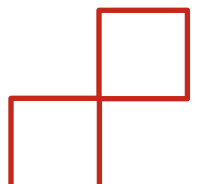


Grado en Odontología
Trabajo Fin de Grado
Curso 2022-23

**BENEFICIOS DE LA PLACA PALATINA DE
CASTILLO-MORALES EN EL DESARROLLO
OROFACIAL DE PACIENTES CON SÍNDROME DE
DOWN: UNA REVISIÓN SISTEMÁTICA**

Presentado por: Bianca Quartararo

Tutora: Dra. Dña. M^a Teresa Chofré Lorente



AGRADECIMIENTOS

Un grazie di cuore a mio padre per avermi insegnato il vero significato del sacrificio e aver creduto prima di me che ce l'avrei fatta.

A mia madre, invece, va tutta la mia riconoscenza per avermi insegnato la forza interiore che mi ha reso la persona che sono oggi.

Le mie sorelle meritano un enorme ringraziamento per avermi insegnato a non mollare mai e a perseverare, non importa quanto lontano o difficile sembri l'obiettivo.

A mia nonna, che ha avuto da sempre per me gesti di amore e di supporto e che con il suo bene e la sua bontà ha seguito ogni mia tappa verso questo grande traguardo.

Un grande grazie alla mia famiglia, che pur essendo lontano, non mi ha mai fatto sentire la sua assenza.

Fondamentali si sono rivelati in questi anni la fiducia, il sostegno e la considerazione che ha riversato in me la mia compagna di viaggio, Mica, motore che mi ha permesso di raggiungere questo traguardo e a cui devo un grazie infinito per avermi accompagnata in questo lungo e tortuoso percorso.

Quindi ringrazio per la disponibilità, attenzione e gentilezza dimostrati durante la stesura di questo lavoro la mia tutora Teté, mia sostenitrice numero uno, amica e anche un po' sorella maggiore.

ÍNDICE

1. RESUMEN.....	1
2. ABSTRACT.....	2
3. PALABRAS CLAVES.....	4
4. INTRODUCCIÓN	5
4.1 Generalidades.....	5
4.2 Diferentes formas.....	7
4.3 Diagnóstico pre y post natal.....	8
4.4 Características orofaciales.....	9
4.5 Terapia miofuncional.....	12
5. JUSTIFICACION E HIPÓTESIS.....	18
6. OBJETIVOS.....	20
7. MATERIAL Y MÉTODO.....	21
7.1 Identificación de la pregunta PIO.....	21
7.2 Criterios de elegibilidad.....	21
7.3 Fuentes de información y estrategia de la búsqueda de datos.....	22
7.4 Proceso de selección de los estudios.....	24
7.5 Extracción de datos.....	25
7.6 Valoración de calidad.....	26
7.7 Síntesis de datos.....	26
8. RESULTADOS.....	27
8.1 Selección de los estudios. Flow chart.....	27
8.2 Análisis de las características de los estudios revisados.....	29
8.3 Evaluación de la calidad metodológica y riesgo de sesgo.....	30
8.4 Síntesis de resultados.....	32
9. DISCUSIÓN.....	47
9.1 Cierre bucal	47
9.2 Protrusión y posición lingual	49
9.3 Postura y tonicidad labial.....	52
9.4 Limitaciones del estudio.....	53
9.5 Perspectivas futuras.....	54
10. CONCLUSIONES.....	55
11. BIBLIOGRAFÍA.....	56
12. ANEXOS.....	60

1. Resumen

Introducción: Los pacientes con síndrome de Down presentan rasgos faciales distintivos y una alta prevalencia de anomalías dentales y maloclusiones. La terapia miofuncional de estimulación orofacial combina la placa palatina de memoria (PPM) con la fisioterapia de los músculos faciales. La PPM es un aparato removible que consta de un estimulador lingual y uno vestibular para modificar la posición de la lengua y mejorar los movimientos voluntarios de los músculos, para conseguir un completo cierre bucal. Los objetivos de esta revisión sistemática se basan en analizar los beneficios clínicos generados por el abordaje ortodóncico mediante el uso de la PPM de Castillo-Morales en los pacientes con síndrome de Down, mediante la evaluación del posicionamiento lingual y la estimación de la competencia labial; y por último establecer las ventajas fisiológicas y funcionales que supone la aplicación del protocolo descrito por Castillo-Morales.

Material y método: Se realizó una búsqueda electrónica en las bases de datos PubMed, Scopus y Web of Science sobre el uso de la PPM según el método del Dr. Castillo-Morales en pacientes con síndrome de Down hasta diciembre 2022.

Resultados: De 173 artículos potencialmente elegibles, 10 cumplieron con los criterios de inclusión. Analizando el cierre bucal, se encontró una eficacia significativa tras la colocación del PPM. Además, se evidenció que los participantes con peores grados de maloclusión obtenían resultados más efectivos y más rápidamente. En cuanto a la posición y protrusión lingual, los mejores resultados se dieron en aquellos cuya protrusión lingual era más prominente. Por último, algunos autores analizaron la postura y tonicidad labial, respondiendo casi la totalidad de los pacientes tratados con la PPM favorablemente, sin llegar a lograr la normalidad total.

Conclusión: A pesar de las limitaciones, la terapia parece ser efectiva, aportando beneficios clínicos en el cierre bucal, en la protrusión y posición lingual y en la tonicidad labial.

2. Abstract

Introduction: Patients with Down syndrome present distinctive facial features and a high prevalence of dental anomalies and malocclusions. Myofunctional orofacial stimulation therapy combines the palatal plate (PPM) with physiotherapy of the facial muscles. The PPM is a removable appliance consisting of a tongue and vestibular stimulator to modify tongue position and improve voluntary muscle movements to achieve full mouth closure. The objectives of this systematic review are based on analysing the clinical benefits generated by the orthodontic approach using the Castillo-Morales PPM in patients with Down's syndrome, by evaluating tongue positioning and estimating lip competence; and finally, to establish the physiological and functional advantages of applying the protocol described by Castillo-Morales.

Material and method: An electronic search was carried out in the databases PubMed, Scopus and Web of Science on the use of PPM according to the method of Dr. Castillo-Morales in patients with Down's syndrome until December 2022.

Results: Of 173 potentially eligible articles, 10 met the inclusion criteria. Analysing buccal closure, significant efficacy was found after PPM placement. In addition, it was found that participants with worse degrees of malocclusion had more effective and faster results. In terms of lingual protrusion and position, the best results were found in those whose lingual protrusion was more prominent. Finally, some authors analysed posture and lip tone, with almost all patients treated with PPM responding favourably, without achieving total normality.

Conclusion: Despite the limitations, the therapy seems to be effective, providing clinical benefits in mouth closure, protrusion and position of the tongue and lip tone.

Listado de símbolos y siglas:

1. (DS): Síndrome de Down
2. (GC): Grupo control
3. (GT): Grupo test
4. (MVP): Prolapso de la válvula mitral
5. (PPM): Placa palatina de memoria

3. Palabras clave

- I. Down syndrome
- II. Trisomy 21
- III. Castillo-Morales
- IV. Palatal plate
- V. Myofunctional therapy
- VI. Orofacial stimulation
- VII. Stimulating palatal plate
- VIII. Open bite
- IX. Tongue protrusion
- X. Oral hypotonia

4. Introducción

4.1 Generalidades

El síndrome de Down (DS) fue descrito por primera vez por Jean-Etienne-Dominique Esquirol en 1838 y posteriormente por Edouard Séguin en 1846.

Esquirol publicó un libro describiendo, en una de sus secciones, algunos aspectos del síndrome, pero no identificándolo como una condición distinta ni dándole un nombre en concreto.

Según Esquirol, estos pacientes se caracterizaban por: protrusión lingual, hendiduras palpebrales ascendentes, puente nasal plano y pliegues epicánticos, junto con talla baja, alteraciones a nivel de las extremidades, cuello corto y retraso mental.

Fue John Langdon Down en 1866 quién lo describió ampliamente en una publicación, como “mongolismo” o “mongoloidismo” precisamente por la semejanza somática de los pacientes con los niños de esta etnia; especialmente por el desarrollo del cráneo, la hipoplasia mandibular y el elevado porcentaje de desarrollar maloclusiones en comparación con la población no afecta (1-6).

El doctor Down, llegó a esta conclusión mediante la realización sistemática de fotografías, en las que analizó las características faciales y los parámetros craneométricos de sus pacientes e interpretó las peculiaridades de este grupo como un defecto en la evolución.

Pero no fue hasta 1959, gracias a las innovaciones tecnológicas, cuando Jerome Lejeune identificó el síndrome como consecuencia de la alteración cromosómica en el cromosoma 21, estableciendo por primera vez la correlación (7).

Con el paso de los años, ya en 1961 el término “mongoloidismo” empezó a considerarse inadecuado y ofensivo, tanto que cayó en desuso (1-6).

El DS es la anomalía cromosómica humana más frecuente, que afecta aproximadamente a 1 de cada 800 a 1250 bebés vivos (4,6,8,9).

INTRODUCCIÓN

El síndrome de Down o “trisomía 21” es un trastorno (aneuploidía) congénito que se origina cuando la división celular anormal produce una copia adicional del cromosoma 21, con presencia de un duplicado extra de material genético en su parte larga. Una persona sana tiene de normal 46 cromosomas en su configuración genética, los problemas de no disyunción presentes en los pacientes que padecen este síndrome hacen que sus cromosomas en total sean 47 (3).

El DS es la anomalía congénita y autosómica más conocida y caracterizada por una deficiencia física y mental (4,10).

El síndrome de Down representa un 10% de todas las oligofrenias (2), y cuenta con un 8% de todas las anomalías congénitas europeas registradas (11).

En los pacientes que padecen el síndrome, el grado de discapacidad varía ampliamente desde problemas muy leves hasta problemas más graves (8,12).

Cuando se habla de síndrome, se debe tener en cuenta que no es un trastorno, si no que un conjunto de signos y síntomas que permiten identificar anormalidades o condiciones características especiales (8).

Algunas características físicas comunes a todos los pacientes afectados de DS incluyen: manos pequeñas y anchas con pliegues simiescos en la palma, el llamado pliegue palmar transversal único, baja estatura (1), postura del cuerpo característica, microcefalia, cara plana, cuello corto y ojos rasgados (8).

Además, los pacientes con síndrome de Down poseen una cantidad deficiente de células T, que causa que tengan un sistema inmunitario débil (4).

Asimismo, la población afectada por síndrome de Down tiene un mayor riesgo de tener defectos congénitos del corazón como prolapso de la válvula mitral (MVP) (50%) (4), enfermedad del reflujo esofágico (12%), infección recurrente del oído (50%), apnea obstructiva del sueño (50%) y disfunción de tiroides (15%) (13). A las patologías ya previamente descritas, añadimos enfermedades hemáticas, leucemia del niño, enfermedades oculares con consecuentes problemas de visión, enfermedad de Alzheimer y epilepsia (4,8,12).

Aunque las repercusiones orgánicas varían mucho, en todos los pacientes con DS, los cambios fisiológicos, celulares y moleculares elevan el riesgo de padecer otras enfermedades (7).

A pesar de esto, los pacientes con el síndrome son más propensos a experimentar complicaciones que dificultan el crecimiento (11).

4.2 Diferentes formas

El síndrome de Down puede aparecer como consecuencia de 3 procesos diferentes: Trisomía del par 21, Translocación y Mosaicismo.

En la Trisomía 21, que es la más común (90/95% de los casos), el cromosoma extra es el resultado de un evento aleatorio y anormal en la división celular que se lleva a cabo durante el desarrollo embrionario. Por esto, en cuanto se desarrolla el embrión todas sus células tendrán una copia extra del cromosoma 21. Algo que se considera muy relevante y en relación directa en la no disyunción del cromosoma 21, es la edad de la madre en el momento de la concepción; de forma que el riesgo varía entre 1 caso cada 2000 recién nacidos vivos en mujeres entre 20 y 30 años, elevándose a 1 cada 40 niños nacidos de madres mayores de 40 años y sube la incidencia a 1 cada 10 niños nacidos, en mujeres mayores de 49 años (3,14). Otros factores, como el nivel socioeconómico, la etnia, la presencia de enfermedades asociadas y una edad del padre elevada, no se han podido asociar con una mayor prevalencia del síndrome (7).

La Translocación es la segunda forma del síndrome de Down, menos prevalente que la Trisomía 21 (5/6%), el número total de los cromosomas en las células no varía con respecto a la población sana, la única diferencia es que hay la presencia de una copia (total o parcial) del 21 que se pega a un otro cromosoma (usualmente el número 14).

De hecho, la Translocación es la única forma del síndrome de Down que puede ser heredada según estudios. Lo más importante es que uno de los padres puede ser portador, es decir, no tenga ningún rasgo característico, pero tendrá un mayor riesgo de que su descendencia también sea portadora o que presente el síndrome de Down (1,8,11).

La última forma se denomina Mosaicismo. En esta forma, hay células que contienen 46 cromosomas y otras que contienen 47. Es la forma menos común, contando solo un 2% de toda la población afectada por la enfermedad.

En este caso, los pacientes que padecen esta tipología de DS tienen unas características fenotípicas menos marcadas con respecto a los que padecen de Trisomía 21 o de Translocación. Las características fenotípicas del paciente con DS dependen del número de células que presenten el cromosoma adicional. A mayor cantidad, más pronunciadas dichas características (1,3,4,6,8).

4.3 Diagnóstico pre y postnatal

Debido a que la edad materna está estrechamente relacionada con el riesgo de padecer la enfermedad, históricamente la amniocentesis se ha realizado de forma rutinaria en las mujeres embarazadas mayores de 35 años.

Actualmente, el riesgo de anomalías cromosómicas se evalúa combinando la edad materna, algunas características ecográficas fetales y ciertos marcadores bioquímicos para poder determinar la necesidad de realizar pruebas invasivas (7).

De hecho, existen dos tipos de pruebas para el diagnóstico prenatal del síndrome de Down: las pruebas de cribado y las pruebas diagnósticas.

El llamado "Cribado Combinado del Primer Trimestre", consiste en un programa que evalúa conjuntamente el análisis bioquímico fetal, algunos marcadores ecográficos fetales y ciertos parámetros de referencia clínica. El especialista evaluará la importancia de estos marcadores ecográficos junto con el riesgo bioquímico en la sangre de la madre para determinar la necesidad de hacer la amniocentesis.

En 1997, el ADN fetal se detectó por primera vez circulante libre en la sangre materna mediante un método de amplificación basado en la reacción en cadena de la polimerasa (PCR). Los avances en el análisis genético de los últimos años han permitido desarrollar métodos para detectar ADN en la placenta y poderlo analizar (7,15,16).

Las pruebas invasivas, que incluyen la biopsia coriónica y la amniocentesis, intentan obtener células del feto o de la placenta para estudiar directamente su cariotipo, y así proporcionar un diagnóstico definitivo de anomalías cromosómicas.

Una ecografía rutinaria realizada antes de la semana 14 de amenorrea, puede proporcionar pistas sobre el síndrome de Down al medir la "translucidez nucal" y la presencia de otros marcadores ecográficos en el feto (7).

El diagnóstico posnatal utiliza características fenotípicas como hipotonía, braquicefalia, los pliegues cervicales, hipoplasia del tercio medio, cara y perfil planos, fisuras palpebrales elevadas y baja estatura; aunque se comprueba el efectivo diagnóstico con una analítica de sangre donde se valoran las células y sus cromosomas (16).

4.4 Características orofaciales

La presencia de un cromosoma supernumerario hace que los pacientes presenten características fenotípicas peculiares, independientemente del tipo de forma de DS que sufran.

La prevalencia de maloclusiones dentales en los pacientes con DS es del 74%, en general padecen maloclusiones severas y de origen esquelético, lo que causa una mayor afectación de las funciones con comparación a la población sin-DS (4,12).

Las patologías más importantes y relevantes son: hipoplasia del tercio medio y depresión del puente nasal. Ambas, influyen en el desarrollo de la clase III molar y la mordida abierta, siendo éstas características que tienen el peor impacto en el aspecto craneofacial (2,13). A causa de la mordida abierta habitual y la consecuente respiración oral, los pacientes con DS desarrollan maloclusiones y patologías respiratorias y de la ATM (1,17); además, es muy prevalente la presencia de deglución atípica o infantil (2,12).

La respiración oral, causada por cavidad oral pequeña, macroglosia y lengua fisurada, influye positivamente en la aparición de xerostomía, periodontitis, queilitis angular y halitosis (4,18).

También se ha observado como el bruxismo tiene una prevalencia de un 42% entre los pacientes con DS (6).

En la literatura se describe que existen una serie de características orales en pacientes con DS que son más prevalentes. Entre éstas, se incluyen: labios no competentes, macroglosia y lengua fisurada (1,10). La presencia de un paladar estrecho, en V, causa un desarrollo deficiente en longitud, profundidad, altura, pero raramente

anchura, del tercio medio facial; esto se debe al grosor del paladar duro que restringe el espacio que puede ocupar la lengua y, por tanto, interfiere con el habla y la masticación (4).

Tras los estudios radiográficos de Gorlin et al. en el año 2001 y Newton and Potts en el año 1971, las características faciales más frecuentes en pacientes que padecen Trisomía 21 son braquicefalia (10), adelgazamiento del calvarium, senos nasales ausentes o poco desarrollados, disminución de la distancia intraorbitaria y hueso nasal rudimentario pequeño. Además, se ha estudiado cómo se ven afectadas las suturas del cráneo, su osificación defectuosa y su retraso en el cierre. Ya en el momento del nacimiento, existe un maxilar y una base del cráneo hipoplásicas. Esto empeora las condiciones del tercio medio facial (12).

La presión de la lengua contra los dientes mandibulares puede producir mordida abierta, diastemas y prognatismo mandibular, junto con un paladar estrecho y la hipoplasia maxilar (17,19).

La morfología craneofacial de los pacientes con síndrome de Down y, en particular, la disminución sagital de la fosa craneal anterior, con mucha frecuencia, conduce a un diagnóstico erróneo de clase III (2).

Estos cambios afectan significativamente a varios órganos, especialmente al desarrollo del cerebro. Las regiones más involucradas son el cerebelo, las asociadas de la corteza cerebral y el hipocampo, donde las neuronas tienen anomalías en la proliferación y diferenciación, y su capacidad para formar conexiones sinápticas se reduce significativamente (7).

A nivel dental, los pacientes con síndrome de Down tienen unas características muy peculiares. Es de relevante importancia la hipodoncia, con prevalencia de un 50-60%. Específicamente de los terceros molares un 74% y de los caninos diez veces más frecuente que en la población sana (11,18). El número anormal de los dientes, junto con la ausencia congénita de los permanentes son veinte veces más frecuentes (4).

Otras patologías dentales incluyen taurodontismo (con una prevalencia de un 0,54-5,6%) (4), dientes conoides e impactados (12), morfología anormal como la microdoncia, que a su vez va a favorecer la aparición de diastemas, y raíces cortas.

INTRODUCCIÓN

Entre las anomalías dentarias, es frecuente un retraso considerable en la erupción, tanto de los deciduos que de los permanentes además que con una secuencia alterada, encontraremos una prolongada retención de los deciduos o una retrasada erupción de los permanentes.

A pesar de la presencia de agenesias, microdoncia y diastemas, se ha visto cómo estas maloclusiones reducen el riesgo de la aparición de caries interproximales de clase II, III y IV evitando la impactación de restos alimenticios.

De igual manera, la prevalencia de labios y paladar hendidos en pacientes con síndrome de Down es de aproximadamente 3,3%.

Por lo contrario, se ha estudiado cómo la gingivitis y la periodontitis tienen alta prevalencia entre la población con DS (20).

A nivel muscular destaca la hipotonía del músculo facial que afecta principalmente músculos periorales, masetero y temporal, musculatura de la mímica facial, labios y lengua (1,4,19,20); la hipotonía, cuya frecuencia estimada es de un 100%, junto con la posición baja de la lengua y el empuje lingual, son factores causantes de la incompetencia labial.

Todas las características orofaciales anteriormente descritas se pueden presentar indiscriminadamente y con grado muy variable (21).

La apariencia física no solo causa estigma social y puede afectar negativamente las relaciones entre padres e hijos, sino que también puede tener graves consecuencias para la salud a corto y largo plazo (22).

Las anomalías craneofaciales acompañan las manifestaciones sistémicas junto con diversos grados de falta de desarrollo intelectual normal.

La rehabilitación manual a menudo se introduce en la primera infancia debido al fenómeno de la neuroplasticidad, la capacidad del sistema nervioso para cambiar en respuesta a estímulos externos. Estos ejercicios ayudan a coordinar el movimiento de la mandíbula y la lengua durante la succión y la deglución, y favorecen el correcto desarrollo de las funciones masticatorias y habla (1).

4.5 La terapia miofuncional

La hipotonía muscular, muy pronunciada en la región orofacial, y la falta de desarrollo del complejo maxilar se consideran las principales causas de la incompetencia labial y de la protrusión lingual (7,22).

El concepto de terapia miofuncional de estimulación orofacial fue desarrollado en los años 70 por el fisioterapeuta argentino Rodolfo Castillo-Morales. Este programa combinaba el dispositivo intraoral, llamado placa palatina de memoria (PPM), junto con la fisioterapia de los músculos faciales (7,8,22-32).

Según el doctor, el conjunto estaba indicado para los pacientes que presentaban malformaciones del aparato estomatognático, como pseudomacroglosia, una lengua amplia e hipotónica en posición interdental durante varias horas al día, una lengua con diástasis y protrusión adicional y un labio superior hipotónico (22,24,28,29).

Las medidas ortodónticas que utiliza la PPM deben considerarse de apoyo y no sustitutos de la terapia miofuncional (23).

Los objetivos de la PPM buscan modificar la posición lingual y mejorar los movimientos voluntarios actuando sobre los músculos de los labios para sellar la boca y reducir la producción de saliva. Esta placa de estimulación ha sido diseñada para evitar conductas patológicas y fomentar nuevos comportamientos funcionales. Los resultados únicamente pueden lograrse a través del uso del aparato junto con la fisioterapia y la terapia logopédica (22,23,27,31,32).

De la misma manera la finalidad principal de este enfoque terapéutico es mejorar la apariencia facial y prevenir las patologías orofaciales secundarias asociadas con la disfunción de la lengua, como el pseudoprognatismo y la protrusión bimaxilar de los incisivos (27).

Varios autores han estudiado los beneficios de la terapia con la placa ortodóntica de Castillo-Morales en combinación con la estimulación orofacial en niños con Trisomía del par 21. Éstos, incluyen principalmente modificar la posición de la lengua y de los labios, obteniendo una mejora en el tono de los músculos faciales, reduciendo el babeo,

previniendo los malos hábitos bucales y mejorando las funciones orales y mandibulares como la respiración, la succión, la masticación, la deglución y la articulación (25).

4.5.1 Morfología de la placa palatina de memoria

La PPM es un aparato de ortodoncia removible que debe confeccionarse de material acrílico muy delgado para que la lengua no se desplace. Es importante una suficiente altura vestibular evitando interferencias con los músculos y frenillos para una correcta retención (22,25).

La placa se compone de dos partes estimuladoras que actúan como cuerpo extraño intraoral provocando el reflejo de Weiffenbach (Fig. 1).

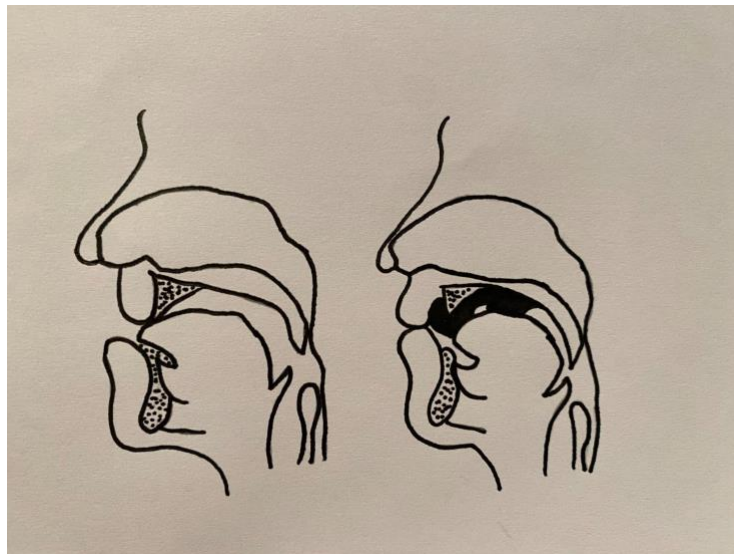


Figura 1. Reflejo de Weiffenbach.

Imagen de elaboración propia (7).

La primera parte es un estimulador lingual, llamado “botón”, que encontramos en la superficie palatina de la placa a nivel de la unión de los dos tercios anteriores y el tercio posterior del paladar. Este tiene una forma que se asemeja a un cilindro cóncavo hueco con altura de 3-4 mm y diámetro externo de 7-8 mm (7,22,26,29). El 90% de los pacientes con DS tiene diástasis lingual y por ello, requiere el uso de un botón de forma ovalada, en el restante 10% la forma será redondeada (8,26).

La segunda parte es el estimulador vestibular, formado por un engrosamiento en la superficie bucal anterior de la placa entre los pliegues nasolabiales, que provocará la

INTRODUCCIÓN

contracción de la parte superior del músculo Orbicularis oris, generando así la estimulación de todos los músculos periorales (7,29) (Fig. 2).

Además, es posible encontrar unas ranuras adicionales que pueden ser útiles cuando el efecto disminuye, debido a que el paciente se acostumbra a la placa (22).

La primera acción deseada con el uso de la PPM es que la lengua empuje contra el cilindro. Esto causa una retracción de esta dentro de la cavidad oral y una ejercitación de fuerza hacia arriba y hacia atrás, contrastando la fuerza que se ejerce hacia adelante y hacia abajo (8,23).

Raras veces la lengua evita el contacto con la placa. Sin embargo, si esto ocurre, el estimulador debe retirarse y reemplazarse (26).

Una de las principales tareas de los padres es verificar que la placa realice su efecto correctamente y que sea positiva en la lengua (7).



Figura 2. Placa palatina de memoria

Imagen de elaboración propia (22).

4.5.2 Protocolo de colocación de la PPM

Con respecto al uso de la PPM, autores como Hohoff A, y cols., sugieren que el tratamiento debe ser iniciado de forma precoz, entre los dos meses y el primer año de vida, cuando el sistema nervioso central y la cavidad bucal están en el periodo de mayor desarrollo.

Incluso, llegan a afirmar que, generalmente la erupción retrasada de los dientes deciduos en los niños con DS, favorece el uso de la placa por un tiempo más prolongado (7,8,22-24,31).

Por otra parte, es mejor interrumpir el tratamiento cuando los dientes deciduos empiezan a erupcionar porque se reduce la retención de la placa.

Sin embargo, durante este tiempo, se deben fortalecer los métodos de tratamiento alternativos como las terapias musculares y logopédicas.

Una vez que todos los dientes primarios han erupcionado por completo, el tratamiento puede reanudarse inmediatamente (22).

Los autores aconsejan re-confeccionar la placa cada 3 o 4 meses, salvo que la erupción de los dientes no obligue a adaptarlas con más frecuencia (7,26).

En lo que respecta a las pautas cotidianas del uso de la PPM, inicialmente los autores recomiendan llevarla unos pocos minutos al día (2 veces durante 5 minutos) e ir aumentando progresivamente a medida que el niño se acostumbre. Llegando a un máximo de una hora 3 veces al día, como se analizó en el estudio de G. J. Limbrock y cols. (1993), en el que los autores recomendaban colocar el aparato durante aproximadamente 4 horas al día, y adaptando el tiempo al ritmo individual del niño.

En este aspecto, el papel de los padres es fundamental para controlar el alcance del tratamiento y para asegurarse de que no se produzcan efectos indeseados.

De igual manera, se desaconseja un uso constante y/o frecuente de la PPM debido al riesgo de obtener el efecto no deseado de costumbre y la ausencia de reacción a cuerpo extraño (7,22 ,26,28).

4.5.3 Contraindicaciones y discontinuación del tratamiento con la PPM

Las posibles contraindicaciones para el tratamiento con la placa palatina de Castillo-Morales pueden incluir: respiración bucal, si los padres no motivan a los hijos y no colaboran para que el tratamiento tenga el mejor éxito o si el niño padece varias enfermedades sistémicas (8).

La terapia con la PPM se deberá discontinuar siempre y cuando la respiración oral evolucione en respiración nasal durante las actividades no verbales y al comer, cuando la

lengua permanezca en la boca en los periodos de descanso o si otros factores impidan el uso continuado de la placa, como la erupción de tres a cinco dientes maxilares (26).

