



Quiste dentígero circunferencial asociado a mesiodens invertido oronasal: reporte de caso

Andrés Noah Melián Rivas,* Nicolas Tobar Villanueva,§ Camila Boin Bakit,*
Daniela Alegría Villa,¶ Marcela Torrealba,|| Antonio Marino Espinoza**

* Cirujano Dentista, Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital San Juan de Dios. Santiago, Chile.

§ Cirujano Dentista, Facultad de Odontología, Universidad Finis Terrae. Santiago, Chile.

¶ Cirujana dentista, especialista en Patología Oral y Maxilofacial, Hospital de la Serena, La Serena, Chile.

|| Cirujana Dentista, especialista en Radiología Oral y Maxilofacial, Facultad de Odontología, Universidad Finis Terrae, Santiago, Chile.

** Cirujano Maxilofacial, Servicio de Cirugía Maxilofacial, Hospital de Carabineros. Santiago, Chile.

RESUMEN

Introducción: el quiste dentígero es un quiste odontogénico del desarrollo, caracterizado por rodear la corona de dientes no erupcionados o en desarrollo, cuya patogenia exacta es desconocida. La asociación de estas lesiones a dientes supernumerarios es rara, representando 5-6% de todos los quistes dentígeros reportados, desarrollándose en 90%, alrededor de mesiodens en el maxilar anterior con escasos reportes asociados a mesiodens invertidos. En adición a esto, se han identificado pocos casos de variantes de quistes dentígeros circunferenciales, los cuales rodean por completo al diente, siendo una entidad muy rara, cuyo diagnóstico diferencial representa un desafío. **Objetivo:** presentar un caso de una variante circunferencial poco frecuente de quiste dentígero de localización oronasal, asociado a un diente supernumerario invertido en el maxilar superior. **Reporte del caso:** paciente masculino, 43 años, sistémicamente sano, relata presión en zona maxilar anterior. Clínicamente, se palpa tumoración vestibular y palatina de consistencia firme, recubierta por mucosa normal. Al examen radiográfico se observa área osteolítica corticalizada, con focos radiopacos. En CBCT se aprecia lesión quística, que se relaciona cranealmente con mesiodens, en posición invertida. Se realiza instalación de cánula de descompresión y biopsia incisional. El análisis histopatológico muestra membrana quística con revestimiento epitelial escamoso no queratinizado y focos de calcificaciones distróficas. Se plantea el diagnóstico de quiste dentígero. Tras seis meses se realiza control con radiografía panorámica y CBCT, evidenciándose disminución del tamaño de la lesión, efectuándose la consecuente enucleación quirúrgica con posterior relleno del lecho con hueso liofilizado, sin recidivas a los seis meses. **Conclusión:** dado el comportamiento clínico de esta lesión y su particular localización, es fundamental la

ejecución de un completo examen clínico, estudio imagenológico e histopatológico, para la correcta formulación del diagnóstico y plan de tratamiento.

Palabras clave: quiste dentígero, mesiodens invertido, diente supernumerario, oronasal.

INTRODUCCIÓN

El quiste dentígero, también llamado quiste folicular, es un quiste epitelial odontogénico proveniente de células del epitelio reducido del órgano del esmalte.¹ Se caracteriza por rodear la corona de un diente no erupcionado o en vías de desarrollo, el cual se encuentra adherido al cuello del diente a nivel de la unión cemento-esmalte.^{1,2} Su patogenia es incierta, pero se ha sugerido que la presión ejercida por un diente en erupción en el folículo puede obstruir el flujo venoso induciendo la acumulación de exudado entre el epitelio reducido del esmalte y la corona del diente, por otra parte, investigaciones reportan que procesos inflamatorios a nivel periapical de dientes deciduos no vitales cerca de los folículos de los sucesores permanentes podrían ser un factor de riesgo asociado a la aparición de los quistes dentígeros.^{2,3} Estos representan 24% de los quistes odontogénicos y ocupan el segundo lugar en frecuencia de los quistes maxilares.³ Se manifiestan principalmente en personas de sexo masculino entre la segunda y tercera década, siendo raros en niños con menos de 2% de incidencia. A menudo son asintomáticos, por lo que son frecuentemente hallazgos radiográficos, que pueden generar grandes expansiones óseas, con fracturas patológicas, erosiones, rizalosis, desplazamiento de dientes e incluso sobreinfecciones siendo considerados los quistes odontogénicos más agresivos.³⁻⁵ Radiográficamente se manifiesta como una radiolucidez unilocular bien delimitada que rodea

Recibido: Marzo 2020. Aceptado: Junio 2020.

Citar como: Melián RAN, Tobar VN, Boin BC, Alegría VD, Torrealba M, Marino EA. Quiste dentígero circunferencial asociado a mesiodens invertido oronasal: reporte de caso. Rev Odont Mex. 2021; 25 (4): 345-352.

