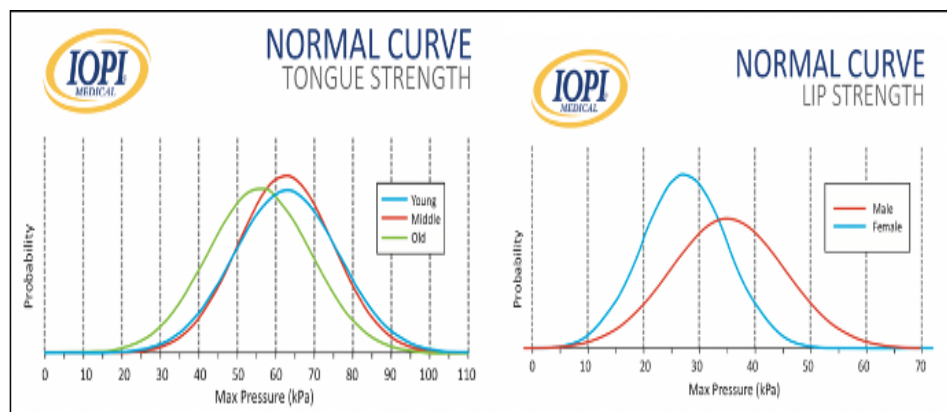


Figura 7.1: Representación de las medidas de la fuerza de la lengua (“tongue strength”) y labial (lip strength) en población sana, en función de la edad (jóvenes: azul) (edad media: rojo) y (mayores: verde) y sexo (hombres: rojo; mujeres: azul).

## Anexo 5:

Artículo publicado en Journal Of Oral Rehabilitation sobre evaluación y rehabilitación sensoriomotora en los pacientes con trastornos respiratorios del sueño.



Received: 15 November 2020 | Revised: 21 July 2021 | Accepted: 12 August 2021

DOI: 10.1111/joor.13247

ORIGINAL ARTICLE

JOURNAL OF ORAL  
REHABILITATION

WILEY

## Sensorimotor tongue evaluation and rehabilitation in patients with sleep-disordered breathing: a novel approach

Laura Rodríguez-Alcalá<sup>1,2</sup> | Juan Martín-Lagos Martínez<sup>1</sup> | Peter Baptista<sup>3</sup> | Raquel Ríos Fernández<sup>4</sup> | Francisco Javier Gómez<sup>5</sup> | Jesús Parejo Santaella<sup>6</sup> | Guillermo Plaza<sup>7</sup>

<sup>1</sup>Department of Otorhinolaryngology, Hospital, Universitario Clínico San Cecilio, Granada, Spain

<sup>2</sup>PhD Programme in Clinical Medicine and Public Health, University of Granada, Granada, Spain

<sup>3</sup>Department Otolaryngology, Clínica Universitaria de Navarra, Pamplona, Spain

<sup>4</sup>Autoimmune Disease Unit, Department of Medicine, Hospital Universitario San Cecilio, Granada, Spain

<sup>5</sup>Universidad de Granada, Granada, Spain

<sup>6</sup>Department of Radiology, Hospital, Universitario Virgen de las Nieves, Granada, Spain

<sup>7</sup>Department of Otorhinolaryngology, Hospital Sanitas La Zarzuela & Hospital Universitario Fuenlabrada, Universidad Rey Juan Carlos, Madrid, Spain

### Correspondence

Laura Rodríguez-Alcalá MD, Department of Otorhinolaryngology, Hospital Universitario Clínico San Cecilio, Av. Conocimiento s/n 18016, Granada, Spain.  
Email: laurarod3108@gmail.com

### Abstract

**Study objectives:** To evaluate tone, apraxia and stereognosis dysfunctions in patients with SDB compared with healthy controls, and to monitor the effectiveness of Airway Gym<sup>®</sup> as an easy-to-use myofunctional therapy (MT) modality in terms of the tongue's motor and sensory responses, comparing results before and after therapy.

**Methods:** This was a prospective, non-randomised pilot study of 25 patients with moderate to severe obstructive sleep apnoea-hypopnoea syndrome (OSAHS), 25 patients with primary snoring (PS) and 20 healthy controls. Qualitative and quantitative instruments—Iowa Oral Performance Instrument (IOPI), lingual apraxia and stereognosis tests were used to assess tongue sensorimotor function.

**Results:** 22 patients with PS, 21 with OSAHS and all 20 controls ended the therapy. In OSAHS, the Epworth Sleepiness Scale score decreased from  $16 \pm 7.3$  to  $12 \pm 4.5$  after therapy ( $p = 0.53$ ). In PS and OSAHS groups, the IOPI scores increased significantly. These measures did not change significantly in the controls. Lingual apraxia testing showed that controls performed all the manoeuvres, whereas PS  $5.6 \pm 1.4$  and OSAHS  $4.5 \pm 1.9$  ( $p = 0.14$ ). In the stereognosis test, the mean number of figures recognised was  $2.6 \pm 2.2$  in OSAHS,  $3.3 \pm 1.2$  in PS and  $5.7 \pm 0.9$  in control group ( $p < 0.05$ ). Patients with OSAHS recognised circles and ovals less often.

**Conclusion:** Using the Airway Gym<sup>®</sup> app produced improvements in sensorimotor tongue function in patients with SDB, due to continuous stimulation of the brain based on proprioceptive training required to localise responses when doing the exercises.

### KEY WORDS

apraxia, exercise, myofunctional therapy, obstructive sleep apnoea-hypopnoea syndrome, oropharynx, sleep apnoea, stereognosis

This is an open access article under the terms of the Creative Commons Attribution-NonCommercial-NoDerivs License, which permits use and distribution in any medium, provided the original work is properly cited, the use is non-commercial and no modifications or adaptations are made.

© 2021 The Authors. *Journal of Oral Rehabilitation* published by John Wiley & Sons Ltd.

## 1 | INTRODUCTION

Obstructive sleep apnoea-hypopnoea syndrome (OSAHS) is a very prevalent disease, affecting 1%–3% of children, 6%–20% of men and 6%–9% of women in middle age. Advanced age, male sex and the body mass index (BMI) are the most important risk factors.<sup>1</sup>

The causes of OSAHS are not fully understood. A multifactorial origin is suggested, where anatomical and functional factors interact, promoting the collapse of the upper airway, as a consequence of an imbalance between the forces that tend to close it and those that keep it open.<sup>2,3</sup> The pioneering studies of Remmers et al.<sup>4</sup> concluded that the malfunctioning of the upper airway's dilating muscles causes the obstruction and pathogenesis of the disease, with the main dilator muscle being the genioglossus. White<sup>3</sup> proposed that neuronal injury affects the muscles of the upper airways from repetitive exposure to intermittent hypoxia and/or mechanical stress as a result of snoring and recurrent closure of the upper airways that contribute to the progression of OSAHS. Guilleminault et al.<sup>5</sup> described lingual apraxia and impairment of stereognosis in patients with OSAHS, including children and adults. Lingual apraxia is the inability to perform certain movements. Lingual stereognosis is the inability to identify certain shapes with the tongue inside the mouth. In their retrospective study, lingual stereognosis was found in 11.3% of adults and 18% of children with OSAHS. These findings were consistent with impairments in velopharyngeal sensibility reported previously.<sup>6</sup> They suggested that myofunctional therapy (MT) might help improve airway function in adults and children with OSAHS.