Del mismo modo, la evaluación de las condiciones orales y linguales es importante, ya que en casos raros el tratamiento puede desarrollarse adversamente logrando resultados contrarios y negativos, lo que requiere una consideración cuidadosa y un cambio en el curso del tratamiento o la interrupción del mismo (22).

4.5.4 Fisioterapia orofacial

Como anteriormente descrito, el enfoque del tratamiento interdisciplinario de Castillo-Morales, consta en la colocación de la placa que debe complementarse con la realización de algunos ejercicios de fisioterapia orofacial preferiblemente iniciados en las primeras semanas de vida (22,27).

La terapia orofacial descrita por este autor consta de dos componentes:

- El primero, el llamado “Ejercicio básico de activación muscular” y
- El segundo, que consiste en estimular áreas anatómicas puntuales en la cara.

Para obtener los mejores resultados durante la terapia, es fundamental mantener la cabeza y la columna vertebral del niño en línea recta (26) .

Para empezar la rehabilitación neuromotora se efectúa el ejercicio básico. Es fundamental que el niño esté acostado sobre un colchón para efectuar lo que se define como "constant neck stretch". El operador coloca su mano dominante en la zona occipital del niño, dando impulsos de tracción constantes durante unos minutos. Después de terminar el primer movimiento, mientras la mano dominante permanece en la nuca del niño, la mano opuesta se coloca en su barbilla girando la cabeza hacia los hombros. Manteniendo la tracción del cuello y realizando movimientos contra resistencia, se logrará la activación de los músculos hipotónicos de los labios, buccinador y lengua, con el objetivo final de aumentar el tono y facilitar una movilidad fisiológica.

La segunda parte de la terapia muscular descrita por parte de Castillo-Morales consiste en la estimulación de siete puntos motores faciales (Fig. 3).

Estos puntos se estimulan mediante tracción, presión y vibración en direcciones definidas. Inicialmente, el autore recomienda la estimulación individual de cada punto y luego combinarla con el ejercicio básico descrito anteriormente (8,26,28,32).

Para un ejercicio diario, se les enseña a los padres a llevar a cabo un programa de estimulación orofacial todos los días en casa (28).



Figura 3. Puntos motores de estimulación facial.

Imagen de elaboración propia (7).

5. Justificación e Hipótesis

5.1 Justificación

La presente revisión se enfoca en los beneficios clínicos, especialmente el desarrollo orofacial, del abordaje ortodóncico mediante la placa palatina de Castillo-Morales en los pacientes con síndrome de Down.

El síndrome de Down afecta a una gran parte de la población y se sabe que, además de ser caracterizados por una morfología orofacial y condutal común, los pacientes, pueden experimentar una falta del completo desarrollo de funciones fisiológicas y vitales (1,3-11,14,17).

La terapia miofuncional de Castillo-Morales representa una opción terapéutica válida para los recién nacidos con DS.

El tratamiento con la PPM ha sido un tema debatido durante los últimos años debido al gran problema de cooperación y deficiencia, física y mental, que presentan los pacientes que padecen el síndrome.

Es preciso tener presente que existen diferentes investigaciones sobre el enfoque terapéutico del Dr. Castillo-Morales; sin embargo, con la presente revisión se pretenden actualizar los conocimientos sobre este tipo de terapias en pacientes con DS, ya que existen evidencias científicas que avalan que son beneficiosas en este tipo de pacientes (22-26,29,30,32).

Por ello, el presente estudio se ha enfocado a analizar los múltiples beneficios del uso del aparato de Castillo-Morales.

En este proyecto, esperamos demostrar que, con un correcto manejo multidisciplinario y la estimulación temprana con la fisioterapia orofacial, se pueden lograr óptimos resultados en el desarrollo de las funciones fisiológicas de nuestros pacientes, aportando informaciones que mejorarán la calidad de vida de la persona.

5.2 Hipótesis

El presente estudio establece como hipótesis de trabajo, que el abordaje ortodóncico mediante la placa palatina de Castillo-Morales proporciona unos beneficios clínicamente evidentes, especialmente, mejoría en el cierre bucal y en la posición y protrusión lingual y labial.

Sin embargo, el uso de la placa tiene que estar obligatoriamente combinado con la fisioterapia orofacial, como fue descrito en su origen, pues de otra manera no se obtendría ningún resultado.

6. Objetivos

Objetivo general

1. Analizar los beneficios clínicos generados por el abordaje ortodóncico mediante el uso de la placa palatina de memoria de Castillo-Morales en los pacientes con síndrome de Down.

Objetivos específicos

1. Estimar la competencia labial tras el uso de la placa palatina de memoria de Castillo-Morales en pacientes con síndrome de Down.

2. Evaluar el posicionamiento y la protrusión de la lengua tras el uso de la placa palatina de memoria de Castillo-Morales en pacientes con síndrome de Down.

3. Establecer las ventajas fisiológicas y funcionales que supone la aplicación del protocolo descrito por Castillo-Morales.

7. Material y Método

Para poder responder la hipótesis planteada en esta revisión sistemática se ha realizado una búsqueda electrónica, manual y cruzada utilizando diferentes fuentes documentales, siguiendo las pautas de Preferred Reporting Items for Systematic Review and Meta-Analysis (PRISMA) (33).

7.1. Identificación de la pregunta PIO

Se utilizaron las bases de datos Medline-PubMed (United States National Library of Medicine), Web of Science y Scopus para realizar una búsqueda de los artículos indexados sobre pacientes con síndrome de Down que hubieran recibido tratamiento ortodóncico con la placa palatina de Castillo-Morales, publicados hasta Diciembre de 2022. Se empleó la siguiente pregunta de enfoque de acuerdo con la población, la intervención y el diseño del estudio de resultados: *¿Qué beneficios clínicos en el desarrollo orofacial (O) ofrece el abordaje ortodóncico mediante la placa palatina de Castillo-Morales (I) en el paciente con síndrome de Down (P)?*

O1: Cierre bucal;

O2: Protrusión espontánea de la lengua;

O3: Posición de la lengua;

O4: Tono del labio superior.

7.2 Criterios de elegibilidad

Los criterios de inclusión fueron:

- Tipo de Estudio: estudios experimentales: Ensayos clínicos aleatorizados controlados, estudios de cohortes retrospectivos, estudios longitudinales y series de casos; estudios sobre individuos humanos, estudios con un seguimiento de cualquier duración; Publicaciones en inglés, español o italiano sin restricción en el año de

publicación; Publicados hasta Diciembre de 2022.

- Tipo de Paciente: Estudios sobre pacientes con síndrome de Down con características morfológicas fenotípicas aptos al tratamiento con la PPM, sin restricción sobre el tamaño de la muestra.
- Tipo de Intervención: cumplimiento del protocolo del Dr. Castillo-Morales, uso de la placa palatina de memoria junto con la fisioterapia orofacial.
- Tipo de Variables de Resultados: Estudios que proporcionaron datos relacionados con beneficios clínicos en el desarrollo orofacial como variable principal. Y como variables secundarias: el cierre bucal, la protrusión espontánea de la lengua, la posición de la lengua y el tono labial.

En cuanto a los criterios de exclusión, se descartaron: revisiones, metaanálisis, estudios experimentales en vitro y en animales, informes de expertos, comentarios o cartas al editor. Además, los estudios que no contribuyesen al logro de nuestros objetivos.

No se impusieron restricciones según el año de publicación. Cuando fue necesario, se estableció contacto con los autores para aclarar la información que faltaba.

7.3 Fuentes de información y estrategia de la búsqueda de datos

Se realizó una búsqueda automatizada en las tres bases de datos mencionadas anteriormente (PubMed, Scopus y Web of Science) utilizando las siguientes palabras claves: “Down syndrome”, “Trisomy 21”, “Castillo-Morales”, “Stimulating plate”, “Palatal plate”.

Las palabras claves se combinaron mediante operadores booleanos AND y OR, y términos controlados (“MeSH” para Pubmed) para lograr los mejores y más amplios resultados de búsqueda.

MATERIAL Y MÉTODO

La búsqueda en Pubmed fue la siguiente: (((((((((Down syndrome[MeSH Terms]) OR (trisomy 21)) OR (mongolism)) OR (chromosomal disorder)) OR (DS)) OR (meiotic nondisjunction)) OR (mitotic nondisjunction)) OR (partial trisomy 21)) AND (((((((((((((Stimulating plate) OR (Castillo-Morales plate)) OR (palate[MeSH Terms])) OR (orthotic device[MeSH Terms])) OR (palatal plate)) OR (orofacial regulation therapy)) OR (Castillo-Morales)) OR (functional appliance)) OR (palatal plates)) OR (modified palatal plate)) OR (orofacial stimulation)) OR (Castillo-Morales stimulating plate)) OR (palatal plate therapy)) OR (Castillo-Morales concept)) OR (stimulating palatal plate))) AND (((((((((Myofunctional Therapy[MeSH Terms]) OR (Child Development[MeSH Terms])) OR (Human Development[MeSH Terms])) OR (Maxillofacial Development[MeSH Terms])) OR (Adolescent Development[MeSH Terms])) OR (Musculoskeletal Development[MeSH Terms])) OR (Growth and Development[MeSH Terms]))

En el caso de la búsqueda en SCOPUS, resultó de la siguiente forma: (ALL (down AND syndrome OR trisomy 21 OR mongolism OR chromosomal AND disorder OR ds OR meiotic AND nondisjunction OR mitotic AND nondisjunction OR partial AND trisomy 21) AND ALL (stimulating AND plate OR castillo-morales AND plate OR palate OR orthotic AND device OR palatal AND plate OR orofacial AND regulation AND therapy OR castillo-morales OR functional AND appliance OR palatal AND plates OR modified AND palatal AND plate OR orofacial AND stimulation OR castillo-morales AND stimulating AND plate OR palatal AND plate AND therapy OR castillo-morales AND concept OR stimulating AND palatal AND plate) AND ALL (myofunctional AND therapy OR child AND development OR human AND development OR maxillofacial AND development OR adolescent AND development OR musculoskeletal AND development OR growth AND development))

Para Web of Science, la búsqueda fue la siguiente: ((TS=(Down syndrome OR trisomy 21 OR mongolismo OR chromosomal disorder OR DS OR meiotic nondisjunction OR mitotic nondisjunction OR partial trisomy 21)) AND TS=(Stimulating plate OR Castillo-Morales plate OR palate OR orthotic device OR palatal plate OR orofacial regulation therapy OR Castillo-Morales OR functional appliance OR palatal

MATERIAL Y MÉTODO

plates OR modified palatal plate OR orofacial stimulation OR Castillo-Morales stimulating plate OR palatal plate therapy OR Castillo-Morales concept OR stimulating palatal plate)) AND TS=(Myofunctional Therapy OR Child Development OR Human Development OR Maxillofacial Development OR Adolescent Development OR Musculoskeletal Development OR Growth and Development)

La tabla 1, incluida en la sección de Anexos, proporciona una descripción general de las búsquedas para cada base de datos utilizada.

Por otra parte, se utilizaron fuentes de consulta primaria con el fin de ampliar la información. Se realizó una búsqueda manual de artículos científicos en catálogos odontológicos como: “*Journal of Dentistry for Children*” y “*Journal of Orofacial Orthopedics*”, así como también, se utilizaron los libros: “*Tratamiento odontológico en pacientes especiales*” y “*Ortodoncia y Ortopedia dentofacial en el síndrome de Down*”.

Paralelamente, se realizó una búsqueda cruzada de artículos que puedan ser de interés para la presente revisión. Por fin se eliminaron los estudios duplicados.

7.4 Proceso de selección de los estudios

Para el correcto manejo de referencias bibliográficas, se utilizó como herramienta de gestión el programa “Mendeley” (Elsevier Inc, NY, USA); el cual permitió eliminar las referencias duplicadas.

El proceso de exclusión se realizó en tres etapas. En la primera etapa, dos revisores, (BQ, MTCHL), analizaron los estudios por título, y ya en la segunda se realizó el cribado por resúmenes. Para aquellos artículos en los que no se estaba de acuerdo, fue necesario, un tercer revisor (BL).

Posteriormente, como tercera y última etapa, los revisores seleccionaron los estudios que cumplían los criterios de elegibilidad y los incluyeron en la evaluación de texto completo.

En la segunda y tercera etapa de selección fue calculado, mediante k-statistics (Cohen kappa test), el grado de acuerdo respecto a la inclusión de los estudios.

7.5 Extracción de datos

Los artículos incluidos en el presente estudio se introdujeron en hojas de cálculo de Excel para permitir la extracción y comparación de datos.

Se incluyeron factores relacionados con el artículo, como: autores, año de publicación, tipo de estudio y número de pacientes; así como factores relacionados con la intervención como cierre bucal, protrusión espontánea lingual, posición de la lengua y tonicidad labial.

Después de una lectura detallada de los artículos incluidos en el estudio, se seleccionaron un listado de variables presentes en todos ellos que contribuyeron y aportaron informaciones para la mejor comprensión de los beneficios que se obtienen tras la aplicación del protocolo descrito por Castillo-Morales.

Variable principal:

Como variable principal, se establecen los datos relacionados con la obtención de beneficios clínicos en el desarrollo orofacial. Éstos, tienen como finalidad la mejora de la apariencia facial y la prevención y/o disminución de la aparición de patologías bucofaciales secundarias asociadas a la disfunción de la lengua y de los labios en pacientes con DS.

Variables secundarias:

En lo que respecta a las variables secundarias, se destacan principalmente 4:

1. **Cierre bucal o “apertura inactiva de la boca”**, clasificada como ligeramente abierta (<10mm) o muy abierta (>10mm).
2. **Protrusión y posición lingual**, clasificada como que sobresale ocasionalmente más allá del labio inferior, sobresale ligeramente más allá del labio inferior, o sobresale considerablemente fuera del labio inferior.
3. **Postura y tonicidad labial**, clasificado como: normal, ligeramente hipotónico o fuertemente hipotónico.

7.6 Valoración de la calidad

La valoración del riesgo de sesgo fue evaluada por dos revisores (BQ, MTCHL) con el objetivo de analizar la calidad metodológica de los artículos incluidos.

Para la evaluación de la calidad de los estudios clínicos controlados aleatorizados se utilizaron dos herramientas diferentes: la guía Cochrane 5.1.0 (<http://handbook.cochrane.org>) para los ensayos clínicos y la guía CASPe (<https://redcaspe.org/>) para los estudios de cohorte.

Entre las publicaciones, se consideraron de “bajo riesgo de sesgo” aquellas que cumplían todos los criterios, “alto riesgo de sesgo” aquellas que no cumplían uno o más criterios y, de “sesgo incierto” los estudios que presentaban falta de informaciones o en caso de incertidumbre sobre el posible sesgo.

La escala de Newcastle-Ottawa (34) se utilizó para medir la calidad de los estudios no randomizados observacionales, considerándose de “bajo riesgo de sesgo” en el caso de una puntuación >6 estrellas y “alto riesgo de sesgo” en el caso de una puntuación ≤ 6 estrellas.

Por último, mediante la prueba kappa de Cohen, siguiendo la escala propuesta por Landis y Koch, se obtuvo el grado de acuerdo entre examinadores para la evaluación de la calidad metodológica (35).

7.7 Síntesis de datos

Para resumir y comparar las variables de resultado entre los estudios, las medias de las variables primarias se agruparon por grupo de estudio.

Para todas las variables de resultados analizadas fue necesario calcular la media ponderada puesto que cada estudio procedía de muestras con diferente número de pacientes, con el fin de obtener resultados más representativos. Por tanto, se dividió el número de pacientes de cada estudio por el total de pacientes de todos los estudios y se multiplicó por el valor de media reportada por cada estudio, repitiendo el mismo procedimiento para todas las variables estudiadas.

8. Resultados

8.1 Selección de estudios. Flow chart

Se obtuvieron un total de 167 artículos del proceso de búsqueda inicial: Medline - PubMed (n=86), SCOPUS (n=0) y la Web of Science (n=81). Además, se obtuvieron 6 estudios adicionales a través de la búsqueda manual (lista de referencias y fuentes primarias).

Del total de estas publicaciones, 12 se identificaron como artículos potencialmente elegibles mediante el cribado por títulos y resúmenes. Los artículos de texto completo fueron posteriormente obtenidos y evaluados a fondo. Como resultado, 10 artículos cumplieron con los criterios de inclusión y fueron incluidos en la presente revisión sistemática (Fig. 4). La información relacionada con los artículos excluidos, así como las razones de su exclusión, se presenta en la Tabla 2.

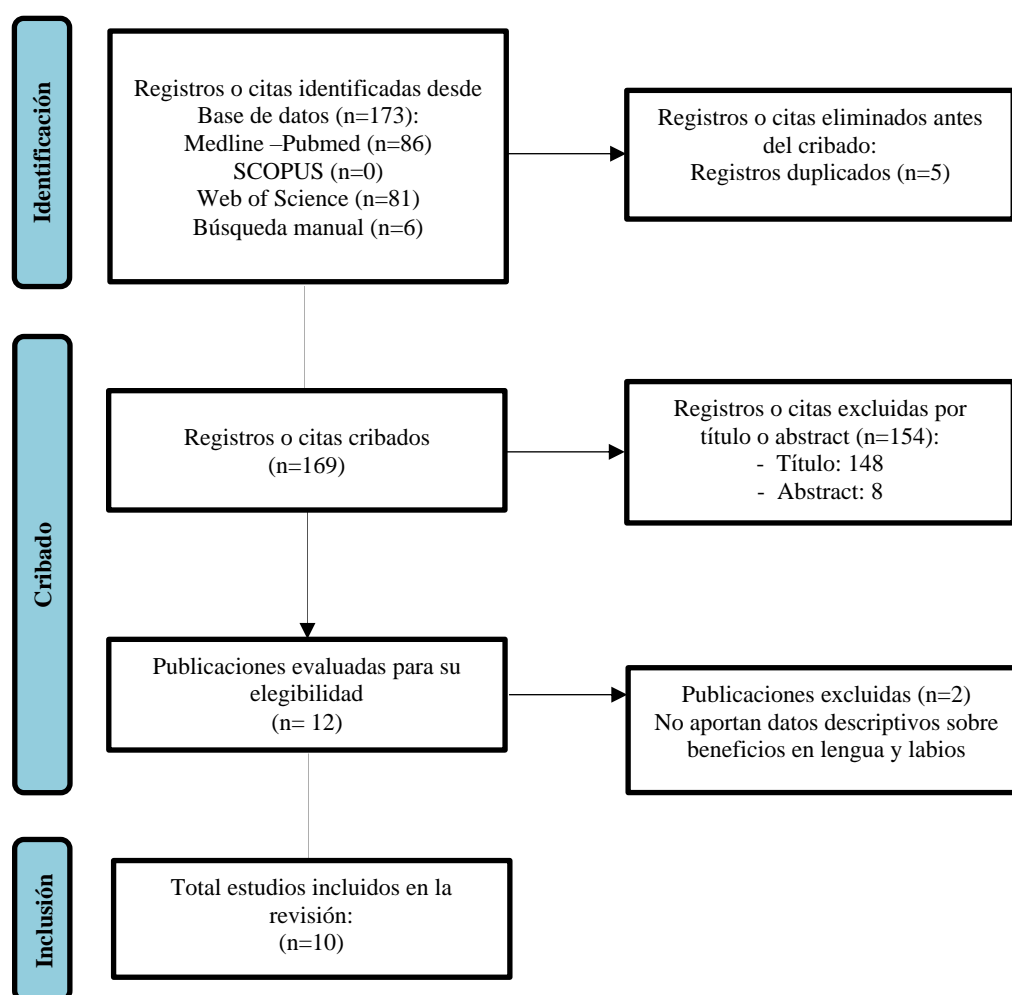


Figura 4. Diagrama de flujo de búsqueda y proceso de selección de títulos durante la revisión sistemática.

Tabla 2: Artículos excluidos (y su razón de exclusión) de la presente revisión sistemática.

Autor. Año	Publicación	Motivo de exclusión
Backman B. 2003 (36)	International Journal of Paediatric Dentistry	No aporta datos descriptivos sobre beneficios en lengua y labios
Backman B. 2007 (37)	International Journal of Paediatric Dentistry	No aporta datos descriptivos sobre beneficios en lengua y labios

8.2 Análisis de las características de los estudios revisados

Los 10 artículos incluidos en la presente revisión describían variables relativas a la posición y/o protrusión lingual y al cierre bucal (22,24,26,28-30,38-41), 4 analizaban la función labial (24,30,38,39) y 2 estudiaban los beneficios relativos a la cara (22,39). 3 artículos fueron ensayos clínicos controlados aleatorizados (38,39,41), 4 fueron estudios prospectivos (24,26,30,40) y 3 retrospectivos (22,28,29). En los estudios randomizados el paciente fue la unidad de asignación al azar.

En todos los estudios, el número de la muestra oscilaba entre 18 y 67 pacientes con edad media al inicio del estudio entre 1 mes y 12 años. (Tabla 3).

De un total de 325 pacientes tratados: 86 lo fueron con la PPM, 67 pacientes fueron tratados con la terapia miofuncional según el método de Castillo-Morales, 153 con ambas intervenciones y en los 19 pacientes restantes no fue aplicado ningún tratamiento.

Tabla 3. Características de los estudios revisados.

Variables de las características de los estudios		Total
Tipo de estudio	Randomizados	3
	Prospectivos no randomizados	4
	Retrospectivos	3
N° Pacientes (rango mínimo-máximo)		18-67
Lengua		10
Labios		4
Boca		10
Cara		2

En cuanto a la frecuencia de uso de la PPM, en todos los artículos revisados, los autores recomiendan utilizar la placa por lo menos 2 horas al día. En 3 de los estudios se aconseja su uso 1 hora 2 veces al día (38,39,41); en 3 de los estudios, de otra forma, se recomienda su uso 1 hora 3 veces al día (24,28,29) y en los 4 restantes, los autores

recomiendan una colocación del aparato entre 3 y 4 horas diarias (22,26,30,40). En ningún caso el uso de la placa supera las 4 horas diarias, evitando así el riesgo de costumbre por parte de los pacientes a cuerpo extraño no provocando el reflejo de Weiffenbach.

La evaluación y valoración de los efectos del tratamiento con PPM fueron realizadas por logopedas en 3 estudios (38,39,41); en otro de ellos, fueron evaluados por logopedas, fisioterapeutas, otorrinolaringólogos y psicólogos (24), mientras que 2 estudios la evolución del tratamiento fue llevada a cabo por un neuropediatra (26,28-30).

El efecto del tratamiento se evaluó mediante valoración clínica en 8 de los estudios, (22,24,26,28-30,38,39) grabación en vídeo en 3 (38,40,41) y cuestionario a los padres/tutores en 5 estudios (22,28,29,38,39). Solamente en 1 estudio se añadió la prueba de evaluación del habla para medir los efectos del tratamiento (39). Los resultados evaluados incluyeron la postura y el cierre de la boca, la posición y protrusión de la lengua, la actividad y postura de los labios y la expresión facial.

La duración del tratamiento con la PPM de Castillo-Morales resulta ser muy variable. Una vez analizados los artículos incluidos en la presente revisión, se puede apreciar que la duración mínima del tratamiento con PPM es de 5 meses y la máxima de 4,8 años (38-40). Los autores justifican la variabilidad en la duración del tratamiento como consecuencia de las diferentes características de los pacientes en referencia tanto a la edad como al sexo, a la gravedad de la patología y a las distintas características orofaciales.

En el apartado de Anexos se puede consultar la tabla completa de resumen de las características de los estudios incluidos en la presente revisión (Tabla 4).

8.3 Evaluación de la calidad metodológica y riesgo de sesgo

Para los estudios randomizados, un alto riesgo de sesgo fue considerado en los 3 estudios (Tabla 5). Para los estudios observaciones no randomizados, 1 fue considerado

RESULTADOS

de bajo riesgo de sesgo y 6 de alto sesgo (Tablas 6 y 7).

El sesgo de selección (Ocultación de la asignación) fue el ítem de mayor riesgo de sesgo en los estudios ensayos clínicos aleatorizados controlados.

El valor k (Cohen kappa test) sobre el acuerdo entre los revisores de la calidad metodológica fue de 97,4% según la escala de Landis & Koch (35).

Tabla 5. Medición del riesgo de sesgo de los estudios randomizados según la guía Cochrane.

	Generar secuencia aleatorizada (sesgo selección)	Ocultación de la asignación (sesgo selección)	Cegamiento evaluación de resultados (sesgo detección)	Seguimiento y exclusiones (sesgo deserción)	Descripción selectiva (sesgo informe)	Otros sesgos
Carlstedt y cols. 2001 (38)	+	-	+	+	+	-
Carlstedt y cols. 2003 (39)	+	-	+	-	+	?
Carlstedt y cols. 1996 (41)	+	-	-	+	+	+

Tabla 6. Medición del riesgo de sesgo de los estudios observacionales no randomizados con la escala Newcastle-Ottawa – estudios observacionales con grupo control no randomizado.

	Definición de los casos	Representatividad	Selección de los controles	Definición de los controles	Comparabilidad (factor más importante)	Comparabilidad (cualquier otra variable)	Comprobación de la exposición	Mismo método para ambos grupos	Tasa de abandonos	Total
Zavaglia y cols. 2003 (24)	★	★	★	-	-	-	-	-	-	3
Glatz-Noll & Berg 1991 (40)	★	-	-	-	★	-	-	★	-	3

Tabla 7. Medición del riesgo de sesgo de los estudios observacionales no randomizados con la escala Newcastle-Ottawa – estudios observaciones cohortes no grupo control.

	Representatividad cohorte	Selección cohorte no expuesta	Comprobación exposición	Demostración no presencia variable interés al inicio	Comparabilidad (factor más importante)	Comparabilidad (otros factores)	Medición resultados	Suficiente seguimiento	Tasa de abandonos	Total
Korbmacher y cols. 2004 (29)	★	-	★	★	-	-	★	★	★	6
Limbrock y cols. 1993 (26)	★	-	★	★	-	-	★	★	-	5
Korbmacher y cols. 2006 (28)	★	-	★	★	-	-	★	★	-	5
Limbrock y cols. 1991 (30)	★	-	★	★	-	-	★	-	★	5
Hohoff & Ehmer 1999 (22)	-	-	★	★	-	-	★	★	★	5

8.4 Síntesis resultados

8.4.1 Cierre bucal

Como ya hemos hecho mención con anterioridad, el cierre bucal es una de las variables estudiadas. Esta se define como aquel “cierre bucal” en presencia de labios completamente cerrados.

Por su parte, G. J. Limbrock y cols. (1991) encontraron mejoras en el cierre de la boca. Los mismos hallazgos de mejora de la postura de la boca fueron encontrados por los mismos autores en el 1993. Al inicio de la terapia, la postura de la boca estaba “muy” abierta en 17 de los 39 pacientes tratados, y “ligeramente” abierta en 22 casos. 11 pacientes (65%) del primer grupo mejoraron hasta el segundo grupo, mientras que 6 (35%) mejoraron hasta el cierre completo de la boca. 18 pacientes (82%) del segundo grupo también mostraron una postura bucal cerrada al final de la terapia y 4 (18%) no cambiaron. Ambos grupos mostraron una mejoría de un grado en el 74% y de dos grados en el 15,4% de los casos. (30)

K. Carlstedt y cols. (1996) analizaron la variable “cierre bucal” tras la aplicación de la PPM mediante la grabación de un video de 10 minutos de duración. Los autores descubrieron que el grupo tratado con la PPM tenía un período significativamente más

largo de "boca cerrada" después de 12 meses de tratamiento (Tabla 8 y 9). La duración media del factor "boca cerrada" cambió desde un 3% al principio del tratamiento hasta un 30% de toda la duración del video a los 12 meses ($p < 0,001$) (41).

Tabla 8. Definición de las variables inherentes al cierre bucal (41).

Variable	Definición
"Boca cerrada"	Labios totalmente cerrados
"Boca abierta"	Labios sin contacto

Tabla 9. Valores medios (%) de tiempo registrado de las variables evaluadas en la grabación de vídeo. GT: grupo test; GC: grupo control (41).

Variable	Antes del tratamiento		A los 12 meses	
	GT	GC	GT	GC
"Boca cerrada"	1.5	4.7	29.7	2.7
"Boca abierta"	61.3	70.8	59.3	49.0

En el estudio de A. Hohoff y U. Hemer del 1999 se evaluó el cierre bucal mediante una escala en el cuestionario a los padres/tutores. Los parámetros utilizados fueron "Boca muy abierta", "Boca ligeramente abierta" y "boca cerrada", para una clasificación más detallada los autores ofrecieron diferentes opciones: "ninguna declaración posible", "nunca" excepto cuando esté resfriado o cuando coma, hable o toque objetos, "raramente" $< 1/3$ del día, "ocasionalmente" $1/3$ a $2/3$ del día, "casi siempre" $> 2/3$ del día. Los autores analizaron la posición habitual bucal en todos los pacientes tratados, antes del tratamiento (Rec 1), después de una media de 4 meses de tratamiento (Rec 2) y después de una media de 53 meses (Rec 3). Los resultados obtenidos por parte de los autores están representados en la Figura 5.

El parámetro "boca cerrada" cambió de forma muy significativa entre Rec 1 y Rec 2. El parámetro "boca mayormente cerrada" fue especialmente notable en

comparación con el principio. Durante el tratamiento con la PPM (Rec 2), el número de niños con la boca "casi siempre" cerrada fue 4 veces mayor que en la Rec 1. También hubo diferencias significativas entre la Rec 2 y la Rec 3: en comparación con la Rec 2, en la Rec 3 había más pacientes cuya boca estaba "raramente" u "ocasionalmente" cerrada. En la Rec 3, había el doble de pacientes con la boca cerrada que en la Rec 1. (22)

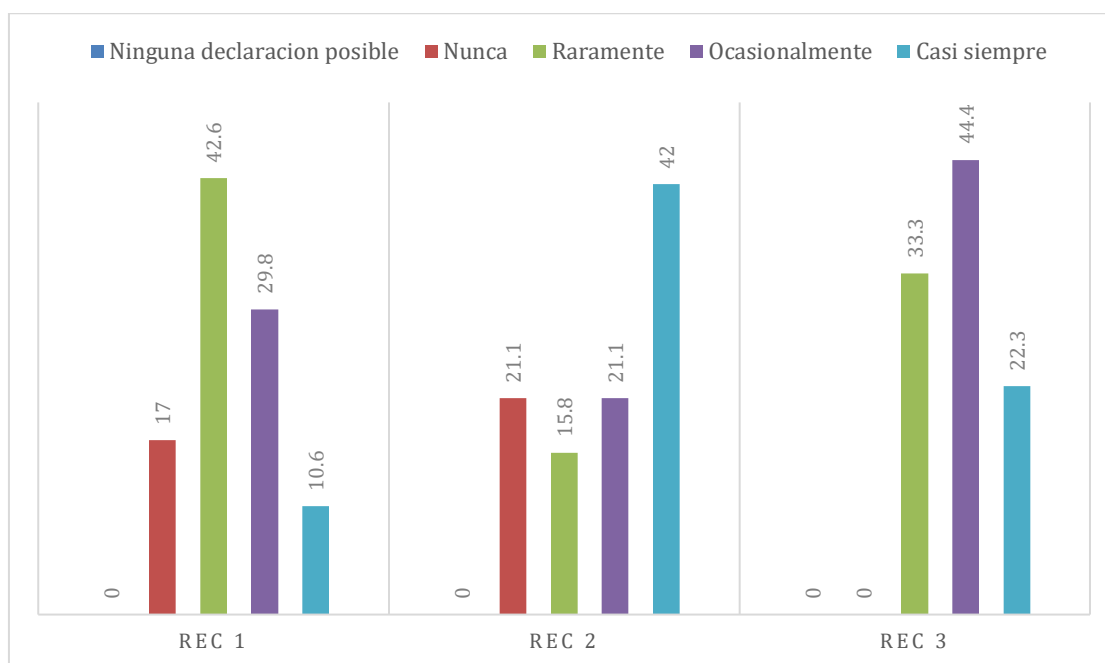


Figura 5. Resultados obtenidos de la variable “Boca cerrada”, en % de pacientes analizados, en el estudio de A. Hohoff y cols. del 1999 (22)

K. Carlsted y cols. realizaron un seguimiento en 2001 en el cual introdujeron dos tipos de factores diferentes que describen variables activas e inactivas. El término "activo" expresa la tensión muscular normal evaluada subjetivamente; por otro lado, el término "inactivo" consiste en "boca abierta inactiva", que refleja una apertura bucal inactiva. La variable “inactiva” se utiliza cuando no se observan movimientos musculares visibles de tensión muscular y expresa un estado hipotónico. El resultado de este estudio mostró que las variables “activas” constituían el 43.9% del tiempo de vídeo grabado en el grupo test, en comparación con el 38.5% en el grupo de control.

La variable "boca cerrada" fue la variable registrada con mayor frecuencia. Antes del tratamiento, esta variable representaba el 1.5% del tiempo registrado en el

grupo test y el 4.7% en el grupo de control. Después de 1 año de tratamiento, la variable "boca cerrada" aumentó al 29.7% del tiempo en el grupo test, mientras que en el grupo de control esta variable disminuyó al 2.7% del tiempo. Después de 4 años, las diferencias son menos marcadas, con un 24.7% en el grupo test y un 22.9% en el grupo control (Tabla 10) (38).

Tabla 10. Valores medios (%) de tiempo registrado de las variables evaluadas en la grabación de vídeo GT: grupo test; GC: grupo control. (38)

		GT	GC
VARIABLES ACTIVAS	Boca cerrada	24.7	22.9
	Boca abierta activa	19.2	15.6
VARIABLE INACTIVA	Boca abierta inactiva	9.2	17.1

Fue realizado un último estudio de K. Carlstedt y cols. en 2003 donde se encontró de un valor de "boca cerrada" significativamente mayor durante el tiempo de grabación de video ($P < 0,05$) (39).

En 2004, H. Kormacher y cols., analizaron el grado de cierre bucal en los 20 pacientes tratados, antes de la colocación del aparato (T), después de la finalización de la terapia con la PPM (R1) y tras una media de 12 años y 9 meses (R2).

La clasificación clínica de la postura bucal se realizó mediante una escala en grados: III separación labial $>10\text{mm}$, II separación labial $<10\text{mm}$ y I cierre labial principalmente incompetente. Dado que los niños revelaron un cierre bucal con labios competentes en R2 no observado previamente, se añadió un grado adicional: 0 cierre labial competente y X si no se pudo hacer ninguna evaluación. Los resultados obtenidos por parte de los autores están representados en la Figura 6.

Analizando los cambios de T a R1, los autores encontraron que la postura habitual de la boca mejoró en el 75% de los niños y permaneció inalterada en el 10%. En el 15% no se pudo hacer ninguna evaluación sobre la base de los registros. Los resultados obtenidos desde R1 a R2 fueron que la postura bucal mejoró en el 30% de los niños y permaneció estable en el 10%, empeoró en el 45%.

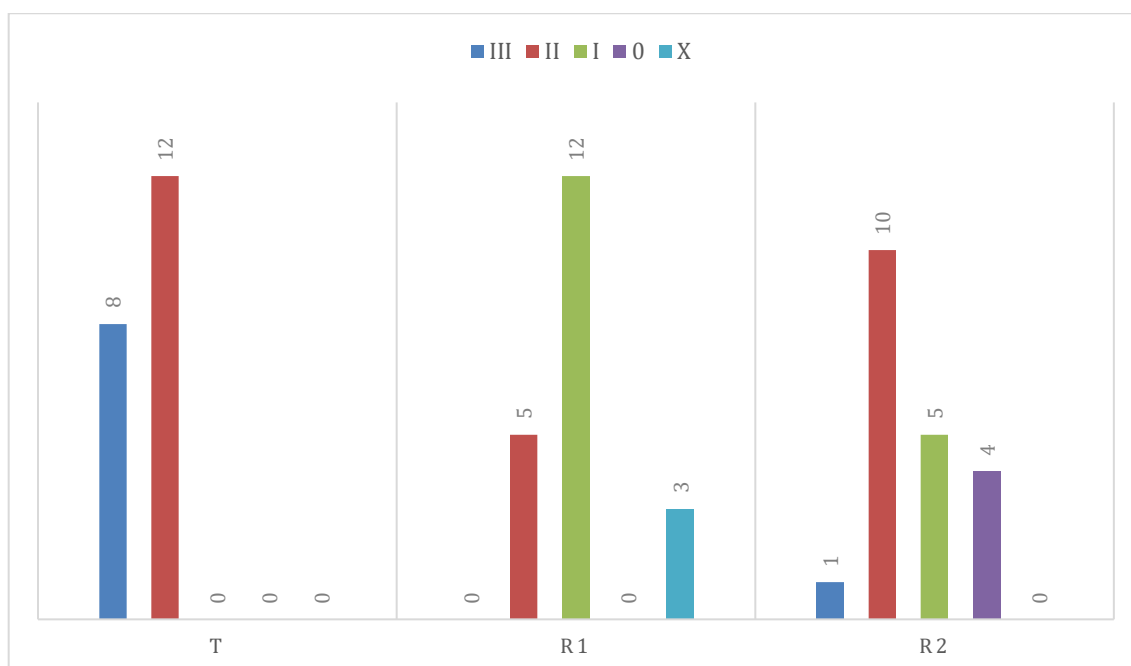


Figura 6. Desarrollo de la postura bucal en todos los niños durante T, R1 y R2. III: separación labial >10mm; II: separación labial <10mm; I: cierre labial principalmente incompetente (29).

Por tanto, la postura bucal de los pacientes desde el principio del tratamiento con la PPM tras una media de 12 años y 9 meses (T-R2), mejoró en el 55% de los niños, permaneció inalterada en el 40% y se deterioró en el 5% (29) (Tabla 11).

Tabla 11. Resultados obtenidos en relación con la postura bucal desde el principio hasta una media de 12 años y 9 meses después de la colocación de la PPM (T-R2) (29)

Postura bucal al principio del estudio	Mejoras de 3 grados	Mejoras de 2 grados	Mejoras de 1 grado	Total
III	37,5%	37,5%	25%	100%
II	/	8,3%	16,7%	25%

Los mismos autores vuelven a hacer otro estudio 2 años más tarde, en 2006. La característica que diferencia los dos estudios realizados es que, en el primero, del 2004, los autores analizaron a los pacientes después de un año de la colocación del aparato. En

el siguiente estudio del 2006, los autores evalúan si las mejoras debidas a la colocación del PPM se prolongan en el tiempo, analizando a los pacientes unos 12 años después de finalizar el tratamiento. En el examen inicial (T), se valoró la región orofacial antes del tratamiento, (R1) al final de la terapia con la placa de estimulación y (R2) tras un largo periodo sin llevar la placa. En los tres exámenes se evaluó la postura bucal utilizando la misma escala que en el estudio anterior del 2004 (III, II, I, 0 y X). En el grupo con una distancia labial de más de 10 mm antes de la inserción de la placa, se registró una tasa de éxito del 100%: mejoras de tres grados en 4 niños, de dos grados en 5 y de un grado en 3. Del grupo de niños con una postura bucal abierta con una distancia labial inferior a 10 mm, 6 niños mejoraron la postura bucal (3 en dos grados y 3 en un grado), en 8 niños la postura bucal permaneció sin cambios y se deterioró en 1 niño (28) (Tabla 12).

Tabla 12. Mejoras generales de la postura bucal. -1= empeoramiento de un grado; 0= postura bucal sin cambios; 1= mejoras de un grado; 2= mejoras de dos grados; 3=mejoras de tres grados (28).

Cambios (en grados)	Distancia labial >10mm	Distancia labial <10mm
-1	0	1
Sin cambios	0	8
1	3	3
2	5	3
3	4	0

8.4.2 Protrusión y posición lingual

La siguiente variable analizada en el presente estudio es la “protrusión y posición lingual”. Esta se define como lengua que empuja contra los dientes, o entre ellos, mientras el paciente está en reposo, tragando o hablando. Debido a esta posición lingual anormal, el paciente puede tener problemas al hablar y al deglutir con normalidad.

G. J. Limbrock y cols. en 1991 estudiaron la posición lingual de 67 niños con DS mediante su evaluación clínica. Los autores estimaron la protrusión lingual espontánea utilizando la escala de Fisher-Brandies (1988), que diferencia seis tipos que van desde

una situación en la que la lengua se mantiene bien en la cavidad bucal, hasta una protrusión lingual fuertemente fuera del labio inferior (Tabla 13).

La posición de la lengua mejoró en 33 niños en al menos dos grados y en 9 en un grado. Los mejores resultados se dieron en aquellos cuya protrusión lingual era más prominente: cuanto menor era la protrusión lingual, menor era el cambio en el seguimiento (30).

Estos mismos autores, dos años después (1993), volvieron a estudiar un grupo de 39 niños con DS, dividiendo el total de pacientes en dos subgrupos (A y B). El grupo A, formado por 26 niños, presentaba una posición lingual “interlabial” y el grupo B, formado por 13 pacientes, presentaba la lengua en posición “interalveolar”. Tras 18 meses de la colocación de la PPM, 13 pacientes del grupo A (50%) mejoraron dos grados (la lengua permaneció dentro de la cavidad oral) y 12 pacientes (46%) mejoraron un grado (llegando a ser clasificados como “grupo B”). 11 pacientes del grupo B (85%) retrajeron la lengua hacia el interior de la boca; 2 pacientes no mostraron cambios. Ambos grupos respectivamente mostraron una mejoría de un grado en el 59% y de dos grados en el 33% (26).

Tabla 13. Escala de posición lingual según Fisher-Brandies (1988) (30).

1°	En la cavidad bucal
2°	En el borde alveolar
3°	En el labio inferior
4°	Supera el labio inferior
5°	Moderadamente fuera del labio inferior
6°	Fuertemente fuera del labio inferior

También en el 1991, E. Glatz-Noll y R. Berg, valoraron la posición lingual, mediante la grabación de un video de la duración de 5 minutos, en 24 pacientes con DS (GT, grupo test) y 19 sanos (GC, grupo control), utilizando la misma escala de Fisher-Brandies (Tabla 13).

La protrusión lingual fue medida antes de la colocación de la PPM, resultando ser de 144.8 segundos en el grupo test, y siendo casi la mitad de la grabación total del video. Tras 1 año de la colocación, la duración media de protrusión lingual disminuyó en media

RESULTADOS

de 95.5 segundos llegando a ser de 49.3 segundos de la grabación del video. En la segunda parte del estudio los autores analizaron si la presencia de estos efectos positivos se mantenía incluso cuando el paciente no llevaba la PPM puesta. Este objetivo se alcanzó en 12 de los 24 niños tras un tiempo medio de tratamiento de 6,5 meses (40) (Tabla 14).

Tabla 14. Observación en los 12 niños en los que se consideró que el tratamiento había tenido éxito (grabación de un video de 5 minutos). I: antes del tratamiento; II: al final del tratamiento (tras una media de 6.5 meses de la inserción de la PPM) (40).

Nº de paciente	Duración de protrusión lingual (seg.)		Estadio de protrusión lingual (grados°)	
	I	II	I	II
1	81	17	3	2
2	107	8	3	1
3	205	1	3	1
4	115	49	2	2
5	9	4	1	1
6	177	7	4	1
7	163	20	3	2
8	134	3	2	1
9	95	2	2	1
10	140	22	3	2
11	103	40	3	1
12	88	31	3	1

K. Carlstedt y cols. (1996) analizaron la variable “protrusión lingual” tras la aplicación de la PPM mediante la grabación de un video de 10 minutos de duración. En los niños con síndrome de Down, la lengua sobresale con frecuencia por encima del labio inferior y la duración media de la "protrusión inactiva de la lengua" antes de empezar el tratamiento con PPM fue de aproximadamente el 25% del tiempo de grabación (Tabla 15).

Tabla 15. Definición de las variables inherentes a la protrusión lingual (41).

Variable	Definición
“Protrusión activa de la lengua”	Positiva cuando la lengua estaba fuera de la boca y era móvil
“Protrusión inactiva de la lengua”	Lengua fuera de la boca e inmóvil

Tras 9 meses de terapia con PPM, la duración de la "protrusión inactiva de la lengua" fue significativamente menor ($p < 0,001$) en el grupo test que en el grupo control. Este último factor fue además significativamente más corto después de 12 meses de terapia demostrando el resultado evaluado por la grabación del video que los pacientes en el grupo test tenían una menor duración de la "protrusión activa de la lengua" que el grupo de control ($p < 0,05$) (Tabla 16) (41).

Tabla 16. Valores medios de tiempo registrado de las variables evaluadas en la grabación de vídeo (41)

Variable	Antes del tratamiento		A los 12 meses	
	GT	GC	GT	GC
“Protrusión activa de la lengua”	5.7	1.3	1.1	4.2
“Protrusión inactiva de la lengua”	27.9	20.8	0.4	39.2

Por su parte, en 1999, A. Hohoff y U. Ehmer, analizaron la variable “protrusión lingual” a través de una evaluación clínica y un cuestionario a los padres/tutores. Los parámetros utilizados fueron “Lengua fuertemente fuera del labio inferior”, “Lengua moderadamente fuera del labio inferior” y “Lengua en la cavidad bucal”, para una clasificación más detallada los autores ofrecieron diferentes opciones: “ninguna declaración posible”, “nunca” excepto cuando esté resfriado o cuando coma, hable o toque objetos, “raramente” $< 1/3$ del día, “ocasionalmente” $1/3$ a $2/3$ del día, “casi siempre” $> 2/3$ del día. Los autores analizaron la posición habitual de la lengua en todos los pacientes tratados, antes del tratamiento (Rec 1), después de una media de 4 meses de tratamiento (Rec 2) y después de una media de 53 meses (Rec 3). Los resultados obtenidos por parte de los autores están representados en la Figura 7.

RESULTADOS

El número de niños cuya lengua "casi siempre" u "ocasionalmente" se colocaba fuera del labio inferior disminuyó de la Rec 1 a la Rec 3, mientras que el número de niños cuya lengua se colocaba "raramente" fuera del labio inferior aumentó durante ese periodo. El parámetro "lengua moderadamente fuera del labio inferior" mejoró entre la Rec 1 y la Rec 2: el número de pacientes cuya lengua se colocaba casi siempre "moderadamente fuera del labio inferior" disminuyó en más de un 50% durante el tratamiento. Sin embargo, los resultados no se mantuvieron estables hasta la Rec 3. El número de pacientes cuya lengua rara vez se colocaba "moderadamente fuera del labio inferior" aumentó durante y después del tratamiento. El número de niños cuya lengua estaba en la cavidad bucal aumentó entre la Rec 1, la Rec 2 y la Rec 3. El número de niños cuya lengua estaba "nunca" o "raramente" en la cavidad oral disminuyó entre la Rec 1 y la Rec 3.

Por fin, analizando la información facilitada por parte de los padres/tutores a través del cuestionario, los autores encontraron que la postura de la lengua mejoró en el 76,3% de los pacientes durante el tratamiento con la PPM (22).

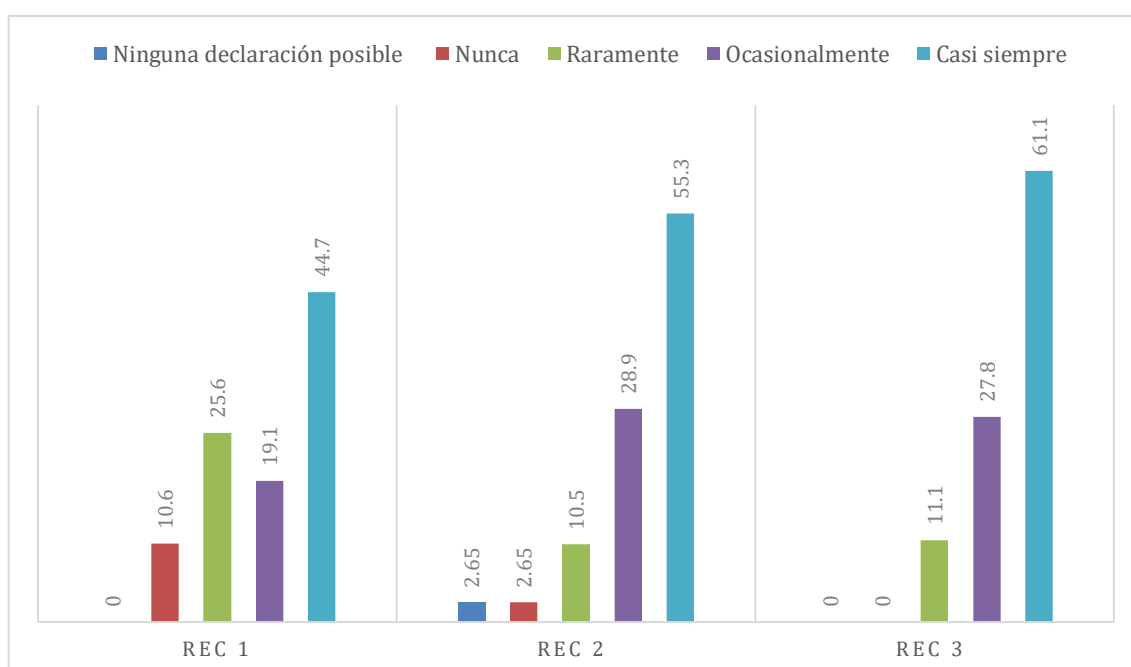


Figura 7. Resultados obtenidos de la variable "Lengua en la cavidad bucal", en % de pacientes analizados, en el estudio de A. Hohoff y cols. del 1999 (22)

RESULTADOS

En el estudio de K. Carlstedt y cols. del 2001, la variable "protrusión inactiva de la lengua" se registró al inicio, después de 1 año y después de 4 años de terapia con PPM. Los resultados del seguimiento de 1 año mostraron una disminución significativa del tiempo registrado de "protrusión lingual inactiva" en el grupo test, mientras que el grupo de control mostró un aumento. Después de 4 años de tratamiento con placas palatinas, el tiempo de "protrusión lingual inactiva" registrado en el grupo tratado fue inferior en un $3,9\% \pm 10,1\%$ en el grupo de prueba y en un $8,9\% \pm 9,1\%$ en el grupo de control (38).

Por otro lado, en 2003, Zavaglia y cols. analizaros la protrusión espontánea de la lengua en 12 pacientes con DS tras tres años de la colocación de la PPM. Al inicio del tratamiento 8 pacientes presentaban una protrusión lingual "más allá del labio inferior". Al finalizar el tratamiento, esta situación se modificó positivamente: la protrusión de la lengua nunca sobrepasó el labio inferior en 9 de los 12 pacientes y ocasionalmente más allá del labio inferior en 3 (24).

Fue realizado un otro estudio de K. Carlstedt y cols. en 2003 en el cual los autores analizaron la variable "Lengua visible cuando no se habla" durante una evaluación clínica extraoral. Para una clasificación más detallada los autores ofrecieron diferentes opciones: "Constantemente visible", "Intermitentemente visible" y "No visible". Los resultados mostraron que casi el 55% de los niños del grupo tratados con PPM presentaban una mejora de la "posición de la lengua" en comparación con el 24% de mejora en el grupo de control. En el mismo estudio se informó de una "protrusión inactiva de la lengua" significativamente más corta ($P < 0,01$). Los resultados obtenidos por parte de los autores están representados en la Figura 8 (39).

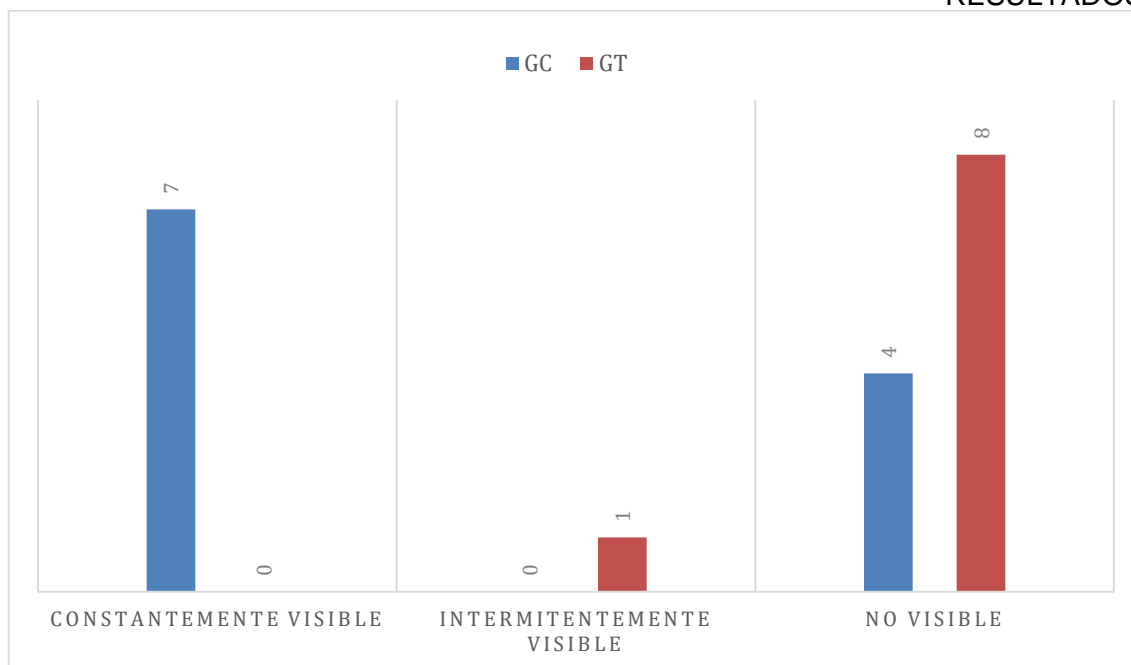


Figura 8. “Lengua visible cuando no se habla” observada durante la examinación clínica. GC: grupo control; GT: grupo test (39).

En 2004, H. Kormacher y cols., analizaron el grado de posición lingual en 20 pacientes, antes de la colocación del aparato (T), después de la finalización de la terapia con la PPM (R1) y tras una media de 12 años y 9 meses (R2). La clasificación clínica de la posición lingual en R2 se realizó mediante una escala en grados: III posición lingual extraoral, II posición lingual intraoral, I posición lingual caudal y 0 no valorable. Los resultados obtenidos por parte de los autores están representados en la Figura 9.

Analizando los cambios de T a R1, los autores encontraron que el 65% de los niños mostraron una posición mejorada de la lengua, y el 20% una posición inalterada de la lengua. En el 15% no se pudo realizar ninguna evaluación. Los resultados obtenidos desde R1 a R2 fueron que la posición lingual mejoró en el 20% de los niños, se mantuvo sin cambios en el 60% y se deterioró en el 5%. En el 15% no se pudo hacer ninguna evaluación.

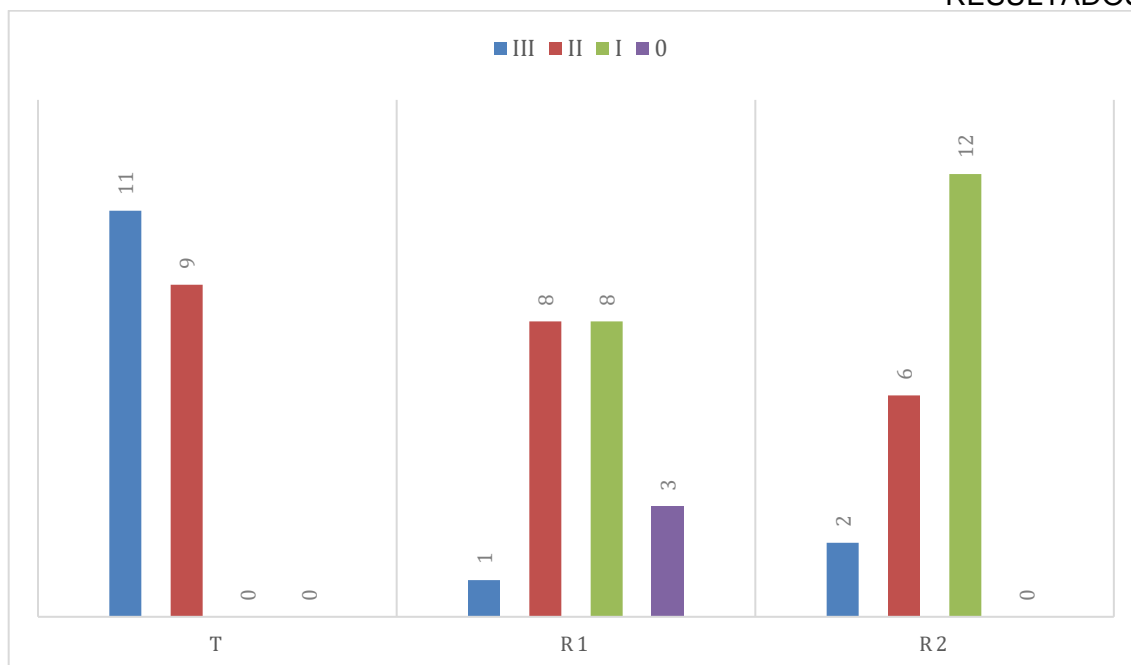


Figura 9. Desarrollo de la posición lingual en todos los niños durante T, R1 y R2. III: posición lingual extraoral; II: posición lingual intraoral; I: posición lingual caudal; 0: no valorable (29)

Por tanto, la posición lingual de los pacientes desde el principio del tratamiento con la PPM tras una media de 12 años y 9 meses (T-R2), mejoró en el 75% de los niños y permaneció inalterada en el 25% (29).