MT is based on orofacial exercises. It is a treatment modality applied to subjects with orofacial myofunctional disorders, which can interfere with the development or functioning of the above-mentioned structures. It demonstrates benefits by promoting changes in the upper respiratory tract's dysfunctional muscles and has been used successfully to reduce the severity of OSAHS and associated symptoms in adults.<sup>7</sup> MT has also been suggested for helping to reduce the apnoea-hypopnoea index (AHI) associated with snoring,<sup>8</sup> in improving the quality of life,<sup>9</sup> and as an adjuvant intervention strategy to support adherence to continuous positive airway pressure (CPAP) therapy.<sup>10</sup> However, few high-quality randomised studies, especially over the long term, have been reported.<sup>11</sup>

Villa et al.<sup>12</sup> found significant differences in labial and lingual tone values measured by the Iowa Oral Performance Instrument (IOPI) between children with sleep-disordered breathing (SDB) who received 2 months of MT and those who did not. They also found improvements in the habit of oral breathing and the oxygen desaturation index. De Felício et al.<sup>13</sup> also found significant differences in labial and lingual tone measured by IOPI between children with OSAHS and those with SDB compared with healthy controls. They concluded that children with OSAHS have an impaired motor coordination pattern of the oropharyngeal muscles. In adults, O'Connor-Reina et al. concluded that a series of 30 patients with severe OSAHS had lower tongue and lip strength tone measured with IOPI than did healthy controls.<sup>14</sup>

### Statement of Significance

Myofunctional therapy is a theoretically effective treatment in patients with moderate OSAHS and an adjunctive treatment to continuous positive airway pressure therapy, but more scientific evidence is needed to establish its efficacy. Here, we measured sensorimotor tongue function (apraxia, strength and stereognosis) before and after oropharyngeal exercises performed with an application based on proprioceptive rehabilitation called Airway Gym<sup>®</sup>. We measured responses after performing exercises with this application in healthy controls, simple snorers and patients with OSAHS using different qualitative and quantitative instruments. We found lingual hypotonia, apraxia and impaired stereognosis in the patients with OSAHS. Improvements in the measurements and the patient's quality of life were observed after carrying out the exercises.

Buterbaugh et al. described a diminished change in brainstem activity during swallowing and reduced cerebrovascular reactivity in patients with OSAHS.<sup>15</sup> This presumably translates into adverse brain sensorimotor consequences from potential grey substance loss and is likely associated with adverse cerebrovascular consequences. These sensorimotor deficits worsen the functions of upper airway muscles, promoting lower tone, impaired stereognosis and apraxia.<sup>6</sup>

Proprioceptive training based on tactile, acoustical and visual feedback can yield meaningful improvements in somatosensory motor dysfunction found in patients with cerebrovascular deficits.<sup>16</sup> A novel mHealth application ('app' for short), Airway Gym<sup>®</sup>, has been designed to perform MT to promote oropharyngeal exercises based on proprioceptive training while interacting with a smartphone. It provides a useful tool that allows the performance of a series of exercises using the smartphone. It facilitates feedback to the patient and the physician of compliance with the therapy. The proposed average training time is 15 min a day, 5 days per week. The Airway Gym<sup>®</sup> app includes exercises to strengthen the tone of the lingual and pharyngeal muscles, which are mainly responsible for the collapse of the upper airway during sleep.<sup>17–19</sup> Furthermore, several works have demonstrated the effectiveness of the Airway Gym<sup>®</sup>, improvement the sleep apnoea hypopnea index (AHI).<sup>17–20</sup>

The objective of the study was to evaluate tone, apraxia and stereognosis dysfunctions in patients with SDB compared with healthy controls, and to monitor the effectiveness of Airway Gym<sup>®</sup> as an easy-to-use MT modality in terms of the tongue's motor and sensory responses, comparing results before and after therapy.

## 2 | METHODS

A prospective non-randomised pilot study was designed, including 25 individuals with primary snoring (PS), 25 patients with

moderate-to-severe OSAHS and 20 healthy control subjects. Our local ethics committee approved the study (AWGAPN-2019-01), and all participants gave written informed consent.

## 2.1 | Sample size calculation

The effectiveness of the use of the app for performing MT in patients with sensorimotor deficits was evaluated using the percentage changes in the IOPI observed during follow-up as the primary outcome measure. This percentage was calculated from results reported in previous studies of this app.<sup>17,19</sup> Based on an alpha level of 0.05 and power of 0.80, we estimated that 60 participants would be required. The sample size was calculated using XLSTAT (v. 16, Addinsoft France).

## 2.2 | Patients

Patients were tested using in-office examinations, sleep questionnaires, polysomnography (PSG), motor evaluation of the oropharyngeal muscles, lingual stereognosis evaluation and quantitative instruments measuring the muscle tone of the genioglossus and buccinator muscles with the IOPI tool, before and after 3-month therapy with the AirwayGym<sup>®</sup> app. Eligible patients were those aged 18–75 years who were evaluated in the Sleep Laboratory of the Pneumology Department of a university hospital.

### 2.2.1 | Inclusion and exclusion criteria

We included patients with a recent diagnosis of primary snoring (PS) (AHI < 5) or moderate to severe OSAHS (AHI > 15), full dentition and grade I–IV tonsils. We excluded patients with one or more of the following conditions: age < 18 and > 75 years, BMI of 32 kg/m<sup>2</sup> or greater, severe obstructive nasal disease, ankyloglossia, inability to complete questionnaires, severe alcoholism, unstable coronary heart disease, regular use of hypnotic medication, a history of stroke, craniofacial malformations, hypothyroidism, neuromuscular diseases, heart failure, coronary artery disease or systemic diseases associated with a known inflammatory state (eg arthritis, vasculitis or sarcoidosis). Furthermore, patients with a history of rehabilitative treatment of the orofacial musculature as well as any prior therapy for OSAHS (surgery or mandibular advancement device) that might have influenced the response to MT were also excluded.

### 2.2.2 | Otolaryngology examination

At the initial visit, participants were evaluated by an ear, nose and throat (ENT) specialist and underwent rhino-oro-fibrolaryngoscopy, Friedman staging, Marchesani protocol<sup>21</sup> and examination of their temporomandibular joint.<sup>22</sup> In addition, anthropometric variables were measured (weight, height, BMI, neck and waist circumference) pre- and post-intervention.

### Tongue manoeuvres at the initial examination

1. Pull your tongue straight out of the mouth as far as you can
2. With your tongue out, use it to touch the right cheek
3. With your tongue out, use it to touch the left cheek
4. Place the tip of the tongue in the middle of the roof of your mouth
5. Place your tongue on the top of your upper teeth
6. With your tongue out, use it to try touching your nose

FIGURE 1 Tongue manoeuvres (six types) assessed at the initial examination

## 2.3 | Questionnaires

### 2.3.1 | Epworth sleepiness scale (ESS)

The ESS was used at the beginning and end of the study to assess any subjective changes in the disease's main symptoms.<sup>23</sup>

### 2.3.2 | Visual analog scale (VAS)

A VAS was used to quantify snoring changes as assessed by the sleeper's partner at the beginning and end of the study.

### 2.3.3 | Nasal obstruction and septoplasty effectiveness (NOSE) scale

This scale was used to assess any nasal symptoms before starting the study.<sup>24</sup> Patients with severe symptoms (NOSE > 70%) were excluded, and optimisation surgery was proposed to them.

## 2.4 | Sensorimotor evaluations

### 2.4.1 | Apraxia testing

Patients were asked to perform specific manoeuvres with the tongue as outlined (Figure 1). These manoeuvres were performed twice. If the subject was unable to perform a manoeuvre after a visual demonstration, the test was scored as abnormal. These manoeuvres have been reported previously, as they are used in MT.<sup>5</sup>

### 2.4.2 | Figure testing using the Profono intraoral stereognosis instrument (ISI)

In the figure test, we showed the patient a series of shapes: circle, half-circle, oval, rectangle, triangle and square. The patient was later blindfolded and asked to identify each figure placed individually on the tongue for 10 s. The test was repeated up to three times if needed.<sup>5</sup>



### 2.4.3 | IOPI

This test was used to measure variables related to tongue function. A technical description of the IOPI is provided in the reference manual: 'The instrument is a pressure transducer connected to a battery-operated amplifier, signal conditioning circuit, and digital voltmeter'. A peak holding circuit displays peak pressure in kPa on a digital read-out. We measured the variables up to three times and recorded the highest value.<sup>25</sup>

### 2.5 | Laboratory procedures

Standard laboratory polysomnography (Somté PSG, Compumedics Ltd., 2006, Abbotsford, Australia) was performed according to the technical specifications of the American Academy of Sleep Medicine.<sup>26</sup> The recorded variables were obtained using electroencephalography (C3-A2, C4-A1, O1-A2 and O2-A1), electrooculography (two channels), chin and leg electromyography and electrocardiography. Frontal electrodes were not used. Respiratory variables were measured using linearised nasal pressure prongs and the flow waveform of the oronasal thermal signals. Respiratory effort signals were measured through inductive bands that recorded ribcage and abdominal movements. Oxygen (O<sub>2</sub>) saturation, body position and snoring were also recorded. Apnoea and hypopnoea were analysed and scored according to the following criteria: hypopnoea was defined as a  $\geq 30\%$  decrease in airflow signal amplitude lasting  $\geq 10$  s and accompanied by  $\geq 3\%$  O<sub>2</sub> desaturation. Apnoea was defined as a  $\geq 90\%$  decrease in airflow signal amplitude lasting  $\geq 10$  s. The oxygen desaturation index (ODI) was used to quantify O<sub>2</sub> desaturation  $\geq 3\%$ . The tests were used to define PS with an AHI  $< 5$  events/h of sleep, moderate OSAHS as an AHI of 15–29.9 events/h of sleep and severe OSAHS as  $\geq 30$  events/h of sleep.