Los mismos autores vuelven a hacer otro estudio 2 años más tarde, en el 2006. La característica que diferencia a ambos estudios es que, en el primero, del 2004, los autores analizaron a los pacientes después de un año de la colocación del aparato. En el siguiente estudio del 2006, los autores evalúan si las mejoras debidas a la colocación del PPM se prolongan en el tiempo, analizando a los pacientes unos 12 años después de finalizar el tratamiento. En el examen inicial (T), se valoró la región orofacial antes del tratamiento, (R1) al final de la terapia con la placa de estimulación y (R2) tras un largo periodo sin llevar la placa. En los tres exámenes se evaluó la posición lingual utilizando la misma escala que en el estudio anterior del 2004 (III, II, I y 0). Teniendo en cuenta las diferentes posiciones linguales antes del tratamiento con la PPM, del grupo con la posición "extraoral" de la lengua: la mejora fue observada en 15 niños, 9 por dos grados y 6 por un grado. En 2 niños la posición de la lengua no fue afectada. Del grupo con la posición

“intraoral” de la lengua antes del tratamiento, 7 niños mejoraron en un grado. La posición de la lengua permaneció sin cambios en 3 pacientes (28).

8.4.4 Postura y tonicidad labial

La última variable analizada en la presente investigación es “postura y tonicidad labial”. La postura y tonicidad labial se refiere a la posición y tensión de los músculos que rodean los labios. Estos músculos son importantes para la articulación de los sonidos del habla y para mantener una adecuada función oral, como la deglución y la respiración.

En su estudio de 1991, G. J. Limbrock y cols. estudiaron la tonicidad de los labios en 67 niños con DS. Los autores estimaron la tonicidad de los labios en una escala que distinguen entre tres clasificaciones: I normal, II ligeramente hipotónicos y III fuertemente hipotónicos. Al comienzo de la terapia, la hipotonía labial generalmente se diagnosticó como "ligeramente hipotónico" para el labio inferior y "fuertemente hipotónico" en el labio superior. Este último respondió favorablemente al tratamiento en 16 de 18 pacientes, pero nunca se logró la normalidad total. (30)

En el estudio de K. Carlstedt y cols. del 2001, fueron estudiadas variables que muestran la posición de los labios, en 9 pacientes con DS y en 11 pacientes sanos, durante 10 minutos de grabación video. Tras la exploración extraoral, los investigadores analizaron la presencia de la variable “redondeo de los labios durante el habla” en 8 pacientes del grupo tratado con la PPM y 3 del grupo control. Este resultado puede reflejar un aumento de la actividad muscular del musculo orbicularis oris del labio superior (38).

Fue realizado un otro estudio de K. Carlstedt y cols. en 2003 en el cual los autores analizaron la variable “Labio superior corto” durante una evaluación clínica extraoral de 9 pacientes con DS tratados con PPM y 11 pacientes sanos que pertenecen al grupo control. Se estimó que 19 de los 20 niños tenían el labio superior corto (la excepción fue 1 niño que pertenecía al GC). En el mismo estudio la actividad del labio superior e inferior se estimó visualmente durante la ausencia de habla. Tanto el labio superior como el inferior de 7/9 niños del grupo test y de 6/11 del grupo de control parecen tener tono muscular. Un niño de cada grupo mostró inactividad en uno de los labios, mientras que se estimó que los 4 restantes del GC tenían inactividad bilabial. Un labio superior

RESULTADOS

anat6micamente corto no parece tener importancia para el redondeo labial. En este estudio, 19/20 tenían un labio superior corto, sin embargo, 8/9 niños en el grupo test tenían un labio superior activo, y había 7/9 con actividad también en el labio inferior en el mismo grupo. (39)

9. Discusión

La presente revisión sistemática proporciona información basada en la evidencia científica sobre los beneficios clínicos en el desarrollo orofacial tras la colocación de la PPM de Castillo-Morales en pacientes con síndrome de Down. El objetivo de esta revisión fue analizar los beneficios clínicos generados por el abordaje terapéutico mediante el uso de la PPM de Castillo-Morales en los pacientes con síndrome de Down; y de forma secundaria evaluar el posicionamiento y la protrusión de la lengua, estimar la competencia de los labios, así como establecer las ventajas fisiológicas y funcionales que supone la aplicación del protocolo descrito por Castillo-Morales.

La literatura existente ha demostrado que la colocación de la PPM en pacientes con DS tiene importantes beneficios clínicos en el desarrollo orofacial. En general, los estudios incluidos en esta revisión sistemática muestran que su uso ha perfeccionado la función oral, la correcta articulación de los sonidos del habla, lo que puede mejorar la calidad de vida y la comunicación en pacientes con síndrome de Down.

Es importante destacar que varios de los estudios incluidos en esta revisión sistemática, son estudios de larga duración y reportan beneficios a largo plazo del uso de la placa palatina en pacientes con síndrome de Down (26, 28, 29, 38, 39). Además, varios de los estudios también verifican mejoras significativas en la calidad de vida de los pacientes después del uso de la PPM.

9.1. Cierre bucal

Los estudios incluidos en la presente revisión analizaron los efectos del tratamiento con PPM en la mejora de la postura y el cierre de la boca en niños con DS. Los resultados son algo heterogéneo y en algunos casos contradictorios.

Con respecto a los resultados del cierre bucal, varios estudios han demostrado una mejora significativa después del tratamiento con la PPM descrito por el Dr. Castillo-Morales. Por ejemplo, Zavaglia y cols. (24) encontraron que la terapia con la PPM mejora la capacidad de los niños con DS para mantener la boca cerrada durante la deglución y el descanso. De manera similar, Korbmacher y cols. (28) demostraron que la terapia según

el método Castillo-Morales mejoró significativamente la función motora oral, incluido el cierre de la boca, en niños con DS después de dos años de tratamiento.

Además, Carlstedt y cols. (38) observaron una mejora significativa en la función motora oral en niños con DS tratados durante dos años. Igualmente, el estudio realizado por Hohoff y Ehmer (22) mostró una mejora significativa en el cierre bucal en niños que recibieron terapia con la PPM en comparación con un grupo control. En el mismo estudio, los autores encontraron una mejora significativa en la función labial a largo plazo.

De manera similar, varios estudios (26,28,29,40) informaron mejoras significativas en la respiración nasal y el cierre de los labios después de la colocación de la PPM, lo que sugiere que la placa puede ser eficaz para mejorar la postura de los músculos faciales y la función muscular, mejorando así la función respiratoria y la estética facial en estos pacientes.

En cuanto al sellado labial, se ha observado una mejoría significativa en varios estudios después de la colocación de la placa combinada con la terapia miofuncional. Por ejemplo, en el estudio de Carlstedt y cols. (39) observaron una mejora significativa en el sellado labial después de cuatro años de tratamiento con placa palatina. De manera similar, Korbmacher y cols. (29) mostraron una mejora significativa en el cierre de los labios después de 12 años de tratamiento con la PPM.

Estos resultados concuerdan con los encontrados en otras revisiones sistemáticas de la literatura. Svensson y cols. (8), Vivar Vergara y cols. (42) y Chad y cols. (32) encontraron que el uso de dispositivos terapéuticos como la PPM en combinación con la terapia miofuncional mejoró significativamente la capacidad de los niños con síndrome de Down para mantener el sellado labial.

Además, los autores de las revisiones sistemáticas inherentes al uso de la terapia descrita por el Dr. Castillo-Morales (8,42,32) sugieren que el uso de placas palatinas puede ser una opción de tratamiento eficaz y no invasivo para mejorar la función orofacial en pacientes con DS. Sin embargo, los resultados no son uniformes entre los estudios, y algunos de ellos sólo informan de efectos modestos o no significativos (42, 8).

A pesar de las mejoras significativas en la función motora oral general, algunos estudios no han encontrado ninguna mejora en el cierre bucal o labial después del tratamiento con placa palatina. Por ejemplo, Carlstedt y cols. (41), aunque se observó una mejora en la función motora oral después de un año de tratamiento con placa palatina, no se observó una mejora significativa en el cierre de los labios.

Hay varias razones posibles por las que los estudios han producido resultados contradictorios. Uno de los más importantes es la diferencia en el diseño y método de evaluación de cada estudio o el uso de métodos de evaluación subjetivos, como la observación clínica, la valoración a través de la grabación de un video o un cuestionario para los padres/tutores.

Además, también se deben tener en cuenta la heterogeneidad en la duración y la intensidad del tratamiento con la PPM, así como las diferencias en la edad y la discapacidad entre los participantes en los diferentes estudios incluidos en el trabajo.

Aunque los resultados de la investigación varían, se puede considerar que la terapia con la PPM combinada con la terapia miofuncional descrita por el Dr. Castillo-Morales, puede considerarse que tiene un efecto positivo en la postura y en la posición labial en pacientes pediátricos con síndrome de Down. Sin embargo, se necesitan estudios futuros con diseños más rigurosos y métodos de evaluación estandarizados para determinar la eficacia del tratamiento.

9.2. Protrusión y posición lingual

La eficacia del uso del protocolo descrito por el Dr. Castillo-Morales en pacientes con síndrome de Down ha sido objeto de debate durante años. Varios estudios incluido en el presente trabajo, revelan mejores resultados en los niños con peores síntomas y signos orofaciales iniciales; esto podría ser un indicio de que el proceso de entrenamiento neuromuscular evocado por el estímulo mecánico de la placa solo puede llevarse a cabo en casos de disfunciones iniciales extremas (22, 28).

Los resultados de esta revisión sistemática, basada en 10 investigaciones científicas revelaron unos beneficios en el desarrollo orofacial en la protrusión y posición lingual tras la colocación de la PPM junto con la terapia orofacial.

Los resultados de los estudios incluidos en la presente revisión sugieren que el uso de la PPM aporta beneficios inherentes a la protrusión y posición lingual de pacientes con DS.

En cuanto a la protrusión y posición lingual, son varios los autores que con anterioridad han informado que los pacientes pediátricos con síndrome de Down tienen una tendencia a mantener la lengua protruida y/o en una posición baja en la boca, lo que puede afectar la fonación y la deglución. Los estudios de Svensson y cols. (8), Vivar Vergara y cols. (42) y Chad y cols. (32), han informado que el uso de dispositivos orales como la PPM junto con una terapia miofuncional mejoró significativamente la posición y la función de la lengua en los niños con DS.

En el estudio de Carlstedt y cols. llevado a cabo en el 1996 (41), tras 1 año de tratamiento con la PPM se reportaron valores de “protrusión inactiva de la lengua” de 0.4% del tiempo total de grabación del video y de “protrusión activa de la lengua” de 1.1%. Los mismos autores, en un estudio longitudinal de cuatro años (38), reportaron unos valores de “protrusión inactiva de la lengua” en el grupo test de pacientes con DS de un 3.9% del tiempo total de la grabación del video. Por lo tanto, en ambos estudios se observaron mejoras en la función motora oral y lingual a largo plazo en niños tratados con la PPM.

Por otro lado, Korbacher y cols. (28) encontraron una mejora en la posición y la protrusión lingual estadísticamente significativa tras la colocación de la PPM durante todo el período de observación en 22 pacientes de un total de 27 estudiados.

Dicho resultados son similares a los obtenidos a lo largo de toda la evidencia científica y corroboran la conclusión a la que llegaron Zavaglia y cols. (24) en su trabajo, que destacó la importancia de intervenir con el componente muscular desde la primera infancia en los niños con DS con el fin de restablecer un equilibrio orofacial; el estado orofacial al principio del tratamiento parece ser un valor predictivo para el éxito a largo plazo (22); en el mismo estudio se informó una reducción significativa en la disfunción orofacial y una mejora en la postura de la lengua después de la terapia con la PPM en niños con síndrome de Down.

DISCUSIÓN

Al respecto de la reducción en el tiempo de protrusión y una mejora en la posición de la lengua, se observa en varios estudios que varían en duración y en tiempo de evaluación en relación con el tratamiento. Carstedt y cols, en 1996, 2001 y 2003 observaron una reducción significativa en los valores de protrusión de la lengua.

Además, Glatz-Noll y Berg (40), Hohoff y Ehmer (22) y Korbmacher y cols. (28, 29) registraron mejoras cualitativas a corto plazo y a largo plazo en la reducción de la protrusión lingual y mejoras en la posición lingual a reposo en niños con DS. Cada estudio variaba en duración del tratamiento, de 4 a 12 meses. Solo Korbmacher y cols, en 2006 (28), informó de valores significativos en la mejora de la posición lingual y mejoras adicionales después del completamiento de la terapia.

Todos los autores de los artículos, que adoptan el enfoque de Castillo Morales, han reportado mejoras en la función motora oral y lingual en niños con DS. En particular, Limbrock y cols. (26), observaron que la inserción inmediata de la PPM reduce el tiempo de protrusión lingual en un 60% de media. Por el contrario, Carlstedt y cols. en 1996 (41), no encontraron diferencia significativa, entre el grupo test y el grupo control, en la variable “lengua visible”.

Por otro lado, Hohoff y Ehmer (22), apreciaron, que después de varios meses de tratamiento con la PPM, no solo ofrece estimulación mecánica una vez colocada en boca, sino que también aporta mejoras en la postura de la lengua, con resultados estables incluso cuando la PPM no estaba en boca. Por lo tanto, la PPM fue considerada por parte de los autores como un adyuvante eficaz para una mejor postura y función lingual.

Sin embargo, en todos los casos en la literatura se recomienda la inserción de la placa lo antes posible para que se produzcan cambios durante el desarrollo neuromuscular del niño. También es fundamental que el uso de la PPM se combine con una terapia miofuncional adecuada y que no exceda las 3 horas diarias para evitar el riesgo de costumbre a un cuerpo extraño y que, por tanto, deje de producirse el reflejo deseado de Weiffenbach.

9.3. Postura y tonicidad labial

Los estudios incluidos en la presente revisión analizaron el efecto del tratamiento con PPM en la mejora de la postura y el tono de los labios en niños con DS.

Varios autores (Carstedt y cols. (38,39), Korbmacher y cols. (29) y Limbrock y cols. (26,28), evaluaron los efectos a largo plazo del tratamiento con PPM en la función orofacial, incluida la tonicidad y la posición de los labios. Los estudios han demostrado una mejora significativa en el tono y la posición labial después del tratamiento con la PPM. Se encontró que los efectos del tratamiento se mantuvieron a largo plazo, lo que sugiere que el tratamiento temprano puede tener un efecto positivo en la función orofacial.

En cuanto a los estudios de Hohoff y Ehmer (22) y Zavaglia y cols. (24), lo cuales también evaluaron los efectos a largo plazo del tratamiento orofacial basado en el enfoque de Castillo-Morales sobre la tonicidad y la postura labial, mostraron resultados positivos similares.

Por otro lado, cabe señalar que Limbrock y cols. (30) se centraron en el enfoque de Castillo-Morales y encontraron mejoras significativas en el tono de los labios y la postura después del tratamiento en un grupo de 67 niños con síndrome de Down.

En general, la mayoría de los estudios han demostrado que la colocación de la PPM combinada con la terapia miofuncional según el Dr. Castillo-Morales tiene un efecto positivo en el tono de los labios y la postura en niños con DS. Sin embargo, es importante señalar que cada estudio utilizó diferentes tratamientos y enfoques, lo que puede haber influido en los resultados obtenidos.

En resumen, la revisión sistemática de los 10 estudios incluidos sugiere que el uso de la placa palatina de Castillo-Morales en pacientes con DS, proporciona beneficios clínicos significativos en el desarrollo orofacial, incluyendo mejoras en la función oral, la articulación y la comunicación. Estos resultados pueden ser útiles para mejorar la calidad de vida de los pacientes con síndrome de Down y para informar a los profesionales sobre la eficacia de este método de tratamiento de la disfunción orofacial en pacientes con DS.

Sin embargo, se necesita más investigación en esta área para determinar la efectividad y los beneficios a largo plazo del uso de la PPM en esta población, considerando que algunos estudios tienen limitaciones metodológicas y que se necesitan investigaciones futuras con muestras más grandes y diseños más rigurosos para confirmar los hallazgos obtenidos.

9.4. Limitaciones del estudio

La escasez de este tipo de estudios revela niveles bajos de evidencia, lo que imposibilitó realizar un estudio de metaanálisis, que pudiera determinar los resultados de forma más objetiva. De hecho, de los 10 estudios incluidos, únicamente 3 fueron controlados aleatorizados. Por esta razón, los resultados aquí presentados deben interpretarse con cautela.

Otra de las limitaciones encontrada fue la variabilidad en el tiempo de seguimiento, así como el número de muestras limitadas de pacientes, grupos de estudios con edades heterogéneas y una selección de la muestra que podría no ser representativa de la población general con DS en edad de tratamiento con la PPM.

De igual manera, la forma de evaluación de los resultados fue considerada como una de las limitaciones más relevantes de la presente revisión, ya que el método de medición de los beneficios clínicos en el desarrollo orofaciales tras la colocación de la PPM según el Dr. Castillo-Morales en pacientes pediátricos con síndrome de Down se basa en las impresiones subjetivas de un observador.

Además, el estudio podría verse limitado por el hecho de utilizar técnicas o escalas de medición que no estén totalmente validadas o no sean fiables, lo que podría influir en los resultados.

Además, otra limitación importante del presente estudio es la fecha de publicación de los estudios incluidos en el trabajo. De hecho, la mayoría de los artículos seleccionados se remontan a varios años atrás, cuando el uso de la PPM para el tratamiento de pacientes con DS aún era poco conocido y las técnicas para evaluar la eficacia del tratamiento estaban menos avanzadas que las disponibles en la actualidad. Por tanto, sería deseable actualizar la literatura científica en este campo, incluyendo estudios más recientes

basados en protocolos de investigación más rigurosos, con el fin de aportar evidencias aún más sólidas sobre la eficacia del tratamiento estudiado en esta población de pacientes.

Por último, es importante evidenciar que, debido a los tipos de variables estudiadas en el presente trabajo, no fue posible una medición cuantitativa, sino que solo fue posible una valoración cualitativa.

A pesar de las limitaciones existentes, es importante matizar que los resultados obtenidos hacen pensar en una válida alternativa de tratamiento de pacientes con DS, sin embargo, destaca la necesidad de más estudios y de más investigación futura en lo que respecta a los conocimientos y actitudes de los odontólogos respecto al tratamiento de pacientes con necesidades especiales.

9.5 Perspectivas futuras

Dado que uso de la PPM en pacientes con síndrome de Down ha demostrado tener buenos resultados, siendo un tratamiento no invasivo y relativamente simple que mejora la función oral en pacientes con DS, se propone como líneas de investigación futura el realizar nuevos estudios implementando un mismo protocolo estandarizado donde las variables sean las mismas, creando homogeneidad entre las investigaciones, incluso escalas de validación si fuese necesario.

10. Conclusiones

En base a los resultados obtenidos de los estudios analizados en el presente trabajo, se puede concluir que:

Conclusiones principales

- 1- El uso de la placa palatina de memoria de Castillo-Morales proporciona beneficios clínicos significativos en pacientes con síndrome de Down.

Conclusiones secundarias

- 1- La placa palatina de memoria de Castillo-Morales influye positivamente en la posición de la lengua, causando una retrusión y una colocación de la misma dentro de la cavidad bucal, y mejora su función en pacientes con síndrome de Down.
- 2- La utilización de la placa palatina de memoria de Castillo-Morales mejora la competencia labial en pacientes con síndrome de Down, permitiendo un correcto cierre bucal y una mejor capacidad de succión, masticación y deglución.
- 3- La aplicación del protocolo descrito por Castillo-Morales supone beneficios fisiológicos y funcionales a los pacientes con síndrome de Down, mejorando así, su función oral y la calidad de vida relacionada con la salud bucodental.

11. Bibliografía

1. Matthews-Brzozowska T, Walasz J, Matthews-Kozanecka M, Matthews Z, Kopczyński P. The role of the orthodontist in the early simulating plate rehabilitation of children with Down syndrome. Vol. 83, *Journal of Medical Science*. 2014. p. 145–51.
2. Alió-Sanz JJ. A new cephalometric diagnostic method for Down's Syndrome patients with open bite. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2008 Mar 1;13(3):E171–5.
3. Mubayrik AB. The Dental Needs and Treatment of Patients with Down Syndrome. *Dent Clin North Am*. 2016 Jul;60(3):613–26.
4. Goenharto S. Orthodontic treatment considerations in Down syndrome patients. Vol. 45, *Dental Journal (Majalah Kedokteran Gigi)*. 2012. p. 6.
5. Alió J, Lorenzo J, Iglesias MC, Manso FJ, Ramírez EM. Longitudinal maxillary growth in Down syndrome patients. *Angle Orthod*. 2011 Mar;81(2):253–9.
6. Bauer D, Evans CA, Begole EA, Salzman L. Severity of occlusal disharmonies in down syndrome. *Int J Dent*. 2012 Aug 15;2012:872367.
7. Abeleira Pazos M, Limeres Posse J, Outumuro Rial M. Ortodoncia y ortopedia dentofacial en el síndrome de Down. Santiago de Compostela Universidad de Santiago de Compostela, Facultad de Medicina y Odontología; 2018. 20-24, 64-69, 118-122 p.
8. Svensson H, Eriksson I. Oral motor therapy with palatal plates in children with Down syndrome - A systematic review. Malmö University, Faculty of Odontology; 2017
9. Abanto J, Ciamponi AL, Francischini E, Murakami C, de Rezende NPM, Gallottini M. Medical problems and oral care of patients with Down syndrome: a literature review. *Spec Care Dentist*. 2011 Nov-Dec;31(6):197–203.
10. Al-Shawaf R, Al-Faleh W. Craniofacial characteristics in Saudi Down's syndrome. Vol. 2, *King Saud University Journal of Dental Sciences*. 2011. p. 17–22.
11. Andersson EMM, Axelsson S, Austeng ME, Øverland B, Valen IE, Jensen TA, et al. Bilateral hypodontia is more common than unilateral hypodontia in children with Down syndrome: a prospective population-based study. *Eur J Orthod*. 2014 Aug;36(4):414–8.
12. van Marrewijk DJF, van Stiphout MAE, Reuland-Bosma W, Bronkhorst EM, Ongkosuwito EM. The relationship between craniofacial development and hypodontia in patients with Down syndrome. *Eur J Orthod*. 2016 Apr;38(2):178–83.
13. Abdul Rahim FS, Mohamed AM, Marizan Nor M, Saub R. Dental care access among individuals with Down syndrome: a Malaysian scenario. *Acta Odontol Scand*. 2014 Nov;72(8):999–1004.

BIBLIOGRAFÍA

14. Matthews-Brzozowska T, Cudziło D, Walasz J, Kawala B. Rehabilitation of the Orofacial Complex by Means of a Stimulating Plate in Children with Down Syndrome. Vol. 24, *Advances in Clinical and Experimental Medicine*. 2015. p. 301–5.
15. Natoli JL, Ackerman DL, McDermott S, Edwards JG. Prenatal diagnosis of Down syndrome: a systematic review of termination rates (1995-2011): Prenatal diagnosis of down syndrome: systematic review. *Prenat Diagn*; 32(2):142–53.
16. Mégarbané A, Ravel A, Mircher C, Sturtz F, Grattau Y, Rethoré MO, et al. The 50th anniversary of the discovery of trisomy 21: the past, present, and future of research and treatment of Down syndrome. *Genet Med*. 2009 Sep;11(9):611–6.
17. Oliveira AC, Paiva SM, Martins MT, Torres CS, Pordeus IA. Prevalence and determinant factors of malocclusion in children with special needs. *Eur J Orthod*. 2011 Aug;33(4):413–8.
18. Musich DR. Orthodontic Intervention and Patients with Down Syndrome: The Role of Inclusion, Technology and Leadership. *Angle Orthod*. 2006 Jul 1;76(4):734–5.
19. Klingel D, Hohoff A, Kwiecien R, Wiechmann D, Stamm T. Correction: Growth of the hard palate in infants with Down syndrome compared with healthy infants—A retrospective case control study. Vol. 13, *PLOS ONE*. 2018. p. e0203899.
20. Miyazaki H, Ohtawa Y, Sueishi K. Orthodontic treatment in Down's syndrome patients with unilateral cleft lip and alveolus. *Bull Tokyo Dent Coll*. 2014;55(4):199–206.
21. Machuca-Portillo G, Bullón P. Tratamiento odontológico en pacientes especiales. *Laboratorios Normon*; 2013. 640-643 p.
22. Hohoff A, Ehmer U. Short-term and long-term results after early treatment with the castillo morales stimulating plate. Vol. 60, *Journal of Orofacial Orthopedics / Fortschritte der Kieferorthopädie*. 1999. p. 2–12.
23. Schuster G, Giese R. Retrospective clinical investigation of the impact of early treatment of children with Down's syndrome according to Castillo-Morales. *J Orofac Orthop*. 2001 Jul;62(4):255–63.
24. Zavaglia V, Nori A, Mansour NM. Long term effects of the palatal plate therapy for the orofacial regulation in children with Down syndrome. *J Clin Pediatr Dent*. 2003 Autumn;28(1):89–93.
25. Furlan RMMM, Furlan RMM, Almeida TDD, Pretti H. Effects of using the stimulating palatal plate in combination with orofacial stimulation on the habitual tongue and lip posture in children with trisomy 21: an integrative literature review. Vol. 24, *Revista CEFAC*. 2022.
26. Limbrock GJ, Castillo-Morales R, Hoyer H, Stöver B, Onufer CN. The Castillo-Morales approach to orofacial pathology in Down syndrome. *Int J Orofacial*

Myology. 1993 Nov;19:30–7.

27. Korbmacher H, Moeller HC, Klocke A, Limbrock J, Kahl-Nieke B. Cephalometric evaluation of children with Down syndrome after early intervention with the stimulating plate. *Spec Care Dentist*. 2005 Sep-Oct;25(5):253–9.

28. Korbmacher H, Limbrock J, Kahl-Nieke B. Long-term evaluation of orofacial function in children with Down syndrome after treatment with a stimulating plate according to Castillo Morales. Vol. 30, *Journal of Clinical Pediatric Dentistry*. 2006. p. 325–8.

29. Korbmacher H, Limbrock J, Kahl-Nieke B. Orofacial Development in Children with Down Syndrome 12 Years after Early Intervention with a Stimulating Plate. Vol. 65, *Journal of Orofacial Orthopedics/Fortschritte der Kieferorthopädie*. 2004. p. 60–73.

30. Limbrock GJ, Fischer-Brandies H, Avalle C. Castillo-Morales' orofacial therapy: treatment of 67 children with Down syndrome. *Dev Med Child Neurol*. 1991 Apr;33(4):296–303.

31. Carneiro VL, González Sullcahuaman JA, Calixto Fraiz F. Utilización de la placa palatina de memoria y desarrollo orofacial en infante con Síndrome de Down. *Revista Cubana Estomatología*. 2012;49(4):305-311

32. Chad L. Critical Review: What are the effects of palatal plate therapy on orofacial features and speech in children with Down syndrome?. University of Western Ontario: School of Communication Sciences and Disorders. 2013

33. Page MJ, McKenzie JE, Bossuyt PM, Boutron I, Hoffmann TC, Mulrow CD, et al. Declaración PRISMA 2020: una guía actualizada para la publicación de revisiones sistemáticas. *Revista Española de Cardiología*. 2021 Sep 1;74(9):790–9.

34. Stang A. Critical evaluation of the Newcastle-Ottawa scale for the assessment of the quality of nonrandomized studies in meta-analyses. *European Journal of Epidemiology*. 2010;25:603–5.

35. Landis JR, Koch GG. An application of hierarchical kappa-type statistics in the assessment of majority agreement among multiple observers. *Biometrics*. 1977 Jun;33(2):363–74.

36. Bäckman B, Grevér-Sjölander A-C, Holm A-K, Johansson I. Children with Down Syndrome: oral development and morphology after use of palatal plates between 6 and 18 months of age: Children with Down Syndrome. *Int J Paediatr Dent*. 2003 13(5):327–35. Û

37. Bäckman B, Grevér-Sjölander A-C, Bengtsson K, Persson J, Johansson I. Children with Down syndrome: oral development and morphology after use of palatal plates between 6 and 48 months of age: Children with Down syndrome. *Int J Paediatr Dent*. 2007 17(1):19–28.

BIBLIOGRAFÍA

38. Carlstedt K, Henningsson G, McAllister A, Dahllöf G. Long-term effects of palatal plate therapy on oral motor function in children with Down syndrome evaluated by video registration. *Acta Odontol Scand.* 2001;59(2):63–8.

39. Carlstedt K, Henningsson G, Dahllöf G. A four-year longitudinal study of palatal plate therapy in children with Down syndrome: effects on oral motor function, articulation and communication preferences. *Acta Odontol Scand.* 2003; 61(1):39–46.