Once the participants had been included in the study, AirwayGym<sup>®</sup> app therapy was started. The proposed average training time was 15 min/day, 5 days per week. It included exercises to strengthen the tone of the lingual and pharyngeal muscles, mainly responsible for the collapse of the upper airway during sleep.<sup>17,18</sup> Three months after using the app, a re-evaluation was done repeating the ENT in-office examination in order to evaluate any adverse

reaction to exercises, sleep questionnaires, lingual stereognosis evaluation and IOPI measurements.

### 2.6 | Statistical analysis

The data were analysed using IBM SPSS Statistics Base 22.0 software (IBM Corp., Armonk, NY, USA). The Mann-Whitney non-parametric *U* test was used to analyse the variables praxis, gnosis and tongue tone among three groups of patients: OSAHS, PS and healthy. A value of  $p < 0.05$  was considered statistically significant. The examiners evaluated the results prospectively and blinded to the participants' identities.

## 3 | RESULTS

In our final setting, we examined 21/25 (88%) patients with newly diagnosed moderate-to-severe OSAHS, 22/25 (84%) subjects with PS and 20 healthy controls after they met the inclusion and exclusion criteria of the study and had followed the exercises for 3 months. Four patients in the OSAHS group and three in the PS group did not end the study and discontinued the exercises.

### 3.1 | Anthropometric measures

Most of the patients included in our study were middle-aged men and slightly overweight, but none were considered to be obese. All 20 patients with OSAHS were using the CPAP device during the performance of the study. Baseline BMI, AHI and sleepiness assessment results are shown in Table 1. We did not find any significant change in the BMI, neck circumference or waist values after performing the exercises (Table 2).

### 3.2 | Lingual praxis manoeuvres

At the beginning of the study, patients were asked to perform lingual manoeuvres to assess tongue motor dysfunction, but we observed

Variable	PS (N=22)		OSAHS (N=21)		Healthy (N=25)		<i>p</i> <sup>a</sup>
	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	
Age (years)	49.7	7.9	51.4	9.3	44	6.4	0.57
BMI (Kg/m <sup>2</sup> )	24.1	3.4	25.4	4.1	22.8	5.6	0.4
Neck (cm)	39.4	5.2	40.8	5.6	38.2	4.8	0.8
Waist (cm)	95.0	9.6	98.0	10.3	88	11.1	0.06
AHI (e/h)	1.1	0.27	21.8	6.3	<5	-	<0.001 <sup>†</sup>

Abbreviation: BMI, body mass index.

<sup>a</sup>Non-parametric Kruskal-Wallis test.  $p < 0.05$  difference statistically significant.

<sup>†</sup>represents the significant results in the statistical analysis for a  $p$  value  $< 0.05$ .

TABLE 1 Characteristics of patients with primary snoring (PS), obstructive sleep apnoea (OSAHS) and healthy. Mean and standard deviation (SD)

TABLE 2 Variables analysed in the group of patients SDB before and after 3 months of treatment with the AirwayGym<sup>®</sup> app

	Pre-AirwayGym <sup>®</sup> Mean (SD) (N = 22)	Post-AirwayGym <sup>®</sup> Mean (SD) (N = 22)	p <sup>a</sup>
<b>Primary snoring (PS) group</b>			
Epworth scale	9 (7.3)	7 (4.5)	>0.05
VAS scale	7 (2.5)	3 (1.2)	0.04 <sup>†</sup>
ISI (N = 6 figures)	3.4 (1.2)	5.4 (0.6)	0.04 <sup>†</sup>
Tongue manoeuvres (N = 6)	5.6 (1.4)	5.7 (0.9)	>0.05
IOPI tongue (kPa)	42 (16.7)	68 (12.4)	0.04 <sup>†</sup>
IOPI lips (kPa)	29 (13.4)	45 (9.4)	0.03 <sup>†</sup>
Neck (cm)	39.4 (5.2)	38.1 (7.3)	>0.05
Waist (cm)	95 (9.6)	92 (6.2)	>0.05
<b>OSAHS group</b>			
Epworth scale	15 (6.5)	11 (3.6)	>0.05
VAS scale	8 (2.5)	6 (1.2)	>0.05
ISI (N = 6 figures)	2.6 (1.2)	4.6 (1.2)	0.04 <sup>†</sup>
Tongue manoeuvres (N = 6)	4.5 (1.9)	5 (0.8)	>0.05
IOPI tongue (kPa)	31 (19.5)	57 (14.2)	0.04 <sup>†</sup>
IOPI lips (kPa)	21 (8.8)	37 (12.3)	0.05 <sup>†</sup>
Neck (cm)	40.8 (5.6)	40.1 (7.3)	>0.05
Waist (cm)	98 (10.3)	95.6 (9.1)	>0.05

Abbreviations: IOPI, Iowa oral performance instrument; PS, primary snoring; SDB, Sleep-disordered breathing; VAS, scale, visual analogue scale.

ISI Figure testing using the Profono intraoral stereognosis instrument.

<sup>a</sup>Mann-Whitney test.

<sup>†</sup>represents the significant results in the statistical analysis for a p value <0.05.

different percentages of patients complying with this: all the controls complied, but only 65% of patients with PS and 30% of patients with OSAHS did so (Table 3). However, after performing the exercises with the Airway Gym<sup>®</sup> app, we found a modest improvement in the two groups of subjects with SDB, but this was not statistically significant; Table 2).

### 3.3 | Lingual stereognosis

Lingual stereognosis was significantly different between the three groups (Table 4). In the stereognosis test, the mean number of figures recognised was  $2.6 \pm 2.2$  in the OSAHS group,  $3.3 \pm 1.2$  in the snoring group and  $5.7 \pm 0.9$  in the control group ( $p < 0.05$ ). Patients with OSAHS recognised circles and ovals less often (Figure 2). However, after performing the exercises with the Airway Gym<sup>®</sup> app, we did not find significant improvement (Table 2, Figure 3).

### 3.4 | IOPI measurements

Tongue strength was statistically significantly different between the three groups (Table 5). The tongue's strength or muscle tone assessed with the IOPI tool improved significantly in both groups

( $p = 0.034$ ) after treatment with the Airway Gym<sup>®</sup> app (Table 2, Figure 3). The values reached the reference values for the normal population listed in the IOPI manual. In the PS group, IOPI tongue scores changed from  $42 \pm 16.7$  to  $68 \pm 12.4$  kPa ( $p = 0.04$ ), and the IOPI lip score changed from  $29 \pm 13.4$  to  $45 \pm 9.4$  kPa ( $p = 0.03$ ). In the OSAHS group, the IOPI tongue score changed from  $31 \pm 19.5$  to  $57 \pm 14.2$  kPa ( $p = 0.04$ ), and the IOPI lip score changed from  $21 \pm 8.8$  to  $37 \pm 12.3$  kPa ( $p = 0.03$ ).

### 3.5 | Questionnaires

Three months after Airway Gym<sup>®</sup> app treatment (Table 2), we found significant improvement in VAS in the two groups with SDB (Figure 3). However, although the ESS improved too, it did not reach statistical significance. Thus, in the patients with OSAHS, the ESS score decreased from  $16 \pm 7.3$  before to  $12 \pm 4.5$  after therapy ( $p = 0.53$ ).

## 4 | DISCUSSION

This pilot controlled non-randomised study is the first to analyse the lingual sensory and motor response in patients with SDB

Group	$\bar{x}$	%	$p^a$
Control group (N = 20)	6.0 ± 0.0	100	Control vs PS group; >0.05
PS group (N = 21)	5.6 ± 1.4	93	Control vs OSAHS group; <0.05*
OSAHS group (N = 22)	4.5 ± 1.9	75	PS group vs OSAHS group; >0.05

PS, primary snoring; OSAHS, sleep apnoea-hypopnea syndrome.

<sup>a</sup>Mann-Whitney test.

\*represents the significant results in the statistical analysis for a  $p$  value <0.05.

TABLE 3 Mean ( $\bar{x}$ ) and percentage (%) of the total number of tongue manoeuvres (N = 6) performed in the different study groups before treatment with AirwayGym® app exercises

	No. of figures	ISI test (N = 6)	$p^a$
Control group (N = 20)	5.7 ± 0.9		Control vs PS group; <0.045*
PS (N = 21)	3.4 ± 1.2		Control vs OSAHS group; <0.01*
OSAHS (N = 22)	2.6 ± 2.2		PS group vs OSAHS group; 0.06

Abbreviations: PS, primary snoring; OSAHS, sleep apnoea-hypopnea syndrome.

<sup>a</sup>Mann-Whitney test.

\*represents the significant results in the statistical analysis for a  $p$  value <0.05.

TABLE 4 Evaluation of stereognosis with the Profono Intraoral Stereognosis Instrument (ISI) test in the healthy control, primary snoring (PS) and obstructive sleep apnoea-hypopnea syndrome (OSAHS) groups before performing AirwayGym® lingual exercises

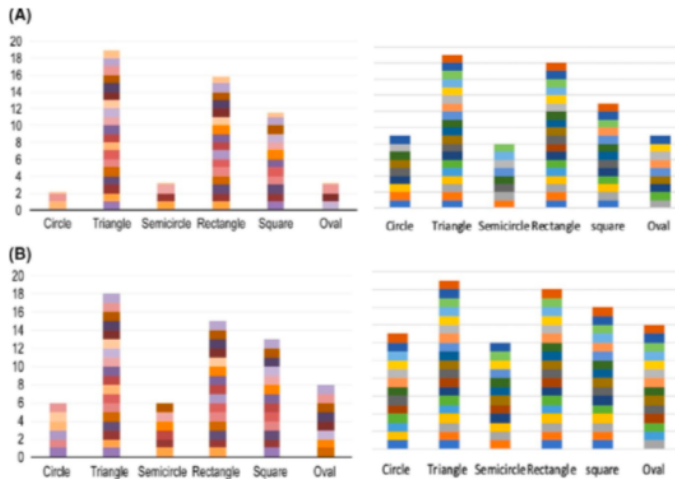


FIGURE 2 Representations of the mean shapes identified by patients with obstructive sleep apnoea-hypopnea syndrome (OSAHS) or primary snoring (PS) using the Profono intraoral stereognosis instrument. (A) Shapes identified by the OSAHS group (N = 21) before performing the Airway Gym® exercises. (B) Shapes identified by the PS group (N = 22) before performing the Airway Gym® exercises.

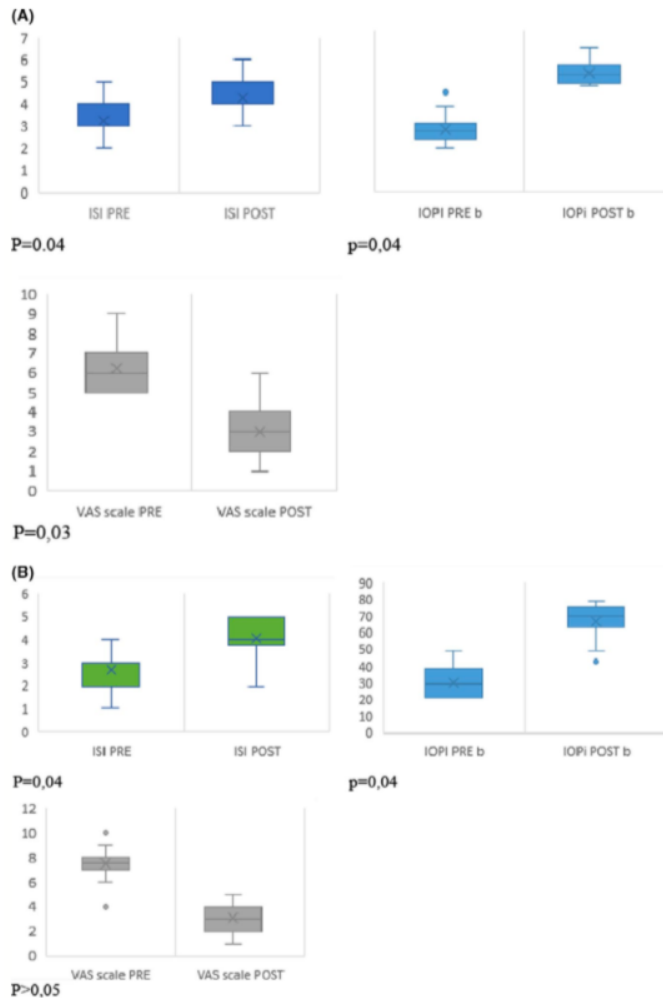
before and after performing oropharyngeal exercises. We demonstrated an impairment in sensorimotor muscle function in these patients and its improvement after this therapy. We aimed to better understand the mechanisms involved in obstructive sleep disorder. Given our experience, upper airway muscles in patients with SDB should be evaluated from three aspects: praxis, stereognosis and tone.

As Eckert described, there is no doubt that a crowded, narrow or inherently collapsible upper airway is the key cause of OSAHS, but proper muscle activity is essential for speaking, swallowing and breathing.<sup>27</sup> Understanding the concepts of neural control, muscle responsiveness and muscle effectiveness helps explain how pharyngeal dilator musculature is involved in the pathogenesis of OSAHS.<sup>27</sup> The ability to respond to changes in CO<sub>2</sub> and pharyngeal pressure during sleep is lost in patients with OSAHS. More than one-third of

such patients do not increase activity in the genioglossus muscle, which results in a poor protective response of the musculature to neural drive. One way to improve the upper airway's stability is to improve the coordination of the tongue with protrusion activities by improving the cortical excitability produced by the genioglossus muscle.<sup>27</sup> We found that the ability to perform lingual manoeuvres was significantly worse in patients with SDB than that in healthy controls. However, after MT we could not find any significant improvements in this measure. We believe that this could be because we excluded patients with ankyloglossia or other anatomical limitations, and because of the small sample size.

We observed a significant improvement in the ISI stereognosis test response after patients completed the 3-month therapy with the Airway Gym® app. The advantage of MT using this app is that the patient's active training requires both mental and motor activation

**FIGURE 3** Box plot showing statistically significant differences before and after AirwayGym® exercises in the variables analysed, in the two groups of patients with DSB (N = 43). (A) Box plot showing statistically significant differences before and after AirwayGym® exercises in the variables analysed in the group of patients with primary snoring (PS) (N = 22). (B) Box plot showing statistical differences before and after AirwayGym® exercises in the variables analysed in the group of patients with OSAHS (N = 21).



**TABLE 5** Evaluation by IOPI test in the healthy control, PS and OSAHS groups before performing oropharyngeal exercises

	IOPI-t	IOPI-l	p <sup>a</sup>
Control group (N = 20)	66 ± 18.2	42 ± 9.3	Control vs PS group; <0.05 <sup>*</sup>
PS (N = 22)	42 ± 16.7	29 ± 13.4	Control vs OSAHS group; 0.03 <sup>*</sup>
OSAHS (N = 21)	31 ± 19.5	21 ± 8.8	PS group vs OSAHS group; 0.06

Abbreviations: IOPI, Iowa oral performance instrument; l, lips; OSAHS, sleep apnoea-hypopnea syndrome; PS, primary snoring; t, tongue.