40. Glatz-Noll E, Berg R. Oral dysfunction in children with Down's syndrome: an evaluation of treatment effects by means of video registration. *Eur J Orthod.* 1991;13(6):446–51.

41. Carlstedt K, Dahllöf G, Nilsson B, Modéer T. Effect of palatal plate therapy in children with Down syndrome. A 1-year study. *Acta Odontol Scand.* 1996;54(2):122–5.

42. Vergara PV, Figueroa FR, Fierro Monti C. Tratamiento temprano de alteraciones orofaciales con fisioterapia y placa palatina en niños con síndrome de Down. *Odontoestomatología.* 2019;21(34).

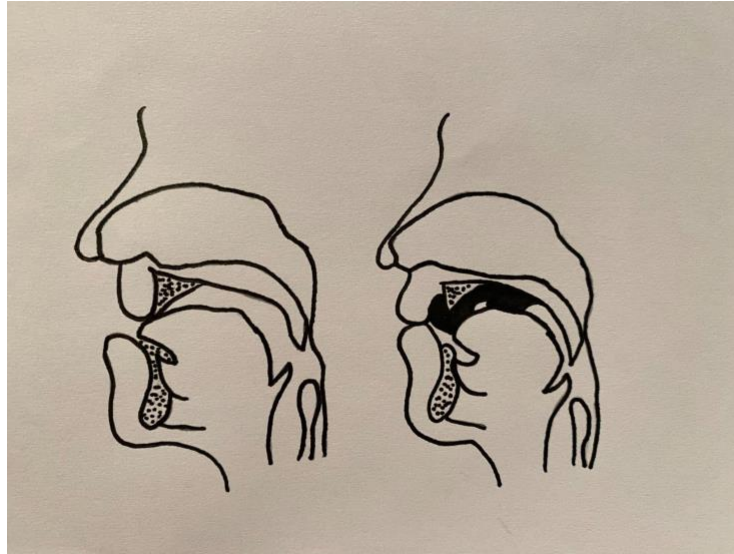


Figura 1. Reflejo de Weiffenbach.
Imagen de elaboración propia (7).



Figura 2. Placa palatina de memoria
Imagen de elaboración propia (22).



Figura 3. Puntos motores de estimulación facial.

Imagen de elaboración propia (7).

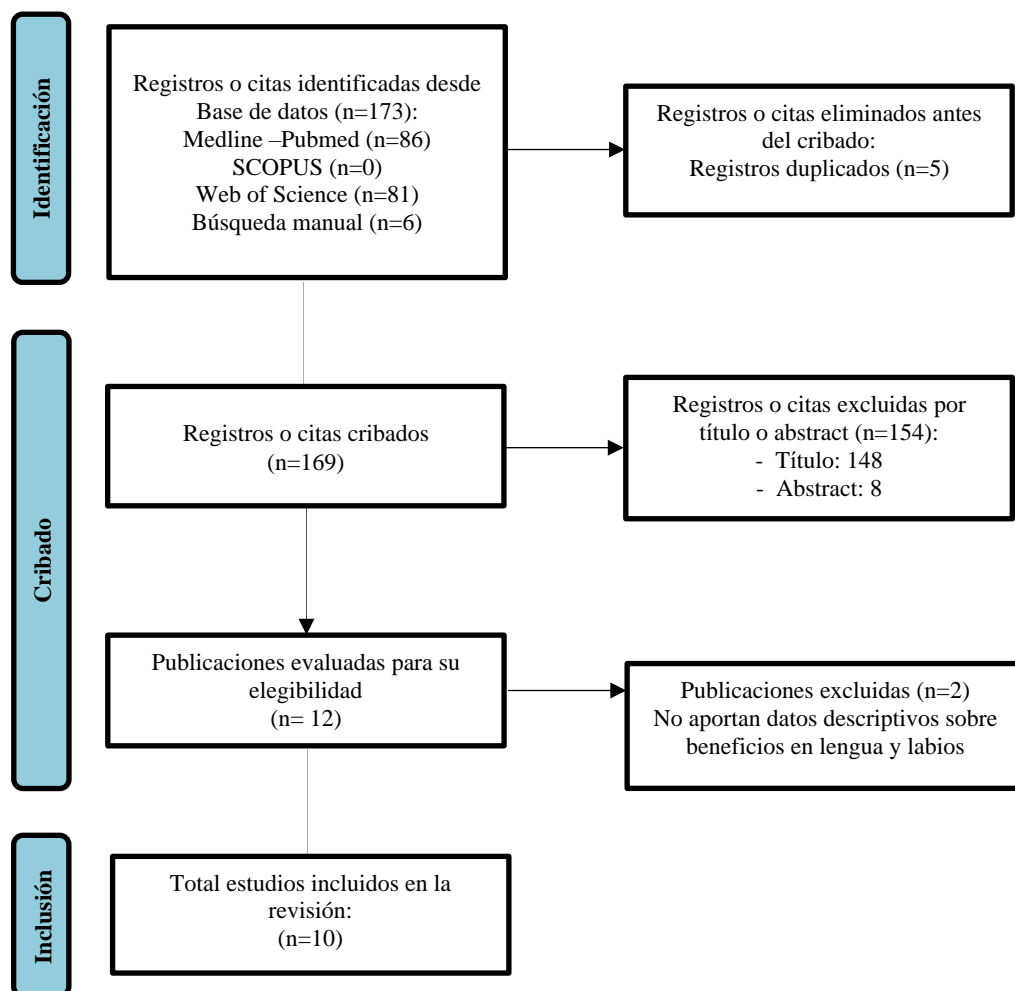


Figura 4. Diagrama de flujo de búsqueda y proceso de selección de títulos durante la revisión sistemática.

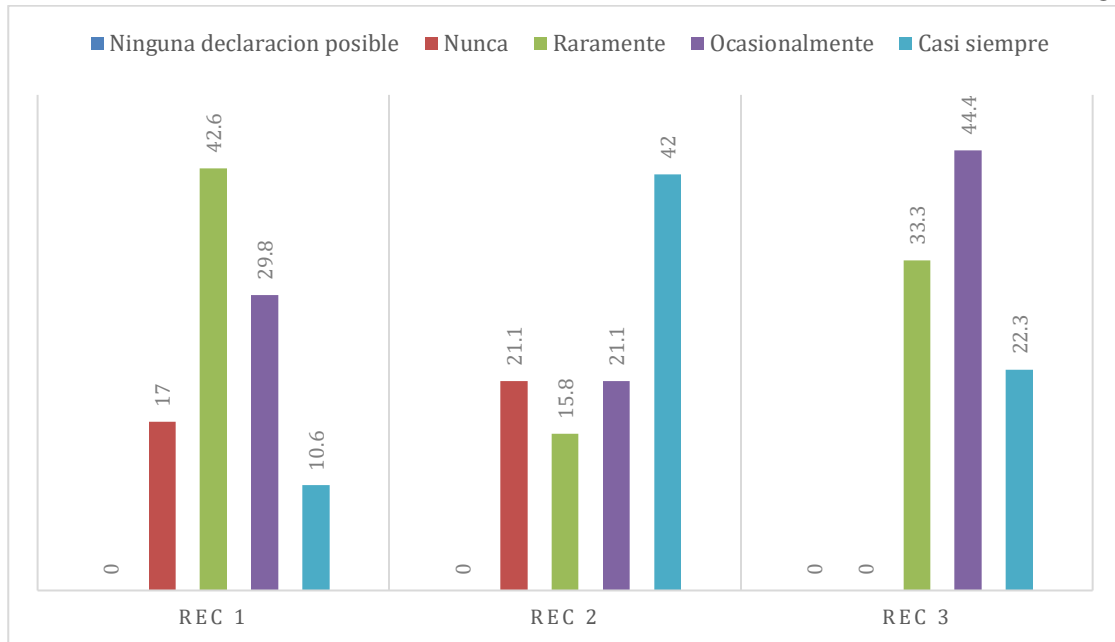


Figura 5. Resultados obtenidos de la variable “Boca cerrada”, en % de pacientes analizados, en el estudio de A. Hohoff y cols. del 1999 (22).

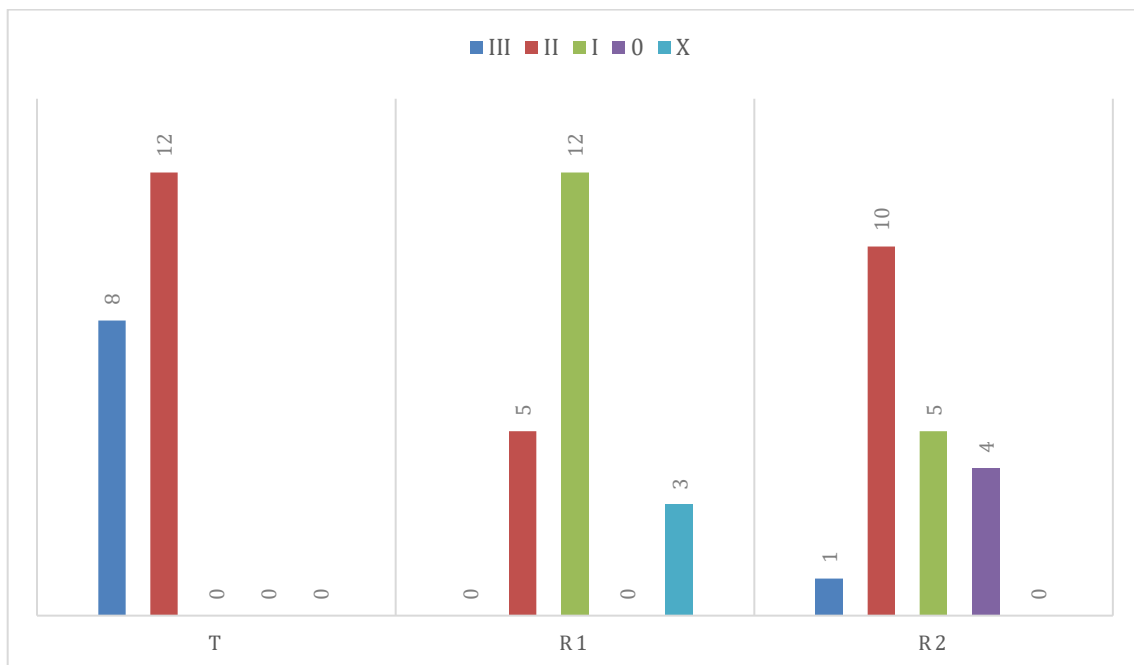


Figura 6. Desarrollo de la postura bucal en todos los niños durante T, R1 y R2. III: separación labial >10mm; II: separación labial <10mm; I: cierre labial principalmente incompetente (29).

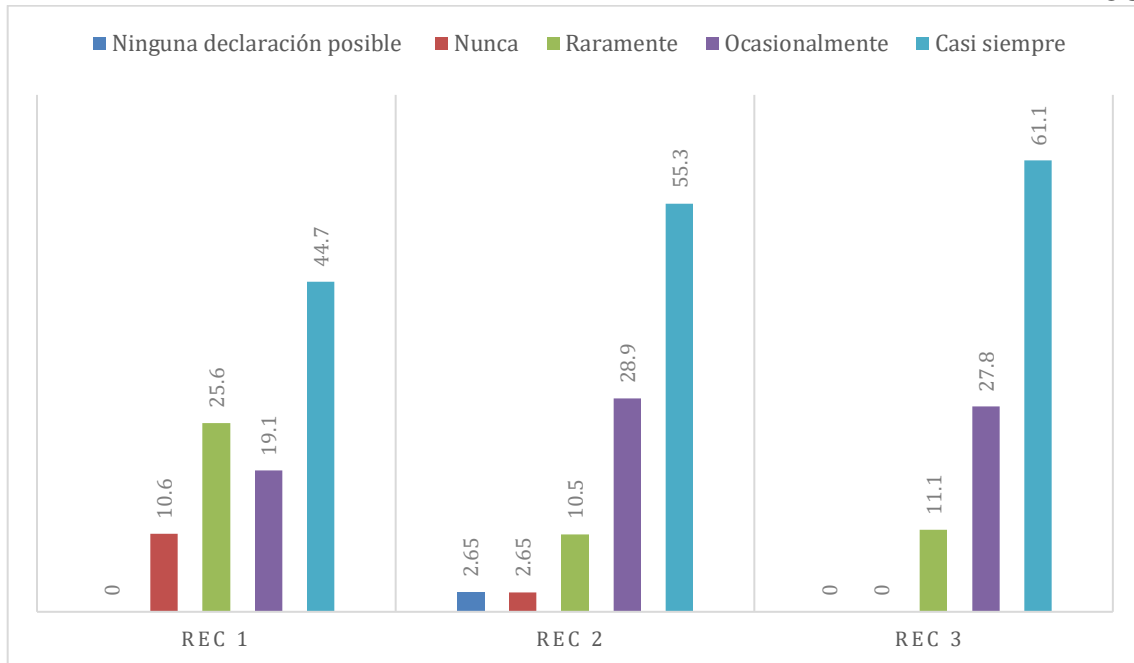


Figura 7. Resultados obtenidos de la variable “Lengua en la cavidad bucal”, en % de pacientes analizados, en el estudio de A. Hohoff y cols. del 1999 (22).

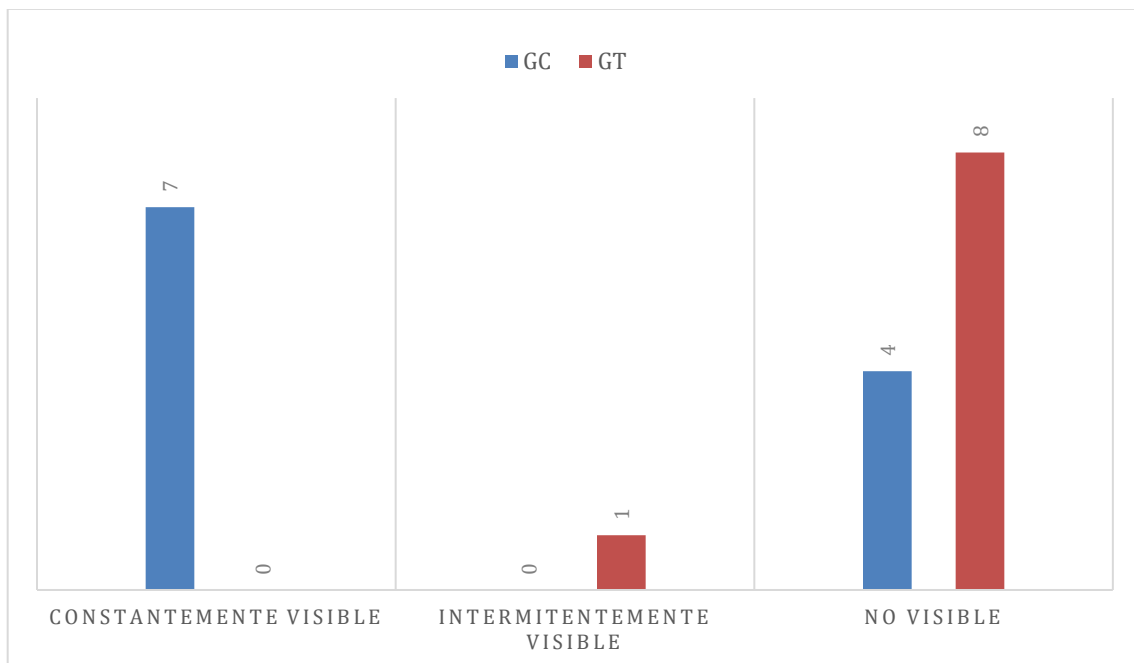


Figura 8. “Lengua visible cuando no se habla” observada durante la examinación clínica. GC: grupo control; GT: grupo test (39).

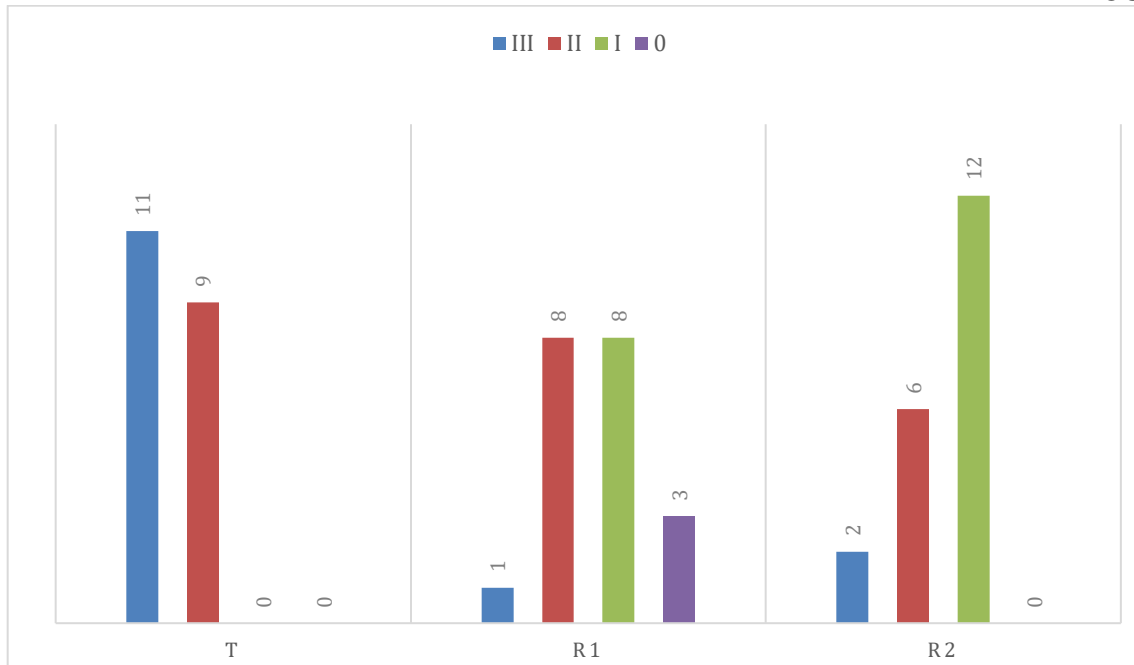


Figura 9. Desarrollo de la posición lingual en todos los niños durante T, R1 y R2. III: posición lingual extraoral; II: posición lingual intraoral; I: posición lingual caudal; 0: no valorable (29).

Tabla 1: resumen de las búsquedas de cada una de las bases de datos consultadas.

Base de datos	Búsqueda	Número de artículos	Fecha
PubMed	<p>((((((((Down syndrome[MeSH Terms]) OR (trisomy 21)) OR (mongolism)) OR (chromosomal disorder)) OR (DS)) OR (meiotic nondisjunction)) OR (mitotic nondisjunction)) OR (partial trisomy 21)) AND (((((((((((Stimulating plate) OR (Castillo-Morales plate)) OR (palate[MeSH Terms])) OR (orthotic device[MeSH Terms])) OR (palatal plate)) OR (orofacial regulation therapy)) OR (Castillo-Morales)) OR (functional appliance)) OR (palatal plates)) OR (modified palatal plate)) OR (orofacial stimulation)) OR (Castillo-Morales stimulating plate)) OR (palatal plate therapy)) OR (Castillo-Morales concept)) OR (stimulating palatal plate))) AND (((((((Myofunctional Therapy[MeSH Terms]) OR (Child Development[MeSH Terms])) OR (Human Development[MeSH Terms])) OR (Maxillofacial Development[MeSH Terms])) OR (Adolescent Development[MeSH Terms])) OR (Musculoskeletal Development[MeSH Terms])) OR (Growth and Development[MeSH Terms]))</p>	86	3/12/22
Scopus	<p>(ALL (down AND syndrome OR trisomy 21 OR mongolism OR chromosomal AND disorder OR ds OR meiotic AND nondisjunction OR mitotic AND nondisjunction OR partial AND trisomy 21) AND ALL (stimulating AND plate OR castillo-morales AND plate OR palate OR orthotic AND device OR palatal AND plate OR orofacial AND regulation AND therapy OR castillo-morales OR functional AND appliance OR palatal AND plates OR modified AND palatal AND plate OR orofacial AND stimulation OR castillo-morales AND stimulating AND plate OR palatal AND plate AND therapy OR castillo-morales AND concept OR stimulating AND palatal AND plate) AND ALL (myofunctional AND therapy OR child AND development OR human AND development OR maxillofacial AND development OR adolescent AND development OR</p>	0	14/12/22

	musculoskeletal AND development OR growth AND development))		
Web of Science	((TS=(Down syndrome OR trisomy 21 OR mongolismo OR chromosomal disorder OR DS OR meiotic nondisjunction OR mitotic nondisjunction OR partial trisomy 21)) AND TS=(Stimulating plate OR Castillo-Morales plate OR palate OR orthotic device OR palatal plate OR orofacial regulation therapy OR Castillo-Morales OR functional appliance OR palatal plates OR modified palatal plate OR orofacial stimulation OR Castillo-Morales stimulating plate OR palatal plate therapy OR Castillo-Morales concept OR stimulating palatal plate)) AND TS=(Myofunctional Therapy OR Child Development OR Human Development OR Maxillofacial Development OR Adolescent Development OR Musculoskeletal Development OR Growth and Development)	81	8/01/23

Tabla 2: Artículos excluidos (y su razón de exclusión) de la presente revisión sistemática.

Autor. Año	Publicación	Motivo de exclusión
Backman B. 2003 (36)	International Journal of Paediatric Dentistry	No aporta datos descriptivos sobre beneficios en lengua y labios
Backman B. 2007 (37)	International Journal of Paediatric Dentistry	No aporta datos descriptivos sobre beneficios en lengua y labios

Tabla 3. Características de los estudios revisados.

Variables de las características de los estudios		Total
Tipo de estudio	Randomizados	3
	Prospectivos no randomizados	4
	Retrospectivos	3
N° Pacientes (rango mínimo-máximo)		18-67
Lengua		10
Labios		4
Boca		10
Cara		2

Tabla 4. Características de los estudios incluidos en la presente revisión. GT: grupo test; GC: grupo control.

Autor, país, año de publicación	Participantes GT-GC (n)	Edad al principio del tratamiento (en meses)	Duración de tratamiento (en meses)	Terapia miofuncional según Castillo-Morales	Frecuencia de uso de la placa	Método de evaluación	Resultados obtenidos
K. Carlstedt Suecia, 2001	9 – 11 (n=20)	3 - 33	49 - 58	Si	1h 2 veces al día	-Valoración clínica -Grabación de video -Cuestionario a los padres/tutores	- < “Redondeo frecuente de los labios al hablar” - < “Boca abierta inactiva” y “Protrusión lingual inactiva”
K. Carlstedt Suecia, 2003	9 – 11 (n=20)	3 - 33	49 - 58	Si	1h 2 veces al día	-Valoración clínica -Prueba de evaluación del habla -Cuestionario a los padres/tutores	-Mejoras en la posición lingual -Activación de músculos del labio superior -Mejoras en el cierre labial y expresión facial
V. Zavaglia Italia, 2003	12 – 30 (n=42)	8 - 48	36	Si	1h 3 veces al día	Valoración clínica	- > Protrusión de la lengua “nunca más allá del labio inferior” -Disminución en la salivación
H. Korbmacher Alemania, 2004	20 - sin GC (n=20)	18 ± 23	11.5 ± 4	Si	1h 3 veces al día	-Valoración clínica -Cuestionario a los padres/tutores	-Mejoras en la postura bucal -Mejoras en la posición lingual
G.J. Limbrock Alemania, 1993	39 - sin GC (n=39)	< de 12	17.9	Si	3.9h al día	Valoración clínica	-Mejoras en la postura bucal -Mejoras en la posición lingual
H.M. Korbmacher Alemania, 2006	27 - sin GC (n=27)	13 ± 4	19 ± 4	Si	1h 3 veces al día	-Valoración clínica -Cuestionario a los padres/tutores	-Mejoras en la postura bucal -Mejoras en la posición lingual
G.J. Limbrock Alemania, 1991	67 - sin GC (n=67)	1 - 73	7 - 36	No	1h 3-4 veces al día	-Valoración clínica	-Mejoras en la tonicidad y postura de labios superior e inferior -Mejoras en la posición lingual espontanea -Mejoras en el cierre bucal -Mejoras en babeo y succión
A Hohoff Alemania, 1999	18 - sin GC (n=18)	6.5	9.9	No especificado	1h 4 veces al día	-Valoración clínica -Cuestionario a los padres/tutores	-Mejoras en la apariencia facial -Mejoras en la postura bucal y lingual - < “Boca casi siempre abierta” y “Lengua sobresale mucho de los labios” - > “Lengua principalmente en la cavidad bucal”
E. Glatz-Noll Alemania, 1991	24 – 19 (n=43)	2 - 144	5 - 20	Solo en 5 pacientes	1-2h 2 veces al día	Grabación de video	-Mejoras en la protrusión lingual -Normalización de la función lingual
K. Carlstedt Suecia, 1996	14 – 15 (n=29)	24 ± 6	12	Si	1h 2 veces al día	Grabación de video	- > “Cierre bucal” - < “Protrusión inactiva de la lengua”

Tabla 5. Medición del riesgo de sesgo de los estudios randomizados según la guía Cochrane.

	Generar secuencia aleatorizada (sesgo selección)	Ocultación de la asignación (sesgo selección)	Cegamiento evaluación de resultados (sesgo detección)	Seguimiento y exclusiones (sesgo deserción)	Descripción selectiva (sesgo informe)	Otros sesgos
Carlstedt y cols. 2001 (38)	+	-	+	+	+	-
Carlstedt y cols. 2003 (39)	+	-	+	-	+	?
Carlstedt y cols. 1996 (41)	+	-	-	+	+	+

Tabla 6. Medición del riesgo de sesgo de los estudios observacionales no randomizados con la escala Newcastle-Ottawa – estudios observacionales con grupo control no randomizado.

	Definición de los casos	Representatividad	Selección de los controles	Definición de los controles	Comparabilidad (factor más importante)	Comparabilidad (cualquier otra variable)	Comprobación de la exposición	Mismo método para ambos grupos	Tasa de abandonos	Total
Zavaglia y cols. 2003 (24)	★	★	★	-	-	-	-	-	-	3
Glatz-Noll & Berg 1991 (40)	★	-	-	-	★	-	-	★	-	3

Tabla 7. Medición del riesgo de sesgo de los estudios observacionales no randomizados con la escala Newcastle-Ottawa – estudios observaciones cohortes no grupo control.

	Representatividad cohorte	Selección cohorte no expuesta	Comprobación exposición	Demostración no presencia variable interés al inicio	Comparabilidad (factor más importante)	Comparabilidad (otros factores)	Medición resultados	Suficiente seguimiento	Tasa de abandonos	Total
Korbmacher y cols. 2004 (29)	★	-	★	★	-	-	★	★	★	6
Limbrock y cols. 1993 (26)	★	-	★	★	-	-	★	★	-	5
Korbmacher y cols. 2006 (28)	★	-	★	★	-	-	★	★	-	5
Limbrock y cols. 1991 (30)	★	-	★	★	-	-	★	-	★	5
Hohoff & Ehmer 1999 (22)	-	-	★	★	-	-	★	★	★	5

Tabla 8. Definición de las variables inherentes al cierre bucal (41).

Variable	Definición
“Boca cerrada”	Labios totalmente cerrados
“Boca abierta”	Labios sin contacto

Tabla 9. Valores medios (%) de tiempo registrado de las variables evaluadas en la grabación de vídeo.

GT: grupo test; GC: grupo control (41).

Variable	Antes del tratamiento		A los 12 meses	
	GT	GC	GT	GC
“Boca cerrada”	1.5	4.7	29.7	2.7
“Boca abierta”	61.3	70.8	59.3	49.0

Tabla 10. Valores medios (%) de tiempo registrado de las variables evaluadas en la grabación de vídeo

GT: grupo test; GC: grupo control (38).

		GT	GC
VARIABLES ACTIVAS	Boca cerrada	24.7	22.9
	Boca abierta activa	19.2	15.6
VARIABLE INACTIVA	Boca abierta inactiva	9.2	17.1

Tabla 11. Resultados obtenidos en relación con la postura bucal desde el principio hasta una media de 12 años y 9 meses después de la colocación de la PPM (T-R2) (29).

Postura bucal al principio del estudio	Mejoras de 3 grados	Mejoras de 2 grados	Mejoras de 1 grado	Total
III	37,5%	37,5%	25%	100%
II	/	8,3%	16,7%	25%

Tabla 12. Mejoras generales de la postura bucal. -1= empeoramiento de un grado; 0= postura bucal sin cambios; 1= mejoras de un grado; 2= mejoras de dos grados; 3=mejoras de tres grados (28).

Cambios (en grados)	Distancia labial >10mm	Distancia labial <10mm
-1	0	1
Sin cambios	0	8
1	3	3
2	5	3
3	4	0

Tabla 13. Escala de posición lingual según Fisher-Brandies (1988) (30).

1°	En la cavidad bucal
2°	En el borde alveolar
3°	En el labio inferior
4°	Supera el labio inferior
5°	Moderadamente fuera del labio inferior
6°	Fuertemente fuera del labio inferior

Tabla 14. Observación en los 12 niños en los que se consideró que el tratamiento había tenido éxito (grabación de un video de 5 minutos). I: antes del tratamiento; II: al final del tratamiento (tras una media de 6.5 meses de la inserción de la PPM) (40).

N° de pacientes	Duración de protrusión lingual (seg.)		Estadio de protrusión lingual (grados°)	
	I	II	I	II
1	81	17	3	2
2	107	8	3	1
3	205	1	3	1
4	115	49	2	2
5	9	4	1	1
6	177	7	4	1
7	163	20	3	2
8	134	3	2	1
9	95	2	2	1
10	140	22	3	2
11	103	40	3	1
12	88	31	3	1

Tabla 15. Definición de las variables inherentes a la protrusión lingual (41).

Variable	Definición
“Protrusión activa de la lengua”	Positiva cuando la lengua estaba fuera de la boca y era móvil
“Protrusión inactiva de la lengua”	Lengua fuera de la boca e inmóvil

Tabla 16. Valores medios de tiempo registrado de las variables evaluadas en la grabación de vídeo (41)

Variable	Antes del tratamiento		A los 12 meses	
	GT	GC	GT	GC
“Protrusión activa de la lengua”	5.7	1.3	1.1	4.2
“Protrusión inactiva de la lengua”	27.9	20.8	0.4	39.2



PRISMA 2020 Checklist

Section and Topic	Item #	Checklist item	Location where item is reported
TITLE			
Title	1	Identify the report as a systematic review.	Portada
ABSTRACT			
Abstract	2	See the PRISMA 2020 for Abstracts checklist.	1-2
INTRODUCTION			
Rationale	3	Describe the rationale for the review in the context of existing knowledge.	18
Objectives	4	Provide an explicit statement of the objective(s) or question(s) the review addresses.	20
METHODS			
Eligibility criteria	5	Specify the inclusion and exclusion criteria for the review and how studies were grouped for the syntheses.	21-22
Information sources	6	Specify all databases, registers, websites, organisations, reference lists and other sources searched or consulted to identify studies. Specify the date when each source was last searched or consulted.	21-24
Search strategy	7	Present the full search strategies for all databases, registers and websites, including any filters and limits used.	22-24
Selection process	8	Specify the methods used to decide whether a study met the inclusion criteria of the review, including how many reviewers screened each record and each report retrieved, whether they worked independently, and if applicable, details of automation tools used in the process.	24-25
Data collection process	9	Specify the methods used to collect data from reports, including how many reviewers collected data from each report, whether they worked independently, any processes for obtaining or confirming data from study investigators, and if applicable, details of automation tools used in the process.	25-26
Data items	10a	List and define all outcomes for which data were sought. Specify whether all results that were compatible with each outcome domain in each study were sought (e.g. for all measures, time points, analyses), and if not, the methods used to decide which results to collect.	26
	10b	List and define all other variables for which data were sought (e.g. participant and intervention characteristics, funding sources). Describe any assumptions made about any missing or unclear information.	25
Study risk of bias assessment	11	Specify the methods used to assess risk of bias in the included studies, including details of the tool(s) used, how many reviewers assessed each study and whether they worked independently, and if applicable, details of automation tools used in the process.	26
Effect measures	12	Specify for each outcome the effect measure(s) (e.g. risk ratio, mean difference) used in the synthesis or presentation of results.	27
Synthesis methods	13a	Describe the processes used to decide which studies were eligible for each synthesis (e.g. tabulating the study intervention characteristics and comparing against the planned groups for each synthesis (item #5)).	24-25,27
	13b	Describe any methods required to prepare the data for presentation or synthesis, such as handling of missing summary statistics, or data conversions.	
	13c	Describe any methods used to tabulate or visually display results of individual studies and syntheses.	24-25, 27
	13d	Describe any methods used to synthesize results and provide a rationale for the choice(s). If meta-analysis was performed, describe the model(s), method(s) to identify the presence and extent of statistical heterogeneity, and software package(s) used.	26
	13e	Describe any methods used to explore possible causes of heterogeneity among study results (e.g. subgroup analysis, meta-regression).	
	13f	Describe any sensitivity analyses conducted to assess robustness of the synthesized results.	
Reporting bias assessment	14	Describe any methods used to assess risk of bias due to missing results in a synthesis (arising from reporting biases).	
Certainty assessment	15	Describe any methods used to assess certainty (or confidence) in the body of evidence for an outcome.	



PRISMA 2020 Checklist

Section and Topic	Item #	Checklist item	Location where item is reported
RESULTS			
Study selection	16a	Describe the results of the search and selection process, from the number of records identified in the search to the number of studies included in the review, ideally using a flow diagram.	28-29
	16b	Cite studies that might appear to meet the inclusion criteria, but which were excluded, and explain why they were excluded.	29
Study characteristics	17	Cite each included study and present its characteristics.	30
Risk of bias in studies	18	Present assessments of risk of bias for each included study.	32-33
Results of individual studies	19	For all outcomes, present, for each study: (a) summary statistics for each group (where appropriate) and (b) an effect estimate and its precision (e.g. confidence/credible interval), ideally using structured tables or plots.	33-47
Results of syntheses	20a	For each synthesis, briefly summarise the characteristics and risk of bias among contributing studies.	67-68
	20b	Present results of all statistical syntheses conducted. If meta-analysis was done, present for each the summary estimate and its precision (e.g. confidence/credible interval) and measures of statistical heterogeneity. If comparing groups, describe the direction of the effect.	
	20c	Present results of all investigations of possible causes of heterogeneity among study results.	
	20d	Present results of all sensitivity analyses conducted to assess the robustness of the synthesized results.	
Reporting biases	21	Present assessments of risk of bias due to missing results (arising from reporting biases) for each synthesis assessed.	
Certainty of evidence	22	Present assessments of certainty (or confidence) in the body of evidence for each outcome assessed.	
DISCUSSION			
Discussion	23a	Provide a general interpretation of the results in the context of other evidence.	48-54
	23b	Discuss any limitations of the evidence included in the review.	54-55
	23c	Discuss any limitations of the review processes used.	54-55
	23d	Discuss implications of the results for practice, policy, and future research.	55
OTHER INFORMATION			
Registration and protocol	24a	Provide registration information for the review, including register name and registration number, or state that the review was not registered.	
	24b	Indicate where the review protocol can be accessed, or state that a protocol was not prepared.	
	24c	Describe and explain any amendments to information provided at registration or in the protocol.	
Support	25	Describe sources of financial or non-financial support for the review, and the role of the funders or sponsors in the review.	
Competing interests	26	Declare any competing interests of review authors.	
Availability of data, code and other materials	27	Report which of the following are publicly available and where they can be found: template data collection forms; data extracted from included studies; data used for all analyses; analytic code; any other materials used in the review.	

BENEFICIOS CLINICOS DE LA PLACCA PALATINA DE CASTILLO-MORALES EN EL DESARROLLO OROFACIAL DE PACIENTES CON SÍNDROME DE DOWN: UNA REVISIÓN SISTEMÁTICA

Autores:

Bianca Quartararo¹, M^a Teresa Chofré Lorente ²

¹ *5th year student of the Dentistry degree at the European University of Valencia, Valencia, Spain.*

² *DDS, MSc, PhD. European University of Valencia, Valencia, Spain.*

Correspondencia

M^a Teresa Chofré Lorente

Paseo Alameda 7, Valencia

46010, Valencia

teresa.chofre@universidadeuropea.es

Resumen

Introducción: Los pacientes con síndrome de Down presentan rasgos faciales distintivos y una alta prevalencia de anomalías dentales y maloclusiones. La terapia miofuncional de estimulación orofacial combina la placa palatina de memoria (PPM) con la fisioterapia de los músculos faciales. La PPM es un aparato removible que consta de un estimulador lingual y uno vestibular para modificar la posición de la lengua y mejorar los movimientos voluntarios de los músculos, para conseguir un completo cierre bucal. Los objetivos de esta revisión sistemática se basan en analizar los beneficios clínicos generados por el abordaje ortodóncico mediante el uso de la PPM de Castillo-Morales en los pacientes con síndrome de Down, mediante la evaluación del posicionamiento lingual y la estimación de la competencia labial; y por último establecer las ventajas fisiológicas y funcionales que supone la aplicación del protocolo descrito por Castillo-Morales.

Material y método: Se realizó una búsqueda electrónica en las bases de datos PubMed, Scopus y Web of Science sobre el uso de la PPM según el método del Dr. Castillo-Morales en pacientes con síndrome de Down hasta diciembre 2022.

Resultados: De 173 artículos potencialmente elegibles, 10 cumplieron con los criterios de inclusión. Analizando el cierre bucal, se encontró una eficacia significativa tras la colocación del PPM. Además, se evidenció que los participantes con peores grados de maloclusión obtenían resultados más efectivos y más rápidamente. En cuanto a la posición y protrusión lingual, los mejores resultados se dieron en aquellos cuya protrusión lingual era más prominente. Por último, algunos autores analizaron la postura y tonicidad labial, respondiendo casi la totalidad de los pacientes tratados con la PPM favorablemente, sin llegar a lograr la normalidad total.

Conclusión: A pesar de las limitaciones, la terapia parece ser efectiva, aportando beneficios clínicos en el cierre bucal, en la protrusión y posición lingual y en la tonicidad labial.

Palabras claves: *Down syndrome, Castillo-Morales, Palatal plate, Myofunctional therapy, Open bite, Tongue protrusion, Oral hypotonia.*

Introducción

El síndrome de Down (DS) o “trisomía 21” es el trastorno congénito caracterizado por una deficiencia física y mental, que se origina cuando la división celular anormal produce una copia adicional del cromosoma 21 (1-3). La prevalencia de maloclusiones dentales en los pacientes con DS es del 74%, en general padecen maloclusiones severas y de origen esquelético, lo que causa una mayor afectación de las funciones con comparación a la población sin-DS (2,4). El concepto de terapia miofuncional de estimulación orofacial fue desarrollado en los años 70 por el fisioterapeuta argentino Rodolfo Castillo-Morales. Este programa combinaba el dispositivo intraoral, llamado placa palatina de memoria (PPM), junto con la fisioterapia de los músculos faciales (5,6,7-17) . Los objetivos de la PPM buscan modificar la posición lingual y mejorar los movimientos voluntarios actuando sobre los músculos de los labios para sellar la boca y reducir la producción de saliva, con la finalidad principal de mejorar la apariencia facial y prevenir la patología orofacial secundaria asociada con la disfunción de la lengua (12). Existen diversas revisiones sistemáticas publicadas sobre el enfoque terapéutico del Dr. Castillo-Morales en pacientes con DS. Sin embargo, la presente revisión sistemática se ha enfocado a evaluar los beneficios en el desarrollo orofacial de pacientes con síndrome de Down, analizando de forma específica el cierre bucal y en la retrusión lingual. El objetivo de la presente revisión fue revisar sistemáticamente la siguiente pregunta ¿Qué beneficios clínicos en el desarrollo orofacial ofrece el abordaje ortodóncico mediante la placa palatina de Castillo-Morales en el paciente con síndrome de Down? Para ello se evaluaron, en primer lugar, el cierre bucal y la protrusión espontánea de la lengua y su posición y, en segundo lugar, la tonicidad de los labios.

Material y métodos

La presente revisión sistemática se llevó a cabo siguiendo la declaración de la Guía PRISMA (Preferred Reporting Items for Systematic reviews and Meta-Analyses) (19).

- Pregunta PIO:

El formato de la pregunta se estableció de acuerdo con la pregunta estructurada PIO:

P (población): Pacientes con síndrome de Down

I (intervención): Abordaje ortodóncico mediante la placa palatina de Castillo-Morales

O (resultados): Beneficios clínicos en el desarrollo orofacial.

O1: Cierre bucal;

O2: Protrusión espontánea de la lengua;

O3: Posición de la lengua;

O4: Tono del labio superior.

- Criterios de elegibilidad

Los criterios de inclusión fueron:

⇒ Tipo de Estudio: estudios experimentales: Ensayos clínicos aleatorizados controlados, estudios de cohortes retrospectivos, estudios longitudinales y series de casos; estudios sobre individuos humanos, estudios con un seguimiento de cualquier duración; Publicaciones en inglés, español o italiano sin restricción en el año de publicación; Publicados hasta diciembre de 2022.

⇒ Tipo de Paciente: Estudios sobre pacientes con síndrome de Down con características morfológicas fenotípicas aptos al tratamiento con la PPM, sin restricción sobre el tamaño de la muestra.

⇒ Tipo de Intervención: cumplimiento del protocolo del Dr. Castillo-Morales, uso de la placa palatina de memoria junto con la fisioterapia orofacial.

⇒ Tipo de Variables de Resultados: Estudios que proporcionaron datos relacionados con beneficios clínicos en el desarrollo orofacial como variable principal. Y como variables secundarias: el cierre bucal, la protrusión espontánea de la lengua, la posición de la lengua y el tono del labio superior.

En cuanto a los criterios de exclusión, se descartaron: revisiones, metaanálisis, estudios experimentales in vitro y en animales, informes de expertos, comentarios o cartas al editor. Además, los estudios que no contribuyesen al logro de nuestros objetivos. No se impusieron restricciones según el año de publicación. Cuando fue necesario, se estableció contacto con los autores para aclarar la información que faltaba.

- Proceso de selección de los estudios:

Se realizó un proceso de selección en tres etapas. La selección de los estudios fue llevada a cabo por dos revisores (BQ, MTCHL). En la primera etapa se filtraba por los títulos con el objeto de eliminar publicaciones irrelevantes. En la segunda etapa se realizaba el cribado por los resúmenes y se seleccionaba según el tipo de estudio, tipo de aparatología utilizada, tipo de intervención, número de pacientes, y variables de resultado. Los estudios sin información suficiente o con resúmenes no estructurados para determinar su exclusión se consideraron para evaluación de texto completo. En la tercera etapa se filtraba según la lectura del texto completo y se procedió a la extracción de los datos usando para ello un formulario de recogida de datos previamente elaborado para confirmar la elegibilidad de los estudios. Los desacuerdos entre los revisores se resolvieron mediante discusión y, cuando fue necesario, un tercer revisor (BL) fue consultado. El grado de acuerdo respecto a la inclusión de los estudios potenciales fue calculado por k-stadistics (Cohen kappa test) para la segunda y la tercera etapa de selección.

- Extracción de datos:

Los artículos incluidos en el presente estudio se introdujeron en hojas de cálculo de Excel para permitir la extracción y comparación de datos. Se incluyeron factores relacionados con el artículo, como: autores, año de publicación, tipo de estudio y número de pacientes; así como factores relacionados con la intervención como cierre bucal, protrusión espontánea lingual, posición de la lengua y tono labial superior. Después de una lectura detallada de los artículos incluidos en el estudio, se seleccionaron un listado de variables presentes en todos ellos que, contribuyeron y aportaron informaciones para la mejor comprensión de los beneficios que se obtienen tras la aplicación del protocolo descrito por Castillo-Morales.

- Valoración de la calidad:

La valoración del riesgo de sesgo fue evaluada por dos revisores (BQ, MTCHL) con el objetivo de analizar la calidad metodológica de los artículos incluidos. Para la evaluación de la calidad de los estudios clínicos controlados aleatorizados se utilizaron dos herramientas diferentes: la guía Cochrane 5.1.0 para los ensayos clínicos y la guía CASPe

para los estudios de cohorte. Entre las publicaciones, se consideraron de “bajo riesgo de sesgo” aquellas que cumplían todos los criterios, “alto riesgo de sesgo” aquellas que no cumplían uno o más criterios y, de “sesgo incierto” los estudios que presentaban faltas de información o en caso de incertidumbre sobre el posible sesgo. La escala de Newcastle-Ottawa (20) se utilizó para medir la calidad de los estudios no randomizados observacionales, considerándose de “bajo riesgo de sesgo” en el caso de una puntuación >6 estrellas y “alto riesgo de sesgo” en el caso de una puntuación ≤ 6 estrellas. Por último, mediante la prueba kappa de Cohen, siguiendo la escala propuesta por Landis y Koch, se obtuvo el grado de acuerdo entre examinadores para la evaluación de la calidad metodológica (21).

- Síntesis de datos

Para resumir y comparar las variables de resultado entre los estudios, las medias de las variables primarias se agruparon por grupo de estudio. Para todas las variables de resultados analizadas fue necesario calcular la media ponderada puesto que cada estudio procedía de muestras con diferente número de pacientes, con el fin de obtener resultados más representativos. Por tanto, se dividió el número de pacientes de cada estudio por el total de pacientes de todos los estudios y se multiplicó por el valor de media reportada por cada estudio, repitiendo el mismo procedimiento para todas las variables estudiadas.

Resultados:

- Selección de estudios

Se obtuvieron un total de 167 artículos del proceso de búsqueda inicial: Medline - PubMed (n=86), SCOPUS (n=0) y la Web of Science (n=81). Además, se obtuvieron 6 estudios adicionales a través de la búsqueda manual (lista de referencias y fuentes primarias). Del total de estas publicaciones, 12 se identificaron como artículos potencialmente elegibles mediante el cribado por títulos y resúmenes. Los artículos de texto completo fueron posteriormente obtenidos y evaluados a fondo. Como resultado, 10 artículos cumplieron con los criterios de inclusión y fueron incluidos en la presente revisión sistemática (Fig. 1).

- Análisis de las características de los estudios revisados

Los 10 artículos incluidos en la presente revisión describían variables relativas a posición y/o protrusión lingual y a cierre bucal (7,9,11,13-15,22-25), 4 analizaban la función labial (9,15,22,23) y 2 estudiaban los beneficios relativos a la cara (7,23). 3 artículos fueron ensayos clínicos controlados aleatorizados (22,23,25), 4 fueron estudios prospectivos (9,11,15,24) y 3 retrospectivos (7,13,14). En los estudios randomizados el paciente fue la unidad de asignación al azar (Tabla 3). De un total de 325 pacientes tratados: 86 lo fueron con la PPM, 67 pacientes fueron tratados con la terapia miofuncional según el método de Castillo-Morales, 153 con ambas intervenciones y en los 19 pacientes restantes no fue aplicado ningún tratamiento. En todos los estudios, el número de la muestra oscilaba entre 18 y 67 pacientes con edad media al inicio del estudio entre 1 mes y 12 años. En cuanto a la frecuencia de uso de la PPM, en todos los artículos revisados, los autores recomiendan utilizar la placa por lo menos 2 horas al día. En 3 de los estudios se aconseja su uso 1 hora 2 veces al día (22,23,25); en 3 de los estudios, de otra forma, se recomienda su uso 1 hora 3 veces al día (9,13,14) y en los 4 restantes, los autores recomiendan una colocación del aparato entre 3 y 4 horas diarias (7,11,15,24). En ningún caso el uso de la placa supera las 4 horas diarias, evitando así el riesgo de costumbre por parte de los pacientes a cuerpo extraño no provocando el reflejo de Weiffenbach. La evaluación y valoración de los efectos del tratamiento con PPM fueron realizadas por logopedas en 3 estudios (22,23,25); en otro de ellos, fueron evaluados por logopedas, fisioterapeutas, otorrinolaringólogos y psicólogos (9), mientras que 2 estudios la evolución del tratamiento fue llevada a cabo por un neuropediatra (11,13-15). El efecto del tratamiento se evaluó mediante valoración clínica en 8 de los estudios, (7,9,11,13-15,22,23) grabación en vídeo en 3 (22,24,24) y cuestionario a los padres/tutores en 5 estudios (7,13,14,22,23). Solamente en 1 estudio se añadió la prueba de evaluación del habla para medir los efectos del tratamiento (23) (Tabla 1).

- Evaluación de la calidad metodológica y riesgo de sesgo

Para los estudios randomizados, un alto riesgo de sesgo fue considerado en los 3 estudios (Tabla 2). Para los estudios observaciones no randomizados, 1 fue considerado de bajo riesgo de sesgo y 6 de alto sesgo (Tablas 3 y 4). El sesgo de selección (Ocultación de la asignación) fue el ítem de mayor riesgo de sesgo en los estudios ensayos clínicos

aleatorizados controlados. El valor k (Cohen kappa test) sobre el acuerdo entre los revisores de la calidad metodológica fue de 97,4% según la escala de Landis & Koch (21).

- Síntesis de resultados

Cierre bucal

En relación con el cierre bucal, se realizaron dos estudios utilizando grabaciones de video (25,28). En el primer estudio, la duración del cierre de la boca aumentó desde un 1,5 % al inicio del tratamiento a un 29,7 % después de un año de tratamiento. Después de cuatro años de tratamiento, la diferencia fue mucho menor y alcanzó el 24,7%. Se realizaron cuatro estudios basados en el examen clínico extraoral e intraoral. En el primer estudio (14), se observó una mejoría en la postura bucal en el 75% de los niños y no cambió en el 10% después de un año de tratamiento. En otro estudio llevado a cabo por parte de los mismos autores (13), después de un promedio de 12,9 años, la postura bucal mejoró en un 55 %, se mantuvo sin cambios en un 40 % y aumentó en un 5 %. En el grupo III, se registró un 100% de éxito, en el grupo II, un 25%. Además, se observó una mejora en la postura bucal en dos estudios clínicos (11,15). Al comienzo del tratamiento, 17 pacientes tenían una condición "muy abierta" y 22 tenían una condición "ligeramente" abierta. El 65% de los participantes del primer grupo mejoraron al nivel del segundo grupo y el 35% logró el cierre completo de la boca. En el segundo grupo, 82% mostraron la boca cerrada al final del tratamiento y el 18% no cambió. Ambos grupos mostraron una mejora de un grado en el 74% de los casos y de dos grados en el 15.4%. Finalmente, un estudio examinó el cierre de la boca usando cuestionarios para padres/cuidadores y observaciones clínica (7). Al inicio del tratamiento se registraron 10,6 niños con la boca cerrada "casi siempre". Sin embargo, después de cuatro meses de tratamiento, este número aumentó a 42, lo que representa un aumento de 4 veces. Después de 53 meses, se informó un valor de 22,3. Al mismo tiempo, aumentó el número de pacientes con boca cerrada "raramente" (de 15,8 a 33,3) y boca cerrada "ocasionalmente" (de 21,1 a 44,4) (Fig. 2).

Protrusión y posición lingual

En relación con la protrusión y posición lingual, 3 estudios valoraron mediante la grabación de un video. En el primer artículo (24) la variable fue medida antes de la

colocación de la PPM, resultando ser de 144.8 segundos, tras 1 año de tratamiento disminuyó a 49.3 segundos. En el segundo artículo (25) la protrusión inactiva de la lengua antes de empezar el tratamiento fue de aproximadamente 27.9 segundos del tiempo de grabación y disminuyó tras 9 meses llegando a ser de 0,4 segundos al año. Después de 4 años, los mismos autores (22) volvieron a valorar la variable y los resultados del seguimiento mostraron que el tiempo de protrusión inactiva de la lengua fue inferior en un 3,9%. Fue realizado un último estudio por parte de los mismos autores (23) en el cual valoraron la posición lingual. Los resultados mostraron que casi el 55% de los niños del grupo tratados con PPM presentaban una mejora. 6 estudios valoraron la protrusión y posición lingual mediante una exploración extra e intraoral. En el primer artículo (9), tras un periodo variable de tratamiento con PPM, la condición de los pacientes se modificó positivamente: la protrusión de la lengua nunca sobrepasó el labio inferior en 9 de los 12 pacientes y ocasionalmente más allá del labio inferior en 3. Los autores del segundo artículo (14) analizaron los cambios antes del tratamiento y después de un año y encontraron que el 65% de los niños mostraron una posición mejorada de la lengua, y el 20% una posición inalterada. Los mismos autores (13) volvieron a valorar la posición lingual después de una media de 12,9 años, la cual mejoró en el 20%, permaneció inalterada en el 60% y se deterioró en el 5%. Por tanto, desde el principio del tratamiento, la posición lingual mejoró en el 75% de los niños y permaneció inalterada en el 25% (figura 9). El siguiente estudio valoró la posición y protrusión lingual mediante un cuestionario a los padres/tutores, y una posterior observación clínica, (7) antes del tratamiento, después de una media de 4 meses y después de una media de 53 meses. Al inicio del tratamiento, se observó que había 19,1 niños cuya lengua ocasionalmente se colocaba fuera del labio inferior. Sin embargo, después de 53 meses de tratamiento, este número aumentó a 27,8. Se observó una mejora en el parámetro “lengua raramente fuera del labio inferior” desde un valor de 25.6 antes del tratamiento, hasta 10,5 después de 4 meses. Sin embargo, los resultados no se mantuvieron estables hasta los 53 meses, donde se registró un valor de 11,1. Por otro lado, el número de niños cuya lengua estaba casi siempre en la cavidad bucal aumentó a lo largo del tratamiento, 44,7 antes de la colocación, 55,4 tras 4 meses y alcanzando el valor más alto de 61,1 tras 53 meses de tratamiento. Además, se observó una disminución en el número de niños cuya lengua estaba “nunca” en la cavidad oral, pasando de 10,6 antes del tratamiento hasta 0 a los 53

meses. Por fin, analizando la información facilitada a través del cuestionario, los autores encontraron que la postura de la lengua mejoró en el 76,3% de los pacientes durante la totalidad del tratamiento (Fig. 3). Mediante la exploración clínica además se observaron mejoras en 2 estudios (15) que incluyeron 39 niños y utilizaron una particular escala de Fisher-Brandies que diferencia seis tipos que van desde una situación en la que la lengua se mantiene bien en la cavidad bucal, hasta una protrusión lingual fuertemente fuera del labio inferior. La posición de la lengua mejoró en 33 niños en al menos dos grados y en 9 en un grado. El otro estudio fue conseguido por parte de los mismos autores (11) que volvieron a valorar los pacientes tras 18 meses de la colocación de la PPM dividiendo los pacientes en 2 subgrupos. El primer grupo que colocaba la lengua en posición interlabial y el segundo en posición interalveolar. 50% de los pacientes del primer grupo mejoraron dos grados y 46% mejoraron un grado, mientras 85% del segundo grupo retrajeron la lengua hacia el interior de la boca y 15% no mostraron cambios. Ambos grupos respectivamente mostraron una mejoría de un grado en el 59% y de dos grados en el 33%.

Postura y tonicidad labial

En cuanto a la presente variable, el primer estudio (15) valoró la tonicidad labial en 67 niños y encontró la presencia de unos labios fuertemente hipotónicos en 18 de ellos. El 88,8% respondió al tratamiento con la PPM, pero nunca logrando la normalidad total. Los últimos 2 estudios valoraron la postura labial mediante la grabación de un video. En el primero (22), tras la exploración extraoral, los investigadores analizaron la presencia de la variable “redondeo de los labios durante el habla” en el 90% pacientes. En el segundo (23) se estimó que el 90% tenía un labio superior corto, sin embargo, 90% tenían un labio superior activo, y había 77% con actividad también en el labio inferior.

Discusión

La falta de estudios aleatorios que comparen ambas técnicas hizo imposible realizar un metaanálisis, por lo que los resultados se mostraron de forma descriptiva.

Cierre bucal

Estos resultados concuerdan con los encontrados en otras revisiones sistemáticas de la literatura. Svensson y cols. (6), Vivar Vergara y cols. (18), y Chad y cols. (17)

encontraron que el uso de dispositivos terapéuticos como la PPM en combinación con la terapia miofuncional mejoró significativamente la capacidad de los niños con síndrome de Down para mantener el sellado labial. Además, los autores de las revisiones sistemáticas inherentes al uso de la terapia descrita por el Dr. Castillo-Morales (6,17,18) sugieren que el uso de placas palatinas puede ser una opción de tratamiento eficaz y no invasivo para mejorar la función orofacial en pacientes con DS. Sin embargo, los resultados no son uniformes entre los estudios, y algunos de ellos sólo informan de efectos modestos o no significativos (6,18). Hay varias razones posibles por las que los estudios han producido resultados contradictorios. Uno de los más importantes es la diferencia en el diseño y método de evaluación de cada estudio o el uso de métodos de evaluación subjetivos, como la observación clínica, la valoración a través de la grabación de un video o un cuestionario para los padres/tutores. Además, también se deben tener en cuenta las diferencias en la duración y la intensidad del tratamiento con la PPM, así como las diferencias en la edad y la discapacidad entre los participantes en los diferentes estudios incluidos en el trabajo. Aunque los resultados de la investigación varían, se puede considerar que la terapia con la PPM combinada con la terapia miofuncional descrita por el Dr. Castillo-Morales, puede considerarse que tiene un efecto positivo en la postura y en la posición labial en pacientes pediátricos con síndrome de Down.