<sup>a</sup>Mann-Whitney test.

<sup>\*</sup>represents the significant results in the statistical analysis for a p value <0.05.

to complete the exercises. The app was successful in this very homogeneous and well-selected population cohort (middle-aged/elderly white men). Komoda et al.<sup>28</sup> investigated the effect of repeated tongue lift training (TLT) on the excitability of the corticomotor representation of the human tongue and jaw musculature. Sixteen participants underwent transcranial magnetic stimulation and electromyographic recordings of motor-evoked potentials. Their results suggest that repeated and standardised application of TLT triggers significant neuroplastic changes in corticomotor representation, of not only the tongue musculature but also the jaw-closing muscles. These results have implications regarding functional aspects of oral rehabilitation and could lead to an improvement in treatment procedures.

We used the IOPI to measure the tongue's motor responses after patients performed the oropharyngeal exercises. We found significant changes in these responses after the therapy. Few studies have focused on using IOPI to measure tongue and lip tone in patients with OSAHS. A systematic review published in 2013 by Adams et al.<sup>29</sup> found that IOPI has been used mainly to measure tongue strength (38 studies) and resistance (15 studies). Eighty per cent of population-based studies have focused on speech or swallowing pathologies.<sup>20,30-32</sup> Here, we wanted to measure this impairment in orofacial strength and to determine whether it could be corrected using an MT approach. We found that using the Airway Gym<sup>®</sup> app resulted in values within the normal ranges for the IOPI in patients with OSAHS and those with PS, which were much worse prior to treatment.<sup>17</sup> A recently published study on the use of IOPI in patients with OSAHS by O'Connor-Reina et al.<sup>14</sup> used tongue peak scores as a useful tool in the topographic diagnosis of airway collapse in patients with OSAHS. Another recent article is the study by Arakawa et al.<sup>33</sup> in which they evaluate the comparability between the quantitative clinical evaluation tests of oral function. To do this, they used pairs of instruments to measure maximum tongue pressure (MTP), chewing function (CF) and maximum lip force (MLF) in 26 healthy subjects.

The values with the MTP measured with the IOPI or with the JMS (TPM-01 device, JMS Co., Ltd.), can be comparable to each other ( $r = 0.39$ ;  $p < .049$ ). MLF values measured by different plates [smaller plate (29 × 17 mm) (left) and larger plate (Ulmer Modell Oral Screen; dimensions 55 × 24 mm)] and the CF measured by two different chewing gums (Hue-Chek and Vivident) cannot be directly compared to each other, CF ( $r = 0.32$ ;  $p = 0.113$ ) and MLF ( $r = 0.31$ ;  $p = 0.115$ ).

Studies have reported 15% higher type IIA muscle fibres in various airway muscles, such as the uvula, genioglossus, middle pharyngeal constrictor and palatopharyngeal muscles, in patients with OSAHS compared with healthy subjects. This could be relevant because these are fast-twitch fibres that use both aerobic and anaerobic metabolism but are less fatigue-resistant than other types of muscle fibres.<sup>4</sup> We wonder whether the muscle fibre distribution might have changed following exercises with this app in our patients. Further investigations should be performed to assure this point.

Several works have demonstrated the effectiveness of the Airway Gym<sup>®</sup> app in the therapy of patients with SDB.<sup>17-19,34</sup> One of the main weaknesses of the studies published on MT is that they used different groups of exercises to treat the patients. This app offers the same group of exercises that allow an objective evaluation of the efficacy of the therapy. Another limitation of conventional MT is its low adherence by participants.<sup>35</sup> However, in our series, we achieved successful compliance rates of 84% in groups of OSAHS and 82% in the PS group following MT. However, we wonder, if the results in long-term follow-up therapy will be the same. As has been suggested previously,<sup>17</sup> we believe that the main success of this app is that it provides proprioceptive rehabilitation based on visual, acoustical and tactile feedback.

As O'Connor-Reina et al. reported,<sup>17</sup> the exercises performed using Airway Gym showed effectiveness in severe OSAHS, but they were not designed to treat conventional myofunctional disorders. Under our experience, we proposed a new name for oropharyngeal exercises when treated SDB as 'sensorimotor muscle rehabilitation' (SMR) as some of SDB patients had mainly hypotony and sensorimotor deficits. We recommend the use of myofunctional therapy exclusively when these exercises are designed to improve tongue position, improve lip seal and enhance nasal breathing.

#### 4.1 | Limitations

Our results should be interpreted with caution because of the limited number of participants, and because our investigation was non-randomised. Other limitations were that we did not verify improvement in the muscular response capacity using PSG as the objective of this work was to evaluate the sensorimotor improvement after the use of this app in patients with SDB. We also need to question whether the improvements in lingual gnosis resulted from the loss of fat in the tongue or from an improvement in muscle tone, although we found no significant change in neck circumference, which suggests that this app works by increasing muscle tone and sensorimotor deficits. Using magnetic resonance imaging (MRI) of the neck, Marin et al.<sup>36</sup> demonstrated that the total volume of fat in the upper airway is more significant in patients with OSAHS than that in healthy subjects. This change is accompanied by decreased airway diameter, an increase in the resistance and greater collapsibility. A recent study using volumetric MRI showed that tongue and lateral wall volumes are independent risk factors for OSAHS; weight loss decreases tongue fat, and this is a mediator of the improvement in AHI.<sup>37</sup> We suggest that one possible investigation in future would be to perform imaging studies in such patients undertaking oropharyngeal exercises to evaluate the possible reduction of fat in the airway as a means of reducing the obstruction. Another limitation of this study is the concomitant use of the CPAP in the OSAHS group during the performance of the exercises, as it might impact the results of the investigation. In O'Connor-Reina et al.,<sup>17</sup> in their RCT based on two groups with severe OSAHS, one group without any therapy and other only using

this app, there were no significant changes in the control group in AHI and ODI parameters, and these changes were found in the study group. We are starting a new RCT just with severe OSAHS patients evaluating sensorimotor answers and respiratory parameters with this app compared with sham therapy and no CPAP as concomitant therapy.

## 5 | CONCLUSIONS

This is the first report of sensorimotor monitoring in adult patients with sleep disorders such as PS and OSAHS after completion of MT. The exercises used by the Airway Gym® app appear to provide a therapeutic tool for improving motor tongue function and correcting lingual stereognosis. These results might reflect the changes induced by the continuous brain and sound stimulation required to localise the tongue while using the app. Thus, we offer a new well-tested and simple protocol in the evaluation of sensorimotor impairments of patients with SDB with potential therapeutic implications.

### ACKNOWLEDGEMENTS

We acknowledge the work of Professor O'Connor-Reina who designed and produced the Airway Gym® app for his patients and whose work was central to this research.

### CONFLICT OF INTEREST

None declared.

### AUTHOR'S CONTRIBUTIONS

The patients were under the care of LRA and JML. LRA, JML and RRF conceived and design the analysis. LRA and PB contributed data and analysis tools. LRA and JPS performed the analysis. LRA, JML and GP wrote the report. FJG, PB, RRF and GP supervised.

### PEER REVIEW

The peer review history for this article is available at <https://publons.com/publon/10.1111/joor.13247>.

### DATA AVAILABILITY STATEMENT

The data that support the findings of this study are available from the corresponding author upon reasonable request.