Protrusión y posición lingual

En cuanto a la protrusión y posición lingual, son varios los autores que con anterioridad han informado que los pacientes pediátricos con síndrome de Down tienen una tendencia a mantener la lengua protruida y/o en una posición baja en la boca, lo que puede afectar la fonación y la deglución. Los estudios de Svensson y cols. (6), Vivar Vergara y cols. (18) y Chad y cols. (17), han informado que el uso de dispositivos orales como la PPM junto con una terapia miofuncional mejoró significativamente la posición y la función de la lengua en los niños con DS. Sin embargo, en todos los casos en la literatura se recomienda la inserción de la placa lo antes posible para que se produzcan cambios durante el desarrollo neuromuscular del niño.

Postura y tonicidad labial

En general, la mayoría de los estudios han demostrado que la colocación de la PPM combinada con la terapia miofuncional según el Dr. Castillo-Morales tiene un efecto positivo en el tono de los labios y la postura en niños con DS. Sin embargo, es importante señalar que cada estudio utilizó diferentes tratamientos y enfoques, lo que puede haber influido en los resultados obtenidos. En resumen, la revisión sistemática de los 10 estudios incluidos sugiere que el uso de la placa palatina de Castillo-Morales en pacientes con DS, proporciona beneficios clínicos significativos en el desarrollo orofacial, incluyendo mejoras en la función oral, la articulación y la comunicación. Estos resultados pueden ser útiles para mejorar la calidad de vida de los pacientes con síndrome de Down y para informar a los profesionales sobre la eficacia de este método de tratamiento de la disfunción orofacial en pacientes con DS. A pesar de las limitaciones existentes, es importante matizar que los resultados obtenidos hacen pensar en una válida alternativa de tratamiento de pacientes con DS, sin embargo, destaca la necesidad de más estudios y de más investigación futura en lo que se refiere a los conocimientos y actitudes de los odontopediatras respecto al tratamiento de pacientes con necesidades especiales.

Bibliografía

- (1) Mubayrik AB. The Dental Needs and Treatment of Patients with Down Syndrome. *Dent Clin North Am.* 2016 Jul;60(3):613–26.
- (2) Goenharto S. Orthodontic treatment considerations in Down syndrome patients. Vol. 45, *Dental Journal (Majalah Kedokteran Gigi)*. 2012. p. 6.
- (3) Al-Shawaf R, Al-Faleh W. Craniofacial characteristics in Saudi Down's syndrome. Vol. 2, *King Saud University Journal of Dental Sciences*. 2011. p. 17–22.
- (4) van Marrewijk DJF, van Stiphout MAE, Reuland-Bosma W, Bronkhorst EM, Ongkosuwito EM. The relationship between craniofacial development and hypodontia in patients with Down syndrome. *Eur J Orthod.* 2016 Apr;38(2):178–83.
- (5) Abeleira Pazos M, Limeres Posse J, Outumuro Rial M. Ortodoncia y ortopedia dentofacial en el síndrome de Down. *Santiago de Compostela Universidad de Santiago de Compostela, Facultad de Medicina y Odontología*; 2018. 20-24, 64-69, 118-122 p.
- (6) Svensson H, Eriksson I. Oral motor therapy with palatal plates in children with Down syndrome - A systematic review. *Malmö University, Faculty of Odontology*; 2017

- (7) Hohoff A, Ehmer U. Short-term and long-term results after early treatment with the castillo morales stimulating plate. Vol. 60, *Journal of Orofacial Orthopedics / Fortschritte der Kieferorthopädie*. 1999. p. 2–12.
- (8) Schuster G, Giese R. Retrospective clinical investigation of the impact of early treatment of children with Down's syndrome according to Castillo-Morales. *J Orofac Orthop*. 2001 Jul;62(4):255–63.
- (9) Zavaglia V, Nori A, Mansour NM. Long term effects of the palatal plate therapy for the orofacial regulation in children with Down syndrome. *J Clin Pediatr Dent*. 2003 Autumn;28(1):89–93.
- (10) Furlan RMMM, Furlan RMM, Almeida TDD, Pretti H. Effects of using the stimulating palatal plate in combination with orofacial stimulation on the habitual tongue and lip posture in children with trisomy 21: an integrative literature review. Vol. 24, *Revista CEFAC*. 2022.
- (11) Limbrock GJ, Castillo-Morales R, Hoyer H, Stöver B, Onufer CN. The Castillo-Morales approach to orofacial pathology in Down syndrome. *Int J Orofacial Myology*. 1993 Nov;19:30–7.
- (12) Korbmacher H, Moeller HC, Klocke A, Limbrock J, Kahl-Nieke B. Cephalometric evaluation of children with Down syndrome after early intervention with the stimulating plate. *Spec Care Dentist*. 2005 Sep-Oct;25(5):253–9.
- (13) Korbmacher H, Limbrock J, Kahl-Nieke B. Long-term evaluation of orofacial function in children with Down syndrome after treatment with a stimulating plate according to Castillo Morales. Vol. 30, *Journal of Clinical Pediatric Dentistry*. 2006. p. 325–8.
- (14) Korbmacher H, Limbrock J, Kahl-Nieke B. Orofacial Development in Children with Down Syndrome 12 Years after Early Intervention with a Stimulating Plate. Vol. 65, *Journal of Orofacial Orthopedics/Fortschritte der Kieferorthopädie*. 2004. p. 60–73.
- (15) Limbrock GJ, Fischer-Brandies H, Avalle C. Castillo-Morales' orofacial therapy: treatment of 67 children with Down syndrome. *Dev Med Child Neurol*. 1991 Apr;33(4):296–303.
- (16) Carneiro VL, González Sulcahuaman JA, Calixto Fraiz F. Utilización de la placa palatina de memoria y desarrollo orofacial en infante con Síndrome de Down. *Revista Cubana Estomatología*. 2012;49(4):305-311

- (17) Chad L. Critical Review: What are the effects of palatal plate therapy on orofacial features and speech in children with Down syndrome?. University of Western Ontario: School of Communication Sciences and Disorders. 2013
- (18) Vergara PV, Figueroa FR, Fierro Monti C. Tratamiento temprano de alteraciones orofaciales con fisioterapia y placa palatina en niños con síndrome de Down. *Odontoestomatología*. 2019;21(34).
- (19) Page MJ, McKenzie JE, Bossuyt PM, Boutron I, Hoffmann TC, Mulrow CD, et al. Declaración PRISMA 2020: una guía actualizada para la publicación de revisiones sistemáticas. *Revista Española de Cardiología*. 2021 Sep 1;74(9):790–9.
- (20) Stang A. Critical evaluation of the Newcastle-Ottawa scale for the assessment of the quality of nonrandomized studies in meta-analyses. *European Journal of Epidemiology*. 2010;25:603–5.
- (21) Landis JR, Koch GG. An application of hierarchical kappa-type statistics in the assessment of majority agreement among multiple observers. *Biometrics*. 1977 Jun;33(2):363–74.
- (22) Carlstedt K, Henningsson G, McAllister A, Dahllöf G. Long-term effects of palatal plate therapy on oral motor function in children with Down syndrome evaluated by video registration. *Acta Odontol Scand*. 2001;59(2):63–8.
- (23) Carlstedt K, Henningsson G, Dahllöf G. A four-year longitudinal study of palatal plate therapy in children with Down syndrome: effects on oral motor function, articulation and communication preferences. *Acta Odontol Scand*. 2003; 61(1):39–46.
- (24) Glatz-Noll E, Berg R. Oral dysfunction in children with Down's syndrome: an evaluation of treatment effects by means of video registration. *Eur J Orthod*. 1991;13(6):446–51.
- (25) Carlstedt K, Dahllöf G, Nilsson B, Modéer T. Effect of palatal plate therapy in children with Down syndrome. A 1-year study. *Acta Odontol Scand*. 1996;54(2):122–5.

Financiamiento: ninguno declarado.

Conflicto de interés: ninguno declarado.

Tabla 1. Características de los estudios incluidos en la presente revisión. GT: grupo test; GC: grupo control.

Autor, país, año de publicación	Participantes GT-GC (n)	Edad al principio del tratamiento (en meses)	Duración de tratamiento (en meses)	Terapia miofuncional según Castillo-Morales	Frecuencia de uso de la placa	Método de evaluación	Resultados obtenidos
K. Carlstedt Suecia, 2001	9 – 11 (n=20)	3 - 33	49 - 58	Si	1h 2 veces al día	-Valoración clínica -Grabación de video -Cuestionario a los padres/tutores	- < “Redondeo frecuente de los labios al hablar” - < “Boca abierta inactiva” y “Protrusión lingual inactiva”
K. Carlstedt Suecia, 2003	9 – 11 (n=20)	3 - 33	49 - 58	Si	1h 2 veces al día	-Valoración clínica -Prueba de evaluación del habla -Cuestionario a los padres/tutores	-Mejoras en la posición lingual -Activación de músculos del labio superior -Mejoras en el cierre labial y expresión facial
V. Zavaglia Italia, 2003	12 – 30 (n=42)	8 - 48	36	Si	1h 3 veces al día	Valoración clínica	- > Protrusión de la lengua “nunca más allá del labio inferior” -Disminución en la salivación
H. Korbmacher Alemania, 2004	20 - sin GC (n=20)	18 ± 23	11.5 ± 4	Si	1h 3 veces al día	-Valoración clínica -Cuestionario a los padres/tutores	-Mejoras en la postura bucal -Mejoras en la posición lingual
G.J. Limbrock Alemania, 1993	39 - sin GC (n=39)	< de 12	17.9	Si	3.9h al día	Valoración clínica	-Mejoras en la postura bucal -Mejoras en la posición lingual
H.M. Korbmacher Alemania, 2006	27 - sin GC (n=27)	13 ± 4	19 ± 4	Si	1h 3 veces al día	-Valoración clínica -Cuestionario a los padres/tutores	-Mejoras en la postura bucal -Mejoras en la posición lingual
G.J. Limbrock Alemania, 1991	67 - sin GC (n=67)	1 - 73	7 - 36	No	1h 3-4 veces al día	-Valoración clínica	-Mejoras en la tonicidad y postura de labios superior e inferior -Mejoras en la posición lingual espontanea -Mejoras en el cierre bucal -Mejoras en babeo y succión
A Hohoff Alemania, 1999	18 - sin GC (n=18)	6.5	9.9	No especificado	1h 4 veces al día	-Valoración clínica -Cuestionario a los padres/tutores	-Mejoras en la apariencia facial -Mejoras en la postura bucal y lingual - < “Boca casi siempre abierta” y “Lengua sobresale mucho de los labios” - > “Lengua principalmente en la cavidad bucal”
E. Glatz-Noll Alemania, 1991	24 – 19 (n=43)	2 - 144	5 - 20	Solo en 5 pacientes	1-2h 2 veces al día	Grabación de video	-Mejoras en la protrusión lingual -Normalización de la función lingual
K. Carlstedt Suecia, 1996	14 – 15 (n=29)	24 ± 6	12	Si	1h 2 veces al día	Grabación de video	- > “Cierre bucal” - < “Protrusión inactiva de la lengua”

Tabla 2. Medición del riesgo de sesgo de los estudios randomizados según la guía Cochrane

	Generar secuencia aleatorizada (sesgo selección)	Ocultación de la asignación (sesgo selección)	Cegamiento evaluación de resultados (sesgo detección)	Seguimiento y exclusiones (sesgo deserción)	Descripción selectiva (sesgo informe)	Otros sesgos
Carlstedt y cols. 2001 (38)	+	-	+	+	+	-
Carlstedt y cols. 2003 (39)	+	-	+	-	+	?
Carlstedt y cols. 1996 (41)	+	-	-	+	+	+

Tabla 3. Medición del riesgo de sesgo de los estudios observacionales no randomizados con la escala Newcastle-Ottawa – estudios observacionales con grupo control no randomizado.

	Definición de los casos	Representatividad	Selección de los controles	Definición de los controles	Comparabilidad (factor más importante)	Comparabilidad (cualquier otra variable)	Comprobación de la exposición	Mismo método para ambos grupos	Tasa de abandonos	Total
Zavaglia y cols. 2003 (24)	★	★	★	-	-	-	-	-	-	3
Glatz-Noll & Berg 1991 (40)	★	-	-	-	★	-	-	★	-	3

Tabla 4. Medición del riesgo de sesgo de los estudios observacionales no randomizados con la escala Newcastle-Ottawa – estudios observaciones cohortes no grupo control.

	Representatividad cohorte	Selección cohorte no expuesta	Comprobación exposición	Demostración no presencia variable interés al inicio	Comparabilidad (factor más importante)	Comparabilidad (otros factores)	Medición resultados	Suficiente seguimiento	Tasa de abandonos	Total
Korbmacher y cols. 2004 (29)	★	-	★	★	-	-	★	★	★	6
Limbrock y cols. 1993 (26)	★	-	★	★	-	-	★	★	-	5
Korbmacher y cols. 2006 (28)	★	-	★	★	-	-	★	★	-	5
Limbrock y cols. 1991 (30)	★	-	★	★	-	-	★	-	★	5
Hohoff & Ehmer 1999 (22)	-	-	★	★	-	-	★	★	★	5

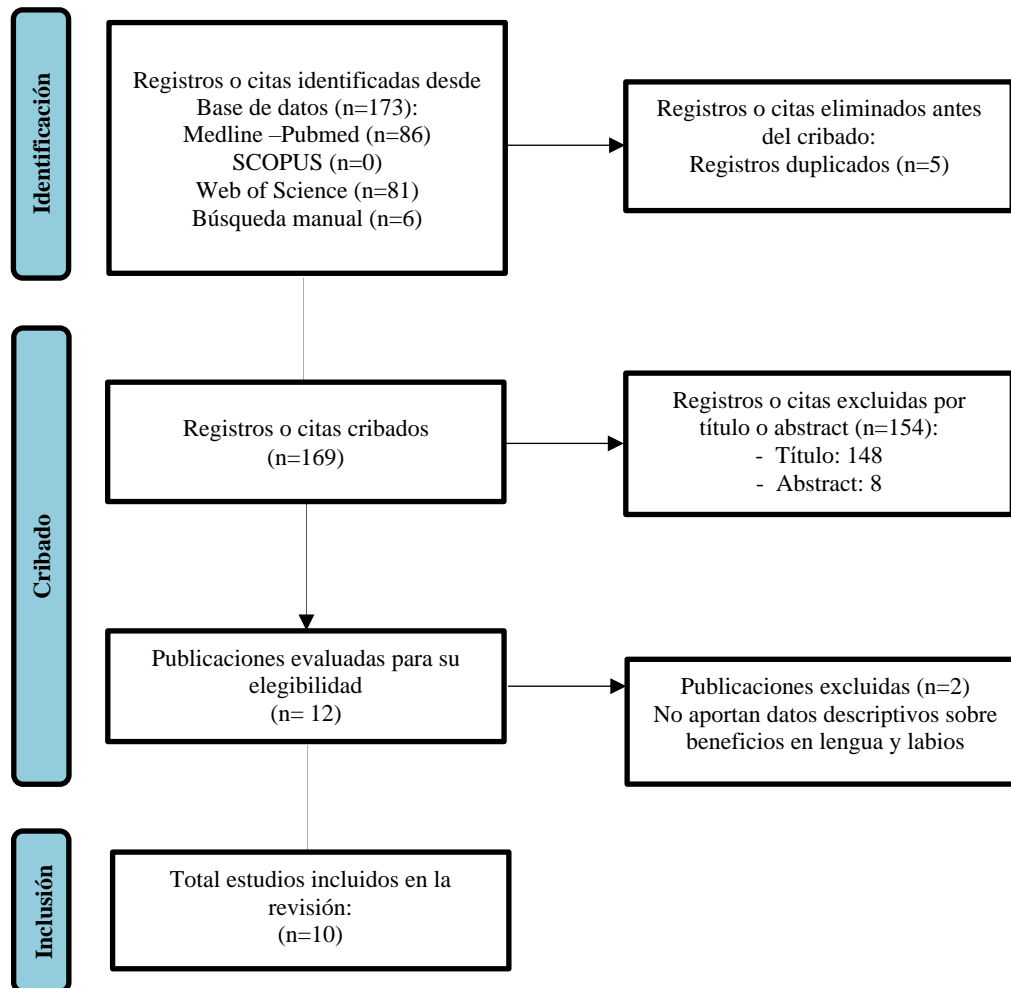


Figura 4. Diagrama de flujo de búsqueda y proceso de selección de títulos durante la revisión sistemática.

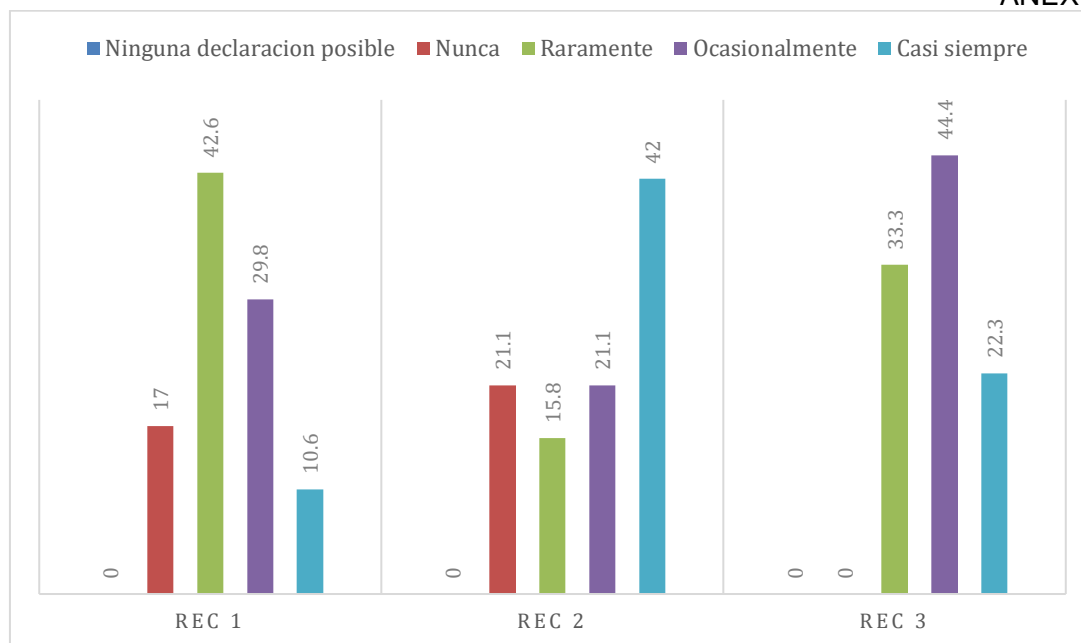


Figura 2. Resultados obtenidos de la variable “Boca cerrada”, en % de pacientes analizados, en el estudio (7).

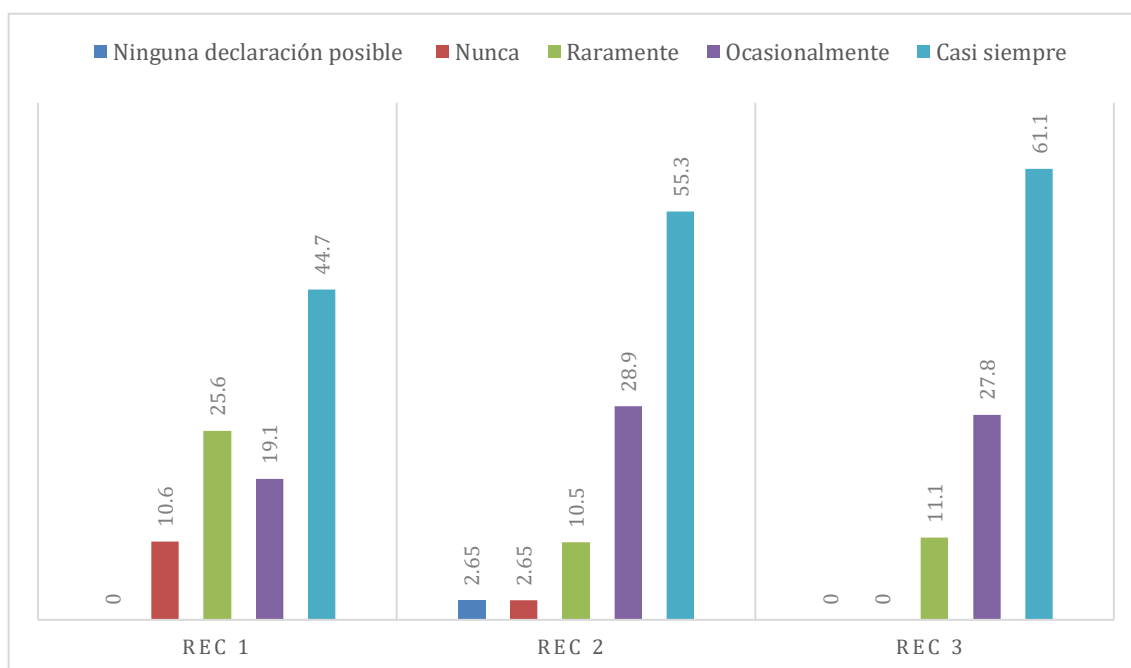


Figura 3. Resultados obtenidos de la variable “Lengua en la cavidad bucal”, en % de pacientes analizados, en el estudio (7).

**CLINICAL BENEFITS OF THE CASTILLO-MORALES PALATAL PLATE ON
THE OROFACIAL DEVELOPMENT OF PATIENTS WITH DOWN
SYNDROME: A SYSTEMATIC REVIEW**

Authors:

Bianca Quartararo¹, M^a Teresa Chofré Lorente ²

¹ 5th year student of the Dentistry degree at the European University of Valencia, Valencia, Spain.

² DDS, MSc, PhD. European University of Valencia, Valencia, Spain.

Correspondence

M^a Teresa Chofré Lorente
Paseo Alameda 7, Valencia
46010, Valencia

teresa.chofre@universidadeuropea.es

Abstract

Introduction: Patients with Down syndrome present distinctive facial features and a high prevalence of dental anomalies and malocclusions. Myofunctional orofacial stimulation therapy combines the palatal plate (PPM) with physiotherapy of the facial muscles. The PPM is a removable appliance consisting of a tongue and vestibular stimulator to modify tongue position and improve voluntary muscle movements to achieve full mouth closure. The objectives of this systematic review are based on analysing the clinical benefits generated by the orthodontic approach using the Castillo-Morales PPM in patients with Down's syndrome, by evaluating tongue positioning and estimating lip competence; and finally, to establish the physiological and functional advantages of applying the protocol described by Castillo-Morales.

Material and method: An electronic search was carried out in the databases PubMed, Scopus and Web of Science on the use of PPM according to the method of Dr. Castillo-Morales in patients with Down's syndrome until December 2022.

Results: Of 173 potentially eligible articles, 10 met the inclusion criteria. Analysing buccal closure, significant efficacy was found after PPM placement. In addition, it was found that participants with worse degrees of malocclusion had more effective and faster results. In terms of lingual protrusion and position, the best results were found in those whose lingual protrusion was more prominent. Finally, some authors analysed posture and lip tone, with almost all patients treated with PPM responding favourably, without achieving total normality.

Conclusion: Despite the limitations, the therapy seems to be effective, providing clinical benefits in mouth closure, protrusion and position of the tongue and lip tone.

Key words: *Down syndrome, Castillo-Morales, Palatal plate, Myofunctional therapy, Open bite, Tongue protrusion, Oral hypotonia.*

Introduction

Down syndrome (DS) or "trisomy 21" is a congenital disorder characterised by physical and mental impairment, which originates when abnormal cell division produces an extra copy of chromosome 21 (1-3). The prevalence of dental malocclusions in patients with DS is 74%, in general they suffer from severe malocclusions and of skeletal origin, which causes a greater impairment of function compared to the non-DS population (2,4). The myofunctional therapy concept of orofacial stimulation was developed in the 1970s by the Argentinian physiotherapist Rodolfo Castillo-Morales. This programme combined the intraoral device, called palatal plate (PPM), together with physiotherapy of the facial muscles (5,6,7-17). The goals of PPM are to modify tongue position and improve voluntary movements by acting on the lip muscles to seal the mouth and reduce saliva production, with the primary aim of improving facial appearance and preventing secondary orofacial pathologies associated with tongue dysfunction (12). There are several published systematic reviews on Dr Castillo-Morales' therapeutic approach in patients with DS. However, the present systematic review has focused on evaluating the benefits on orofacial development in patients with Down syndrome, looking specifically at mouth closure and tongue retrusion and position. The aim of this review was to systematically answer the following question: What clinical benefits in orofacial development does the Castillo-Morales' palatal plate orthodontic approach offer in patients with Down syndrome? For this purpose, firstly, mouth closure and spontaneous protrusion of the tongue and its position and, secondly, lip tonicity were evaluated.

Material and methods

The present systematic review was conducted following the PRISMA (Preferred Reporting Items for Systematic reviews and Meta-Analyses) guideline statement (19).

- PIO question:

The question format was set up according to the structured PIO question:

P (population): Patients with Down syndrome.

I (intervention): Orthodontic approach using Castillo-Morales' palatal plate.

O (outcome): Clinical benefits in orofacial development.

O1: Buccal closure;

O2: Spontaneous tongue protrusion;

O3: Tongue position;

O4: Upper lip tone.

- Eligibility criteria

Inclusion criteria were:

⇒ Study Type: experimental studies: randomised controlled clinical trials, retrospective cohort studies, longitudinal studies, and case series; studies on human individuals, studies with a follow-up of any duration; Publications in English, Spanish or Italian with no restriction on the year of publication; Published until December 2022.

⇒ Patient Type: Studies on Down syndrome patients with phenotypic morphological characteristics suitable for treatment with PPM, with no restriction on sample size.

⇒ Type of Intervention: compliance with Dr. Castillo-Morales' protocol, use of the palatal plate together with orofacial physiotherapy.

⇒ Type of Outcome Variables: Studies that provided data related to clinical benefits in orofacial development as the primary variable. And as secondary variables: mouth closure, spontaneous tongue protrusion, tongue position and upper lip tone.

As for exclusion criteria, the following were excluded: reviews, meta-analyses, experimental studies in vitro and in animals, expert reports, comments, or letters to the editor. In addition, studies that did not contribute to the achievement of our objectives were excluded. No year of publication restrictions were imposed. When necessary, authors were contacted to clarify missing information.

- Study selection process:

A three-stage selection process was conducted. The selection of studies was carried out by two reviewers (BQ, MTCHL). The first stage was filtered by titles in order to eliminate irrelevant publications. In the second stage we screened by abstracts and selected according to study type, type of device used, type of intervention, number of patients, and outcome variables. Studies without sufficient information or with unstructured abstracts to determine exclusion were considered for full-text assessment. In the third stage, we filtered by reading the full text and proceeded to data extraction using a previously developed data collection form to confirm study eligibility. Disagreements between reviewers were resolved by discussion and, where necessary, a third reviewer (BL) was consulted. The degree of agreement regarding the inclusion of potential studies was calculated by k-statistics (Cohen kappa test) for the second and third screening stages.

- Data extraction:

Articles included in the present study were entered into Excel spreadsheets to allow data extraction and comparison. Factors related to the article were included, such as: authors, year of publication, type of study and number of patients; as well as factors related to the intervention such as mouth closure, spontaneous tongue protrusion, tongue position and upper lip tone. After a detailed reading of the articles included in the study, a list of variables present in all of them were selected which contributed and provided information for a better understanding of the benefits obtained after the application of the protocol described by Castillo-Morales.

- Quality assessment:

The assessment of the risk of bias was evaluated by two reviewers (BQ, MTCHL) with the aim of analysing the methodological quality of the included articles. Two different tools were used to assess the quality of the randomised controlled clinical studies: the Cochrane 5.1.0 guide for clinical trials and the CASPe guide for cohort studies. Among the publications, those meeting all criteria were considered to be at "low risk of bias", those not meeting one or more criteria were considered to be at "high risk of bias", and studies with missing information or uncertainty about possible bias were considered to be

of "uncertain bias". The Newcastle-Ottawa scale (20) was used to measure the quality of non-randomised observational studies, with "low risk of bias" for a score >6 stars and "high risk of bias" for a score ≤ 6 stars. Finally, Cohen's kappa test, following the scale proposed by Landis and Koch, was used to obtain the degree of inter-examiner agreement for the assessment of methodological quality (21).

- Data synthesis

To summarise and compare outcome variables across studies, the means of the primary variables were pooled by study group. For all outcome variables analysed, it was necessary to calculate the weighted mean since each study came from samples with different numbers of patients, in order to obtain more representative results. Therefore, the number of patients in each study was divided by the total number of patients in all studies and multiplied by the mean value reported by each study, repeating the same procedure for all variables studied.

Results:

- Study selection.

A total of 167 articles were obtained from the initial search process: Medline - PubMed (n=86), SCOPUS (n=0) and Web of Science (n=81). In addition, 6 additional studies were obtained through handsearching (reference list and primary sources). Of these, 12 were identified as potentially eligible articles by screening by titles and abstracts. Full-text articles were subsequently obtained and thoroughly evaluated. As a result, 10 articles met the inclusion criteria and were included in the present systematic review (Fig. 1).

- Analysis of the characteristics of the reviewed studies

The 10 articles included in the present review describe variables related to tongue position and/or protrusion and mouth closure (7,9,11,13-15,22-25), 4 analysed lip function (9,15,22,23) and 2 studied benefits related to the face (7,23). 3 articles were randomised controlled clinical trials (22,23,25), 4 were prospective studies (9,11,15,24) and 3 were retrospective (7,13,14). In the randomised studies the patient was the unit of randomisation. Out of a total of 325 patients treated: 86 were treated with PPM, 67

patients were treated with myofunctional therapy according to the Castillo-Morales method, 153 with both interventions and in the remaining 19 patients no treatment was applied. In all studies, the sample number ranged from 18 to 67 patients with a mean age at the start of the study between 1 month and 12 years. Regarding the frequency of PPM use, in all the articles reviewed, the authors recommend using the plate for at least 2 hours per day. In 3 of the studies, 1 hour twice a day is recommended (22,23,25); in 3 of the studies, on the other hand, 1 hour 3 times a day is recommended (9,13,14) and in the remaining 4, the authors recommend a daily use of the device between 3 and 4 hours a day (7,11,15,24). In no case does the use of the plate exceed 4 hours per day, thus avoiding the risk of foreign body habituation by the patients and not triggering Weiffenbach's reflex. The evaluation and assessment of the effects of PPM treatment were carried out by speech therapists in 3 studies (22,23,25); in another study, they were evaluated by speech therapists, physiotherapists, otolaryngologists and psychologists (9), while in 2 studies the evolution of the treatment was carried out by a neuropaediatrician (11,13-15). Treatment effect was assessed by clinical assessment in 8 of the studies, (7,9,11,13-15,22,23) video recording in 3 (22,24,24) and parent/guardian questionnaire in 5 studies (7,13,14,22,23). Only in 1 study was the speech assessment test added to measure treatment effects (23) (Table 1).

- Assessment of methodological quality and risk of bias

For randomised studies, a high risk of bias was considered in all 3 studies (Table 2). For the non-randomised observational studies, 1 was considered at low risk of bias and 6 at high risk of bias (Tables 3 and 4). Selection bias (allocation concealment) was the item of highest risk of bias in the randomised controlled trials. The k-value (Cohen kappa test) for inter-reviewer agreement on methodological quality was 97.4% according to the Landis & Koch scale (21).

- Summary of results

Mouth closure

In relation to buccal closure, two studies were conducted using video recordings (25,28). In the first study, the duration of mouth closure increased from 1.5 % at baseline to 29.7

% after one year of treatment. After four years of treatment, the difference was much smaller and reached 24.7%. Four studies were conducted based on extraoral and intraoral clinical examination. In the first study (14), an improvement in buccal closure was observed in 75% of the children and did not change in 10% after one year of treatment. In another study by the same authors (13), after an average of 12.9 years, mouth closure improved in 55 %, remained unchanged in 40 % and increased in 5 %. In group III, a 100 % success rate was recorded, in group II, 25 %. In addition, an improvement in buccal closure was observed in two clinical studies (11,15). At the beginning of the treatment, 17 patients had a "very open" condition and 22 had a "slightly" open condition. 65% of participants in the first group improved to the level of the second group and 35% achieved complete closure of the mouth. In the second group, 82% showed a closed mouth at the end of treatment and 18% did not change. Both groups showed a one-degree improvement in 74% of cases and a two-degree improvement in 15.4%. Finally, one study examined mouth closure using parent/caregiver questionnaires and clinical observations (7). At the start of treatment, 10.6 children were recorded with their mouths closed "almost always". However, after four months of treatment, this number increased to 42, representing a 4-fold increase. After 53 months, a value of 22.3 was reported. At the same time, the number of patients with "rarely" closed mouth (from 15.8 to 33.3) and "occasionally" closed mouth (from 21.1 to 44.4) increased (Fig. 2).

Protrusion and tongue position

In relation to protrusion and tongue position, 3 studies assessed by video recording. In the first article (24), the variable was measured before the PPM placement, which was found to be 144.8 seconds, decreased after 1 year of treatment to 49.3 seconds. In the second article (25) the inactive tongue protrusion before starting treatment was approximately 27.9 seconds of recording time and decreased after 9 months to 0.4 seconds. After 4 years, the same authors (22) reassessed the variable and the follow-up results showed that the inactive tongue protrusion time was 3.9% lower. A final study was carried out by the same authors (23) in which tongue position was assessed. The results showed that almost 55% of the children in the group treated with PPM showed an improvement. Six studies assessed protrusion and tongue position by extra- and intraoral examination. In the first article (9), after a variable period of treatment with PPM, the condition of the patients was

positively modified: tongue protrusion never went beyond the lower lip in 9 of the 12 patients and occasionally beyond the lower lip in 3. The authors of the second article (14) analysed the changes before treatment and after one year and found that 65% of the children showed an improved tongue position, and 20% an unchanged tongue position. The same authors (13) reassessed tongue position after an average of 12.9 years, which improved in 20%, remained unchanged in 60% and deteriorated in 5%. Thus, from the beginning of the treatment, tongue position improved in 75% of the children and remained unchanged in 25%. The following study assessed tongue position and protrusion by means of a parent/guardian questionnaire, and subsequent clinical observation (7) before treatment, after a mean of 4 months and after a mean of 53 months. At the start of treatment, it was observed that there were 19.1 children whose tongue was occasionally placed outside the lower lip. However, after 53 months of treatment, this number increased to 27.8. An improvement was observed in the parameter "tongue rarely out of the lower lip" from a value of 25.6 before treatment to 10.5 after 4 months. However, the results did not remain stable until 53 months, where a value of 11.1 was recorded. On the other hand, the number of children whose tongue was almost always in the oral cavity increased throughout treatment, 44.7 before placement, 55.4 after 4 months and reaching the highest value of 61.1 after 53 months of treatment. In addition, a decrease in the number of children whose tongue was "never" in the oral cavity was observed, from 10.6 before treatment to 0 at 53 months. Finally, analysing the information provided through the questionnaire, the authors found that tongue posture improved in 76.3% of patients during the entire treatment (Fig. 3). By clinical examination, improvements were also observed in 2 studies (15) which included 39 children and used a particular Fisher-Brandies scale that differentiates six types, ranging from a situation where the tongue is well held in the oral cavity to a tongue protrusion strongly outside the lower lip. Tongue position improved in 33 children by at least two degrees and in 9 by one degree. The other study was achieved by the same authors (11) who re-evaluated the patients 18 months after PPM placement by dividing the patients into 2 subgroups. The first group placed the tongue in an interlabial position and the second in an interalveolar position. 50% of the patients in the first group improved two degrees and 46% improved one degree, while 85% of the second group retracted the tongue into the mouth and 15% showed no change.

Both groups respectively showed an improvement of one degree in 59% and two degrees in 33%.

Lip posture and lip tone

Regarding the present variable, the first study (15) assessed lip tonicity in 67 children and found the presence of strongly hypotonic lips in 18 of them. 88.8% responded to treatment with PPM, but never achieved full normality. The last 2 studies assessed lip posture by video recording. In the first one (22), after extraoral examination, the researchers analysed the presence of the variable "lip rounding during speech" in 90% of patients. In the second (23) it was estimated that 90% had a short upper lip, however, 90% had an active upper lip, and there were 77% with activity also in the lower lip.

Discussion

The lack of randomised studies made it impossible to perform a meta-analysis, so the results were shown descriptively.

Buccal closure

These results are consistent with those found in other systematic reviews of the literature. Svensson et al. (6), Vivar Vergara et al. (18), and Chad et al. (17) found that the use of therapeutic devices such as the PPM in combination with myofunctional therapy significantly improved the ability of children with Down syndrome to maintain lip seal. In addition, the authors of the systematic reviews inherent in the use of the therapy described by Dr Castillo-Morales (6,17,18) suggest that the use of palatal plates may be an effective and non-invasive treatment option to improve orofacial function in patients with DS. However, results are not uniform across studies, with some studies reporting only modest or non-significant effects (6,18). There are several possible reasons why studies have produced conflicting results. One of the most important is the difference in the design and assessment method of each study or the use of subjective assessment methods, such as clinical observation, assessment through video recordings or a parent/guardian questionnaire. In addition, differences in the duration and intensity of treatment with PPM, as well as differences in age and disability among participants in the

different studies included in the paper should also be taken into account. Although research results vary, it can be considered that the PPM combined with the myofunctional therapy described by Dr. Castillo-Morales can be considered to have positive effects on posture and lip position in paediatric patients with Down's syndrome.

Protrusion and tongue position

Regarding protrusion and tongue position, several authors have previously reported that paediatric patients with Down's syndrome have a tendency to keep the tongue protruded and/or in a low position in the mouth, which may affect phonation and swallowing. Studies by Svensson et al (6), Vivar Vergara et al (18) and Chad et al (17) have reported that the use of oral devices such as the PPM together with myofunctional therapy significantly improved tongue position and function in children with DS. However, in all cases in the literature it is recommended to insert the plate as early as possible to allow changes to occur during the child's neuromuscular development.

Lip posture and lip tone

Overall, most studies have shown that PPM placement combined with myofunctional therapy according to Dr Castillo-Morales has a positive effect on lip tone and posture in children with DS. However, it is important to note that each study used different treatments and approaches, which may have influenced the results obtained. In summary, the systematic review of the 10 included studies suggests that the use of the Castillo-Morales palatal plate in patients with DS provides significant clinical benefits in orofacial development, including improvements in oral function, articulation and communication. These results may be useful to improve the quality of life of patients with Down syndrome and to inform professionals about the efficacy of this method of treating orofacial dysfunction in patients with DS. Despite the existing limitations, it is important to note that the results obtained suggest that this is a valid alternative for the treatment of patients with DS, however, it highlights the need for further studies and future research into the knowledge and attitudes of paediatric dentists with regard to the treatment of patients with special needs.

Bibliography:

- (1) Mubayrik AB. The Dental Needs and Treatment of Patients with Down Syndrome. *Dent Clin North Am.* 2016 Jul;60(3):613–26.
- (2) Goenharto S. Orthodontic treatment considerations in Down syndrome patients. Vol. 45, *Dental Journal (Majalah Kedokteran Gigi)*. 2012. p. 6.
- (3) Al-Shawaf R, Al-Faleh W. Craniofacial characteristics in Saudi Down's syndrome. Vol. 2, *King Saud University Journal of Dental Sciences*. 2011. p. 17–22.
- (4) van Marrewijk DJF, van Stiphout MAE, Reuland-Bosma W, Bronkhorst EM, Ongkosuwito EM. The relationship between craniofacial development and hypodontia in patients with Down syndrome. *Eur J Orthod.* 2016 Apr;38(2):178–83.
- (5) Abeleira Pazos M, Limeres Posse J, Outumuro Rial M. Ortodoncia y ortopedia dentofacial en el síndrome de Down. *Santiago de Compostela Universidad de Santiago de Compostela, Facultad de Medicina y Odontología*; 2018. 20-24, 64-69, 118-122 p.
- (6) Svensson H, Eriksson I. Oral motor therapy with palatal plates in children with Down syndrome - A systematic review. *Malmö University, Faculty of Odontology*; 2017
- (7) Hohoff A, Ehmer U. Short-term and long-term results after early treatment with the castillo morales stimulating plate. Vol. 60, *Journal of Orofacial Orthopedics / Fortschritte der Kieferorthopädie*. 1999. p. 2–12.
- (8) Schuster G, Giese R. Retrospective clinical investigation of the impact of early treatment of children with Down's syndrome according to Castillo-Morales. *J Orofac Orthop.* 2001 Jul;62(4):255–63.
- (9) Zavaglia V, Nori A, Mansour NM. Long term effects of the palatal plate therapy for the orofacial regulation in children with Down syndrome. *J Clin Pediatr Dent.* 2003 Autumn;28(1):89–93.
- (10) Furlan RMMM, Furlan RMM, Almeida TDD, Pretti H. Effects of using the stimulating palatal plate in combination with orofacial stimulation on the habitual tongue and lip posture in children with trisomy 21: an integrative literature review. Vol. 24, *Revista CEFAC*. 2022.
- (11) Limbrock GJ, Castillo-Morales R, Hoyer H, Stöver B, Onufer CN. The Castillo-Morales approach to orofacial pathology in Down syndrome. *Int J Orofacial Myology.* 1993 Nov;19:30–7.

- (12) Korbmacher H, Moeller HC, Klocke A, Limbrock J, Kahl-Nieke B. Cephalometric evaluation of children with Down syndrome after early intervention with the stimulating plate. *Spec Care Dentist*. 2005 Sep-Oct;25(5):253–9.
- (13) Korbmacher H, Limbrock J, Kahl-Nieke B. Long-term evaluation of orofacial function in children with Down syndrome after treatment with a stimulating plate according to Castillo Morales. Vol. 30, *Journal of Clinical Pediatric Dentistry*. 2006. p. 325–8.
- (14) Korbmacher H, Limbrock J, Kahl-Nieke B. Orofacial Development in Children with Down Syndrome 12 Years after Early Intervention with a Stimulating Plate. Vol. 65, *Journal of Orofacial Orthopedics/Fortschritte der Kieferorthopadie*. 2004. p. 60–73.
- (15) Limbrock GJ, Fischer-Brandies H, Avalle C. Castillo-Morales' orofacial therapy: treatment of 67 children with Down syndrome. *Dev Med Child Neurol*. 1991 Apr;33(4):296–303.
- (16) Carneiro VL, González Sulcahuaman JA, Calixto Fraiz F. Utilización de la placa palatina de memoria y desarrollo orofacial en infante con Síndrome de Down. *Revista Cubana Estomatología*. 2012;49(4):305-311
- (17) Chad L. Critical Review: What are the effects of palatal plate therapy on orofacial features and speech in children with Down syndrome?. University of Western Ontario: School of Communication Sciences and Disorders. 2013
- (18) Vergara PV, Figueroa FR, Fierro Monti C. Tratamiento temprano de alteraciones orofaciales con fisioterapia y placa palatina en niños con síndrome de Down. *Odontoestomatología*. 2019;21(34).
- (19) Page MJ, McKenzie JE, Bossuyt PM, Boutron I, Hoffmann TC, Mulrow CD, et al. Declaración PRISMA 2020: una guía actualizada para la publicación de revisiones sistemáticas. *Revista Española de Cardiología*. 2021 Sep 1;74(9):790–9.
- (20) Stang A. Critical evaluation of the Newcastle-Ottawa scale for the assessment of the quality of nonrandomized studies in meta-analyses. *European Journal of Epidemiology*. 2010;25:603–5.
- (21) Landis JR, Koch GG. An application of hierarchical kappa-type statistics in the assessment of majority agreement among multiple observers. *Biometrics*. 1977 Jun;33(2):363–74.

- (22) Carlstedt K, Henningsson G, McAllister A, Dahllöf G. Long-term effects of palatal plate therapy on oral motor function in children with Down syndrome evaluated by video registration. *Acta Odontol Scand.* 2001;59(2):63–8.
- (23) Carlstedt K, Henningsson G, Dahllöf G. A four-year longitudinal study of palatal plate therapy in children with Down syndrome: effects on oral motor function, articulation and communication preferences. *Acta Odontol Scand.* 2003; 61(1):39–46.
- (24) Glatz-Noll E, Berg R. Oral dysfunction in children with Down's syndrome: an evaluation of treatment effects by means of video registration. *Eur J Orthod.* 1991;13(6):446–51.
- (25) Carlstedt K, Dahllöf G, Nilsson B, Modéer T. Effect of palatal plate therapy in children with Down syndrome. A 1-year study. *Acta Odontol Scand.* 1996;54(2):122–5.

Funding: none declared.

Conflict of interest: none declared.

Table 1. Characteristics of the studies included in this review. GT: test group; CG: control group.

Author, country, year of publication	Participants GT-GC (n)	Age at the start of the treatment (in months)	Duration of the treatment (in months)	Myofunctional therapy according to Castillo-Morales	Frequency of use of the plate	Evaluation method	Results obtained
K. Carlstedt Sweden, 2001	9 – 11 (n=20)	3 - 33	49 - 58	Yes	1h 2 times a day	-Clinical evaluation -Video recording -Parents/caregivers questionnaire	- < "Frequent rounding of the lips when speaking". - < "Inactive open mouth" and "Inactive tongue protrusion".
K. Carlstedt Sweden, 2003	9 – 11 (n=20)	3 - 33	49 - 58	Yes	1h 2 times a day	-Clinical evaluation -Speech assessment test - Parents/caregivers questionnaire	- Improved tongue position -Activation of upper lip muscles -Improvements in lip closure and facial expression
V. Zavaglia Italy, 2003	12 – 30 (n=42)	8 - 48	36	Yes	1h 3 times a day	Clinical evaluation	- Protrusion of the tongue "never beyond the lower lip". -Decreased salivation
H. Korbmacher Germany, 2004	20 - without GC (n=20)	18 ± 23	11.5 ± 4	Yes	1h 3 times a day	- Clinical evaluation - Parents/caregivers questionnaire	-Improvements in oral posture -Improvements in tongue position
G.J. Limbrock Germany, 1993	39 - without GC (n=39)	< de 12	17.9	Yes	3.9h a day	Clinical evaluation	-Improvements in oral posture -Improvements in tongue position
H.M. Korbmacher Germany, 2006	27 - without GC (n=27)	13 ± 4	19 ± 4	Yes	1h 3 times a day	- Clinical evaluation - Parents/caregivers questionnaire	-Improvements in oral posture -Improvements in tongue position
G.J. Limbrock Germany, 1991	67 - without GC (n=67)	1 - 73	7 - 36	No	1h 3-4 times a day	- Clinical evaluation	- Improvements in the tone and posture of the upper and lower lips. -Improvements in spontaneous tongue position -Improvements in mouth closure -Improvements in drooling and sucking
A Hohoff Germany, 1999	18 - without GC (n=18)	6.5	9.9	Not specified	1h 4 times a day	- Clinical evaluation - Parents/caregivers questionnaire	-Improvements in facial appearance -Improvements in mouth and tongue posture. - < "Mouth almost always open" and "Tongue protrudes too far from the lips". - > "Tongue mainly in the buccal cavity"
E. Glatz-Noll Germany, 1991	24 – 19 (n=43)	2 - 144	5 - 20	Only in 5 patients	1-2h 2 times a day	Video recording	-Improvements in lingual protrusion -Normalisation of tongue function
K. Carlstedt Sweden, 1996	14 – 15 (n=29)	24 ± 6	12	Yes	1h 2 times a day	Video recording	- > "Mouth closure" - < "Inactive tongue protrusion"

Table 2. Measurement of risk of bias of randomised studies according to the Cochrane guidelines.

	Generate randomised sequence (selection bias)	Allocation concealment (selection bias)	Blinding outcome assessment (detection bias)	Follow-up and exclusions (attrition bias)	Selective description (reporting bias)	Other biases
Carlstedt et al. 2001 (38)	+	-	+	+	+	-
Carlstedt et al. 2003 (39)	+	-	+	-	+	?
Carlstedt et al. 1996 (41)	+	-	-	+	+	+

Table 3. Measurement of risk of bias of non-randomised observational studies with the Newcastle-Ottawa scale - observational studies with non-randomised control group.

	Definition of cases	Representativeness	Selection of controls	Definition of controls	Comparability (most important factor)	Comparability (any other variable)	Exposure testing	Same method for both groups	Dropout rate	Total
Zavaglia et al. 2003 (24)	★	★	★	-	-	-	-	-	-	3
Glatz-Noll & Berg 1991 (40)	★	-	-	-	★	-	-	★	-	3

Table 4. Measurement of risk of bias of non-randomised observational studies with the Newcastle-Ottawa scale - observational cohort studies with no control group.

	Representativeness of cohort	Selection of unexposed cohort	Verification of exposure	Demonstration of non-presence of variable of interest at baseline	Comparability (most important factor)	Comparability (other factors)	Measurement of outcomes	Sufficient follow-up	Drop-out rate	Total
Korbmacher et al. 2004 (29)	★	-	★	★	-	-	★	★	★	6
Limbrock et al. 1993 (26)	★	-	★	★	-	-	★	★	-	5
Korbmacher et al. 2006 (28)	★	-	★	★	-	-	★	★	-	5
Limbrock et al. 1991 (30)	★	-	★	★	-	-	★	-	★	5
Hohoff & Ehmer 1999 (22)	-	-	★	★	-	-	★	★	★	5

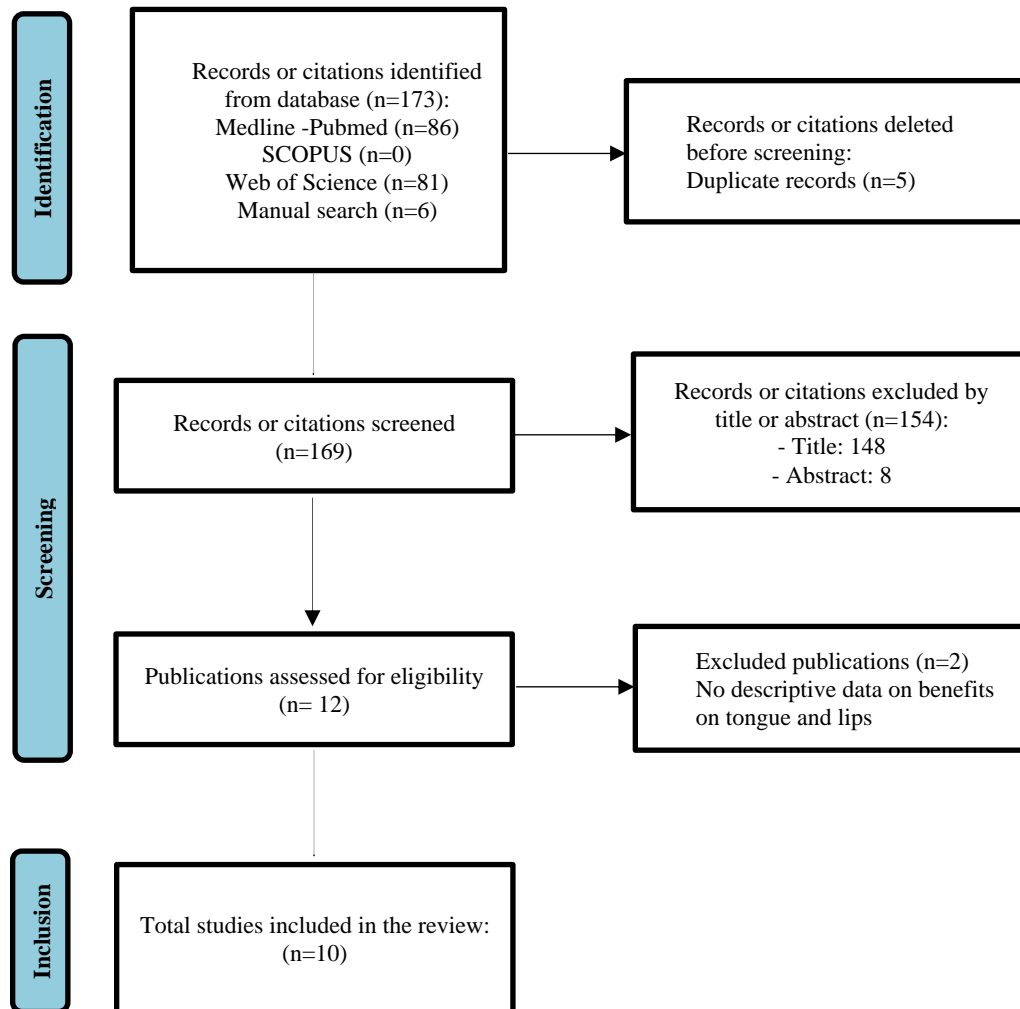


Fig. 1. Search flow diagram and title selection process during the systematic review.

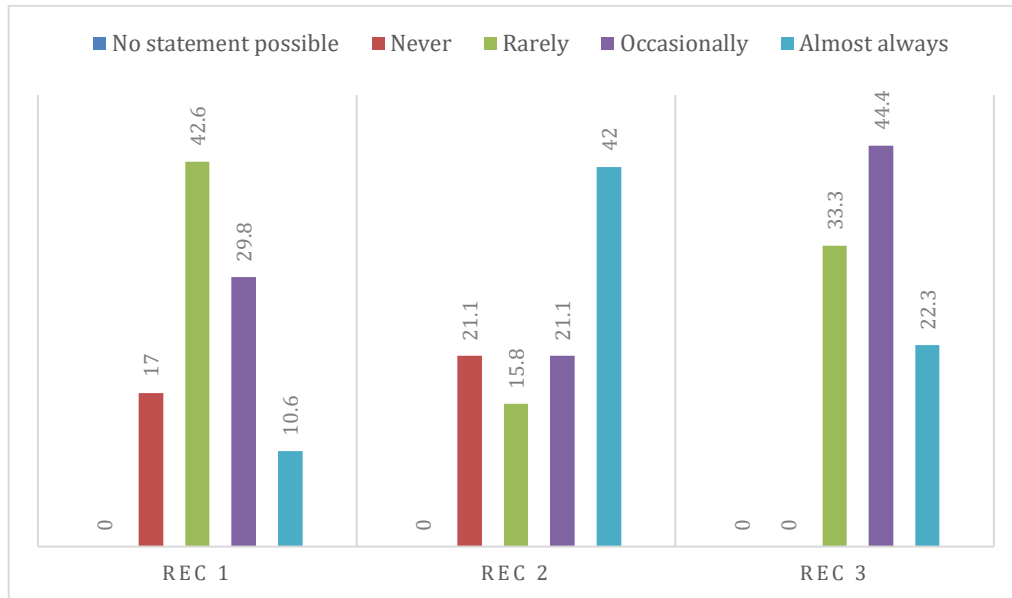


Figure 2. Results obtained for the variable "Closed mouth", in % of patients analysed, in the study (7).

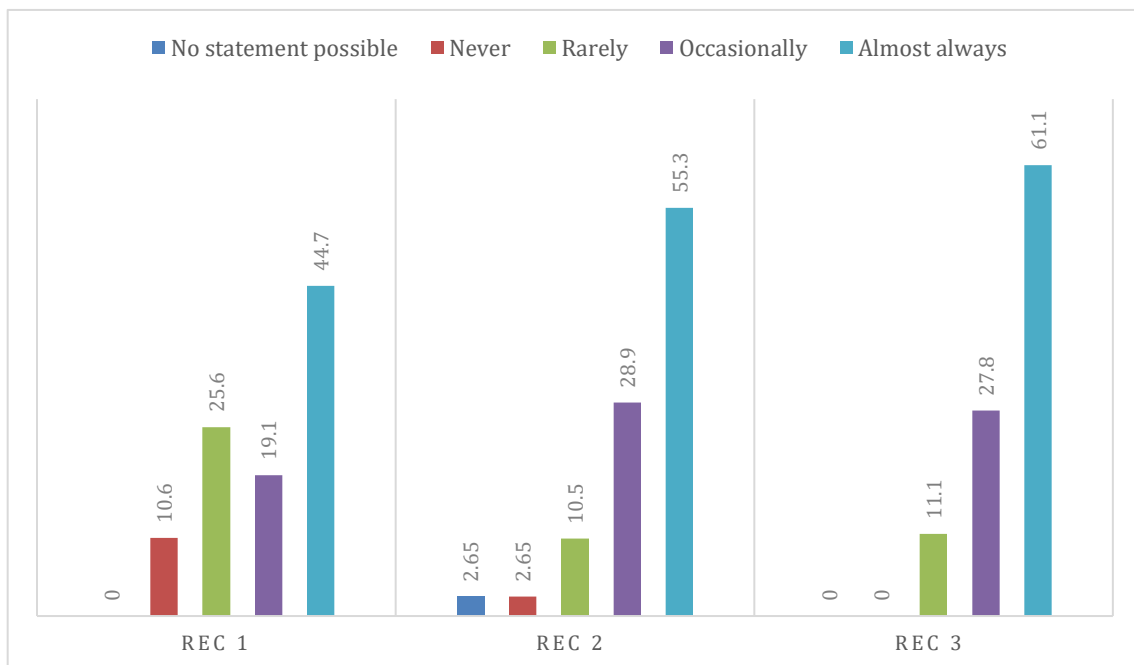


Figure 3. Results obtained for the variable "Tongue in the oral cavity", in % of patients analysed, in the study (7).