### ORCID

Laura Rodríguez-Alcalá  <https://orcid.org/0000-0002-5148-5111>

### REFERENCES

- Peppard PE, Young T, Barnett JH, Palta M, Hagen EW, Hla KM. Increased prevalence of sleep-disordered breathing in adults. *Am J Epidemiol.* 2013;177(9):1006-1014.
- Malhotra A, Fogel RB, Edwards JK, Shea SA, White DP. Local mechanisms drive genioglossus activation in obstructive sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med.* 2000;161(5):1746-1749.
- White DP. Pathogenesis of obstructive and central sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med.* 2005;172(11):1363-1370.
- Remmers JE, deGroot WJ, Sauerland EK, Anch AM. Pathogenesis of upper airway occlusion during sleep. *J Appl Physiol.* 1978;44(6):931-938.
- Guilleminault C, Huang YS, Quo S. Apraxia in children and adults with obstructive sleep apnea syndrome. *Sleep.* 2019;42(12):zsz168.
- Hanning CD. Laryngeal and velopharyngeal sensory impairment in obstructive sleep apnea. *Sleep.* 2005;28(10):1335.
- De Felício CM, da Silva Dias FV, Trawitzki LV. Obstructive sleep apnea: focus on myofunctional therapy. *Nat Sci Sleep.* 2018;10:271-286.
- Guimarães KC, Drager LF, Genta PR, Marcondes BF, Lorenzi-Filho G. Effects of oropharyngeal exercises on patients with moderate obstructive sleep apnea syndrome. *Am J Respir Crit Care Med.* 2009;179(10):962-966.
- Ieto V, Kayamori F, Montes MI, et al. Effects of oropharyngeal exercises on snoring: a randomized trial. *Chest.* 2015;148(3):683-691.
- Diaféria G, Santos-Silva R, Truksinas E, et al. Myofunctional therapy improves adherence to continuous positive airway pressure treatment. *Sleep Breath.* 2017;21(2):387-395.
- Camacho M, Guilleminault C, Wei JM, et al. Oropharyngeal and tongue exercises(myofunctional therapy) for snoring: a systematic review and meta-analysis. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2018;275(4):849-855.
- Villa MP, Evangelisti M, Martella S, Barreto M, Del Pozzo M. Can myofunctional therapy increase tongue tone and reduce symptoms in children with sleep-disordered breathing? *Sleep Breath.* 2017;21(4):1025-1032.
- De Felício CM, da Silva Dias FV, Folha GA, et al. Orofacial motor functions in pediatric obstructive sleep apnea and implications for myofunctional therapy. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2016;90:5-11.
- O'Connor-Reina C, Plaza G, García-Iriarte MT, et al. Tongue peak pressure a tool to aid in the identification of obstruction sites in patients with obstructive sleep apnea/hypopnea syndrome. *Sleep Breath.* 2020;24:281-286.
- Buterbaugh J, Wynstra C, Provencio N, et al. Cerebrovascular reactivity in young subjects with sleep apnea. *Sleep.* 2015;38(2):241-250.
- Aman JE, Elangovan N, Yeh IL, Konczak J. The effectiveness of proprioceptive training for improving motor function: a systematic review. *Front Hum Neurosci.* 2015;8:1075.
- O'Connor-Reina C, Ignacio-García JM, Rodríguez-Ruiz E, et al. Myofunctional therapy app for severe apnea-hypopnea sleep obstructive syndrome: a pilot randomized controlled trial. *JMIR Mhealth Uhealth.* 2020; 23123(in press). 10.2196/23123. URL: <https://preprints.jmir.org/preprint/23123>
- O'Connor-Reina C, García-Iriarte MT, Casado-Morente JC, et al. New app "Apnea Bye" increases adherence in myofunctional therapy to treat sleep disordered breathing. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2018;159:32
- O'Connor-Reina C, Plaza G, Ignacio-García JM, et al. New mHealth application software based on myofunctional therapy applied to sleep-disordered breathing in non-compliant subjects. *Sleep Sci Pract.* 2020;4(3):1-10.
- Steele CM, Bayley MT, Peladeau-Pigeon M, et al. A randomized trial comparing two tongue-pressure resistance training protocols for post-stroke dysphagia. *Dysphagia.* 2016;31(3):452-461.
- Marchesan I. Lingual frenulum protocol. *Int J Orofac Myol.* 2012;38:89-103.
- Beaumont KG, Gokhale A, Heaphy N. Temporomandibular Disorder: a practical guide for dental practitioners in diagnosis and management. *Aust Dent J.* 2020. 10.1111/adj.12785.
- Chiner E, Arriero JM, Signes-Costa J, Marco J, Fuentes I. Validation of the Spanish version of the Epworth Sleepiness Scale

- in patients with a sleep apnea syndrome. *Arch Bronconeumol*. 1999;35(9):422-427.
24. Larrosa F, Roura J, Dura MJ, Guirao M, Alberti A, Alobid I. Adaptation and validation of the Spanish version of the Nasal Obstruction Symptom Evaluation (NOSE) scale. *Rhinology*. 2015;53(2):176-180.
  25. Robin DA, Luschei ES. *IOPt: Iowa Oral Performance Instrument Reference Manual*. Breakthrough; 1992.
  26. Berry RB, Gamaldo CE, Harding SM, et al. AASM Scoring Manual Version 2.2 Updates: New chapters for scoring infant sleep staging and home sleep apnea testing. *J Clin Sleep Med*. 2015;11(11):1253-1254.
  27. Eckert DJ. Phenotypic approaches to obstructive sleep apnoea – new pathways for targeted therapy. *Sleep Med Rev*. 2018;37:45-59.
  28. Komoda Y, Iida T, Kothari M, et al. Repeated tongue lift movement induces neuroplasticity in corticomotor control of tongue and jaw muscles in humans. *Brain Res*. 2015;1627:70-79.
  29. Adams V, Mathisen B, Baines S, Lazarus C, Callister R. A systematic review and meta-analysis of measurements of tongue and hand strength and endurance using the Iowa Oral Performance Instrument (IOPt). *Dysphagia*. 2013;28(3):350-369.
  30. Clark HM, Solomon NP. Age and sex differences in orofacial strength. *Dysphagia*. 2012;27(1):2-9.
  31. Youmans SR, Stierwalt JAG. Measures of tongue function related to swallowing. *Dysphagia*. 2006;21(2):102-111.
  32. Adams V, Mathisen B, Baines S, Lazarus C, Callister R. Reliability of measurements of tongue and hand strength and endurance using the Iowa Oral Performance Instrument with healthy adults. *Dysphagia*. 2014;29(1):83-95.
  33. Arakawa I, Abou-Ayash S, Genton L. Reliability and comparability of methods for assessing oral function: Chewing, tongue pressure and lip force. *J Oral Rehabil*. 2020;47:862-871.
  34. O'Connor-Reina C, Plaza Mayor G, Ignacio-García JM, et al. Floppy closing door epiglottis treated successfully with an Mhealth application based on myofunctional therapy: a case report. *Case Rep Otolaryngol*. 2019;2019:4157898.
  35. Mario Diaz S, Ana Salazar C, Felipe Bravo G, Ocampo-Garcés A. Tratamiento del síndrome de apneas e hipopneas obstructivas del sueño con terapia miofuncional orofaríngea: Experiencia en hospital público de Chile. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello*. 2019;79(4):395-403.
  36. Marín JM, Kimoff JR, Cosío MG. Obstructive sleep apnea syndrome and its treatment by continuous nasal positive air pressure. *Arch Bronconeumol*. 1990;26(6):255-261.
  37. Wang SH, Keenan BT, Wiemken A, et al. Effect of weight loss on upper airway anatomy and the apnea-hypopnea index. The importance of tongue fat. *Am J Respir Crit Care Med*. 2020;201(6):718-727.

#### SUPPORTING INFORMATION

Additional supporting information may be found in the online version of the article at the publisher's website.

**How to cite this article:** Rodríguez-Alcalá L, Martínez JM-L, Baptista P, et al. Sensorimotor tongue evaluation and rehabilitation in patients with sleep-disordered breathing: a novel approach. *J Oral Rehabil*. 2021;48:1363-1372. <https://doi.org/10.1111/joor.13247>

## **9. BIBLIOGRAFÍA**



1. Marín JM, Carrizo SJ, Vicente E, Agustí AG. Long-term cardiovascular outcomes in men with obstructive sleep apnoea-hypopnea with or without treatment with continuous positive airway pressure: An observational study. *Lancet*. 2005; 365:1046-53.
2. Young T, Peppard PE, Gottlieb DJ. Epidemiology of obstructive sleep apnea: A population health perspective. *Am J Respir Crit Care Med*. 2002; 165(9):1217-39.
3. Young T, Palta M, Dempsey J, Skatrud J, Weber S, Badr S. The occurrence of sleep-disordered breathing among middle-aged adults. *N Engl J Med* 1993; 32:1230-35.
4. Sforza E, Chouchou F, Collet P, Pichot V, Barthelemy JC, Roche F. Sex differences in obstructive sleep apnoea in an elderly French population. *Eur Respir J* 2011; 137:1137-43.
5. Peppard PE, Young T, Barnet JH, Palta M, Hagen EW, Hla KM. Increased prevalence of sleep-disordered breathing in adults. *Am J Epidemiol* 2013; 177:1006–14.
6. Sharma SK, Ahluwalia G. Epidemiology of adult obstructive sleep apnoea syndrome in India. *Indian J Med Res* 2010; 131:171–5.
7. Chamara V, Perret J, C, Lodge J., Lowe A, Campbell B, Matheson C, et al. Prevalence of Obstructive Sleep Apnea in the general population: A systematic review. *Sleep Medicine Reviews* 2017; 34:70-81.
8. Joosten SA, Hamilton GS, Naughton MT. Impact of Weight Loss Management in OSA. *Chest* 2017; 152:194-220.
9. Bixler EO, Vgontzas AN, Have TTEN, Tyson K, Kales A. Effects of Age on Sleep Apnea in Men. *Am J Respir Crit Care Med*. 1998; 157:144-8.

10. Gray EL, McKenzie DK, Eckert DJ. Obstructive sleep apnea without obesity is common and difficult to treat evidence for a distinct pathophysiological phenotype. *J Clin Sleep Med* 2016; 13:81-8.
11. Guilleminault C, Tilkian A, Dement WC. The sleep apnea syndromes. *Annu Rev Med* 1976; 27; 465-85.
12. AASM Task Force A, American Academy of Sleep Medicine Task Force. Sleep-Related Breathing Disorders in Adults: Recommendations for Syndrome Definition and Measurement Techniques in Clinical Research. *Sleep*. 1999; 22(5):667-89.
13. Chouard CH, Valty J, Meyer B, Chabolle F, Fleury B, Véricel R, et al. [Chronic rhonchopathy or snoring. Clinical aspects and therapeutic indications]. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac*. 1986;103(5): 319-27.
14. Malhotra A, Fogel RB, Edwards JK, Shea SA, White DP. Local mechanisms drive genioglossus activation in obstructive sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med* 2000; 161:1746-9.
15. White DP. Pathogenesis of obstructive and central sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med* 2005; 172:1363-70.
16. Remmers JE, deGroot WJ, Sauerland EK, Anch AM. Pathogenesis of upper airway occlusion during sleep. *J Appl Physiol* 1978; 44:931-8.
17. Okabe S, Hida W, Kikuchi Y, y cols. Upper airway muscle activity during REM and non- Rem sleep of patients with obstructive sleep apnea. *Chest* 1994; 106:767-781.
18. Riley R, Guilleminault C, Powell N, y cols. Mandibular osteotomy and hyoid bone advancement for obstructive sleep apnea: A case report. *Sleep* 1984; 7:79-84.

19. Shangkuan, H, Xinghai, W, Zengxing, W, Shizhen, Z, Shiyong, J, Yishi, C. Anatomic Bases of Tongue Flaps. *Surg. Radiol. Anat* 1998; 20(2):83-8.
20. Sommerz D, Romero L.A, Hernández J. Características y variaciones anatómicas de la arteria lingual en población mexicana y su correlación quirúrgica con la radiofrecuencia de la base de la lengua en el tratamiento del síndrome de apnea obstructiva del sueño. *An ORL Mex* 2010; 55(4):127-32.
21. Cuestas G., Boccio C. Factores morfogénicos del síndrome de apneas obstructivas del sueño en niños. *FASO* 2015; 22(2):32-3.
22. Eckert DJ. Phenotypic approaches to obstructive sleep apnoea. New pathways for targeted therapy. *Sleep Med Rev.* 2018; 37:45-59
23. Eckert DJ, White DP, Jordan AS, Malhotra A, Wellman A. Defining phenotypic causes of obstructive sleep apnea. Identification of novel therapeutic targets. *Am J Respir Crit Care Med.* 2013; 188(8):996-1004.
24. Schwab RJ, Pasirstein M, Pierson R, Mackley A, Hachadoorian R, Arens R, et al. Identification of upper airway anatomic risk factors for obstructive sleep apnea with volumetric magnetic resonance imaging. *Am J Respir Crit Care Med.* 2003; 168(5):522–30.
25. Coxson HO, Eastwood PR, Williamson JP, Sin DD. Phenotyping airway disease with optical coherence tomography. *Respirology.* 2011;16(1):34–43.
26. Carlisle T, Carthy ER, Glasser M, et al. Upper airway factors that protect against obstructive sleep apnoea in healthy older males. *Eur Respir J.* 2014; 44(3):685-93.
27. Safiruddin F, Koutsourelakis I, de Vries N. Upper airway collapse during drug induced sleep endoscopy: head rotation in supine position compared with lateral head and trunk position. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2015; 272(2):485-8.

28. Ito E, Tsuiki S, Maeda K, Okajima I, Inoue Y. Oropharyngeal crowding closely relates to aggravation of OSA. *Chest*. 2016; 150(2):346-52.
29. Segal Y, Malhotra A, Pillar G. Upper airway length may be associated with the severity of obstructive sleep apnea syndrome. *Sleep Breath*. 2008; 12(4):311-16.
30. Morrison DL, Launois SH, Isono S, Feroah TR, Whitelaw WA, Remmers JE. Pharyngeal narrowing and closing pressures in patients with obstructive sleep apnea. *Am Rev Respir Dis*. 1993; 148(3):606–11.
31. Remmers JE, Degroot WJ, Sauerland EK et al. Pathogenesis of upper airway occlusion during sleep. *J Appl Physiol* 1978; 44:931-8.
32. Bilston LE, Gandevia SC. Biomechanical properties of the human upper airway and their effect on its behavior during breathing and in obstructive sleep apnea. *J Appl Physiol*. 2014; 116(3):314-24
33. Yagi H, Nakata S, Tsuge H, Yasuma F, Noda A, Morinaga M, et al. Morphological examination of upper airway in obstructive sleep. *Auris Nasus Larynx*. 2009; 36(4):444-9.
34. Ramírez JM, García AJ, Anderson TM, Koschnitzky JE, Peng YJ, Kumar GK, et al. Central and peripheral factors contributing to obstructive sleep apneas. *Respir Physiol Neurobiol*. 2013; 189(2):344- 53. <http://doi.org/bnkh>.
35. Isono S, Feroah TR, Hajduk EA, Brabt R, Whitelaw WA, Remmers JE. Interaction of cross-sectional area, driving pressure, and airflow of passive velopharynx. *J Appl Physiol*. 1997; 83(3):851-9.
36. Venegas-Mariño M; Camilo García J. Fisiopatología del síndrome de apnea-hipopnea obstructiva del sueño (SAHOS) Pathophysiology of obstructive sleep apnea-hypopnea syndrome (OSAHS). *Rev. Fac. Med*. 2017; 65:25-8.

37. Owens RL, Edwards BA, Sands SA, Butler JP, Eckert DJ, White DP, et al. Upper airway collapsibility and patterns of flow limitation at constant end-expiratory lung volume. *J Appl Physiol* 2012; 113:691-9.
38. Jordan AS, Cori JM, Dawson A, Nicholas CL, O'Donoghue FJ, Catcheside PG, et al. Arousal from sleep does not lead to reduced dilator muscle activity or elevated upper airway resistance on return to sleep in healthy individuals. *Sleep* 2015; 38:53-9.
39. Genta PR, Owens RL, Edwards BA, Sands SA, Eckert DJ, Butler JP, et al. Influence of pharyngeal muscle activity on inspiratory negative effort dependence in the human upperairway. *Respir Physiol Neurobiol* 2014; 201:55-9.
40. Brown EC, Cheng S, McKenzie DK, Butler JE, Gandevia SC, Bilston LE. Respiratory movement of upper airway tissue in obstructive sleep apnea. *Sleep* 2013; 36:1069-76.
41. Wellman A, Edwards BA, Sands SA, Owens RL, Nemati S, Butler J, et al. A simplified method for determining phenotypic traits in patients with obstructive sleep apnea. *J Appl Physiol* 2013; 114:911-22.
42. Dotan Y, Pillar G, Schwartz AR, Oliven A. Asynchrony of lingual muscle recruitment during sleep in obstructive sleep apnea. *J Appl Physiol* 2015; 118:1516-24.
43. Terrill PI, Edwards BA, Nemati S, Butler JP, Owens RL, Eckert DJ, et al. Quantifying the ventilatory control contribution to sleep apnea using polysomnography. *Eur Respir J* 2015; 45:408-18.
44. Bilston LE, Gandevia SC. Biomechanical properties of the human upper airway and their effect on its behavior during breathing and in obstructive sleep apnea. *J Appl Physiol* 2014; 116:314-24.

45. Eckert DJ, Younes MK. Arousal from sleep: implications for obstructive sleep apnea pathogenesis and treatment. *J Appl Physiol* 2014; 116:302-13.
46. Phillipson EA, Sullivan CE. Arousal: the forgotten response to respiratory stimuli. *Am Rev Respir Dis* 1978; 118:807-9.
47. Gleeson K, Zwillich CW, White DP. The influence of increasing ventilatory effort on arousal from sleep. *Am Rev Respir Dis* 1990; 142:295-300
48. Eckert DJ, White DP, Jordan AS, Malhotra A, Wellman A. Reply: arousal threshold in obstructive sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med* 2014;189:373-4.
49. Younes M. Role of arousals in the pathogenesis of obstructive sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med* 2004; 169:623-33
50. Dempsey, J.A.; Veasey, S.C. Morgan BJ Pathophysiology of sleep apnea. *Physiol. Rev.* 2010; 90:47–112.
51. Carter SG, Berger MS, Carberry JC, Bilston LE, Butler JE, Tong BK, et al. Zopiclone increases the arousal threshold without impairing genioglossus activity in obstructive sleep apnea. *Sleep* 2016;39:757-66.
52. Peppard PE, Young T, Barnet JH, Palta M, Hagen EW, Hla KM. Increased prevalence of sleep-disordered breathing in adults. *Am J Epidemiol.* 2013; 177(9): 1006–14.
53. Malhotra A, Fogel RB, Edwards JK, Shea SA, White DP. Local mechanisms drive genioglossus activation in obstructive sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med.* 2000; 161(5): 1746–49.
54. White DP. Pathogenesis of obstructive and central sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med.* 2005; 172(11): 1363–70.

55. Remmers JE, deGroot WJ, Sauerland EK, Anch AM. Pathogenesis of upper airway occlusion during sleep. *J Appl Physiol.* 1978; 44(6): 931–38.
56. De Felício CM, da Silva Dias FV, Trawitzki LV. Obstructive sleep apnea: focus on myofunctional therapy. *Nat Sci Sleep.* 2018; 10: 271–86.
57. Ieto V, Kayamori F, Montes MI, et al. Effects of oropharyngeal exercises on snoring: a randomized trial. *Chest.* 2015; 148(3): 683–91.
58. Guimarães KC, Drager LF, Genta PR, Marcondes BF, Lorenzi-Filho G. Effects of oropharyngeal exercises on patients with moderate obstructive sleep apnea syndrome. *Am J Respir Crit Care Med.* 2009; 179(10): 962–6.
59. Diaféria G, Santos-Silva R, Truksinas E, et al. Myofunctional therapy improves adherence to continuous positive airway pressure treatment. *Sleep Breath.* 2017; 21(2): 387–95.
60. Camacho M, Guilleminault C, Wei JM, *et al.* Oropharyngeal and tongue exercises (myofunctional therapy) for snoring: a systematic review and meta-analysis. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2018; 275(4): 849–55.
61. Hanning CD. Laryngeal and velopharyngeal sensory impairment in obstructive sleep apnea. *Sleep.* 2005; 28(10): 1335.
62. Guilleminault C, Huang YS, Quo S. Apraxia in children and adults with obstructive sleep apnea syndrome. *Sleep.* 2019; 42(12): zsz168.
63. O'Connor Reina C, Plaza G, Ignacio-García JM, *et al.* New mHealth application software based on myofunctional therapy applied to

sleep-disordered breathing in non-compliant subjects. *Sleep Sci Pract.* 2020; 4(3):1-10.

64. Marchesan I. Lingual frenulum protocol. *Int J Orofac Myol.* 2012; 38: 89–103.

65. Beamont, K Garg, A Gokhale, N Heaphy. Temporomandibular Disorder: a practical guide for dental practitioners in diagnosis and management. *Australian dental Journal* 2020. <https://doi.org/10.1111/adj.12785>

66. IOPI Medical LLC, Iowa Performance Instrument: User’s Manual; 2008. Available at <http://www.iopimedical.com/>

67. O’Connor-Reina C, Ignacio-Garcia JM, Rodriguez-Ruiz E, et al. Myofunctional therapy app for severe apnea–hypopnea sleep obstructive syndrome: a pilot randomized controlled trial. *JMIR Mhealth Uhealth.* 2020: e23123.

68. O’Connor-Reina C, García-Iriarte MT, Casado-Morente JC, et al. New app “Apnea Bye” increases adherence in myofunctional therapy to treat sleep disordered breathing. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2018; 159:323-30.

69. Larrosa F, Roura J, Dura MJ, Guirao M, Alberti A, Alobid I. Adaptation, and validation of the Spanish version of the Nasal Obstruction Symptom Evaluation (NOSE) scale. *Rhinology.* 2015; 53(2): 176–80.

70. Quashie-Williams R, daCosta OO, Isiekwe MC. Oral habits, prevalence and effects on occlusion of 4-15 year old school children in Lagos, Nigeria. *NigerPostgrad Med J* 2010; 17(2): 113–7.

71. Northcutt M. Overview the lingual frenum. *J Clin Orthod* 2009; 18: 57-6.



72. Komoda Y, Iida T, Kothari M, et al. Repeated tongue lift movement induces neuroplasticity in corticomotor control of tongue and jaw muscles in humans. *Brain Res.* 2015; 1627:70–9.
73. Adams V, Mathisen B, Baines S, Lazarus C, Callister R. A systematic review and meta-analysis of measurements of tongue and hand strength and endurance using the Iowa Oral Performance Instrument (IOPI). *Dysphagia.* 2013; 28(3): 350–69.
74. Steele CM, Bayley MT, Peladeau-Pigeon M, et al. A randomized trial comparing two tongue-pressure resistance training protocols for post-stroke dysphagia. *Dysphagia.* 2016; 31(3): 452–61.
75. Youmans SR, Stierwalt JAG. Measures of tongue function related to swallowing. *Dysphagia.* 2006; 21(2): 102–11.
76. O'Connor-Reina C, Plaza G, Garcia-Iriarte MT, et al. Tongue peak pressure a tool to aid in the identification of obstruction sites in patients with obstructive sleep apnea/hypopnea syndrome. *Sleep Breath.* 2020; 24:281–6.
77. Arakawa I, Abou-Ayash S, Genton L. Reliability, and comparability of methods for assessing oral function: Chewing, tongue pressure and lip force. *J Oral Rehabil.* 2020; 47:862–71.
78. O'Connor Reina C, Plaza Mayor G, Ignacio-Garcia JM, et al. Floppy closing door epiglottis treated successfully with an Mhealth application based on myofunctional therapy: a case report. *Case Rep Otolaryngol.* 2019; ID 4157898.
79. Mario Diaz S, Ana Salazar C, Felipe Bravo G, Ocampo-Garcés A. Tratamiento del síndrome de apneas e hipopneas obstructivas del sueño con

terapia miofuncional orofaríngea: Experiencia en hospital público de Chile. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello*. 2019; 79(4): 395–403.

80. Marín JM, Kimoff JR, Cosio MG. Obstructive sleep apnea syndrome and its treatment by continuous nasal positive air pressure. *Arch Bronconeumol*. 1990; 26(6):255–61.

81. Wang SH, Keenan BT, Wiemken A, et al. Effect of weight loss on upper airway anatomy and the apnea–hypopnea index. The importance of tongue fat. *Am J Respir Crit Care Med*. 2020; 201(6):718–27.