© 2021 Universidad Nacional Autónoma de México, [Facultad de Odontología]. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>)

la corona de un diente no erupcionado, pudiendo presentar márgenes radiopacos corticalizados;⁵ sin embargo, el estudio histopatológico es mandatorio para su diagnóstico definitivo.¹⁻⁵ La localización más frecuente es a nivel de terceros molares inferiores, con una frecuencia de alrededor de 75%. Sin embargo, a pesar de que la mayoría se encuentra asociado a dientes permanentes, un 5% se ha asociado a supernumerarios, lo que es un hallazgo poco frecuente, siendo el mesiodens el más afectado.⁵⁻⁷

La prevalencia general de los mesiodens es entre un 0.15 y 1.9%, donde la edad habitual de presentación clínica del quiste dentígero debido a un diente supernumerario es en las primeras cuatro décadas de la vida.⁸ Los dientes supernumerarios pueden aparecer solos o múltiples, unilaterales o bilaterales, erupcionados o impactados, y aparecer tanto en el maxilar como la mandíbula. Se ha reportado que la dirección de erupción de mesiodens se puede dividir en tres formas: normal, horizontal o inversa, siendo la mayoría de los casos documentados de forma inversa^{9,10} y cuya presencia puede generar complicaciones tales como impactación dentaria, apiñamiento, formación de diastemas, desplazamiento de dientes, interferencias oclusales, caries, problemas periodontales y formación de quistes dentígeros¹¹ como es el caso que se reporta.

Existen escasos reportes en la literatura sobre la asociación de quistes dentígeros con mesiodens invertidos y aún más rara la asociación a quistes dentígeros

circunferenciales. El objetivo es presentar el manejo terapéutico de un quiste dentígero variante circunferencial asociado a un mesiodens invertido oronasal.

PRESENTACIÓN DE CASO

Paciente de género masculino de 43 años de edad consulta por aumento de volumen en paladar. Sin antecedentes sistémicos, relata dolor moderado, intermitente, localizado junto a sensación opresiva en sector anterosuperior maxilar, con tiempo de evolución desconocido. Al examen clínico se observa tumoración en fondo de vestíbulo y paladar, extendida desde 2.2 hasta 1.1, de forma redondeada, consistencia firme, cubierta por mucosa normal, doloroso a la palpación y de límites definidos. Los dientes involucrados presentaban caries, pero se encontraban vitales a las pruebas endodónticas y no presentaban movilidad ni desplazamiento (*Figura 1A*).

En una primera instancia, se observó radiográficamente presencia de lesión radiolúcida de gran tamaño. Sin embargo, se observó integridad de espacios periodontales en los dientes comprometidos, por lo que se solicitó complementar con ortopantomografía y CBCT, donde se encontró una lesión osteolítica circunscrita, bien delimitada con márgenes corticalizados en relación con raíces dentarias de dientes 1.1 a 2.2, confirmando la presencia de lesión quística en zona maxilar anterosuperior asociada a la existencia de diente su-

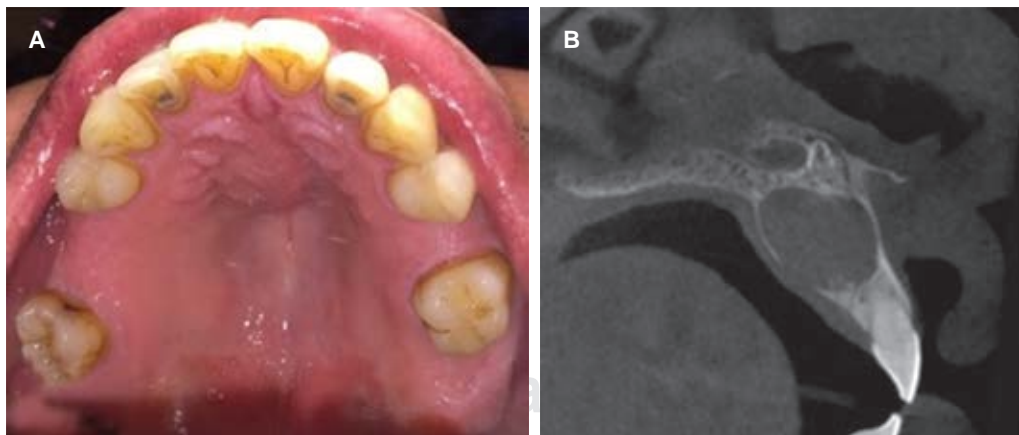


Figura 1: **A)** Imagen intraoral clínica de lesión a nivel de paladar duro. Se observa tumoración redondeada, no ulcerada y mucosa de coloración normal en la parte anterior del maxilar relacionada con los incisivos anterosuperiores. **B)** Examen imagenológico CBCT corte sagital; se observa lesión quística que genera expansión de corticales vestibular y palatina, asociada a mesiodens invertido, proyectado en cavidad nasal.

A) Clinical intraoral image of the lesion at the level of the hard palate. Rounded, non-ulcerated tumor and mucosal of normal coloration are observed in the anterior part of the maxilla related to the anterosuperior incisors. **B)** CBCT sagittal plane imaging examination; cystic lesion that generates an expansion of vestibular and palatine cortical, associated with inverted mesiodens, projected in the nasal cavity.

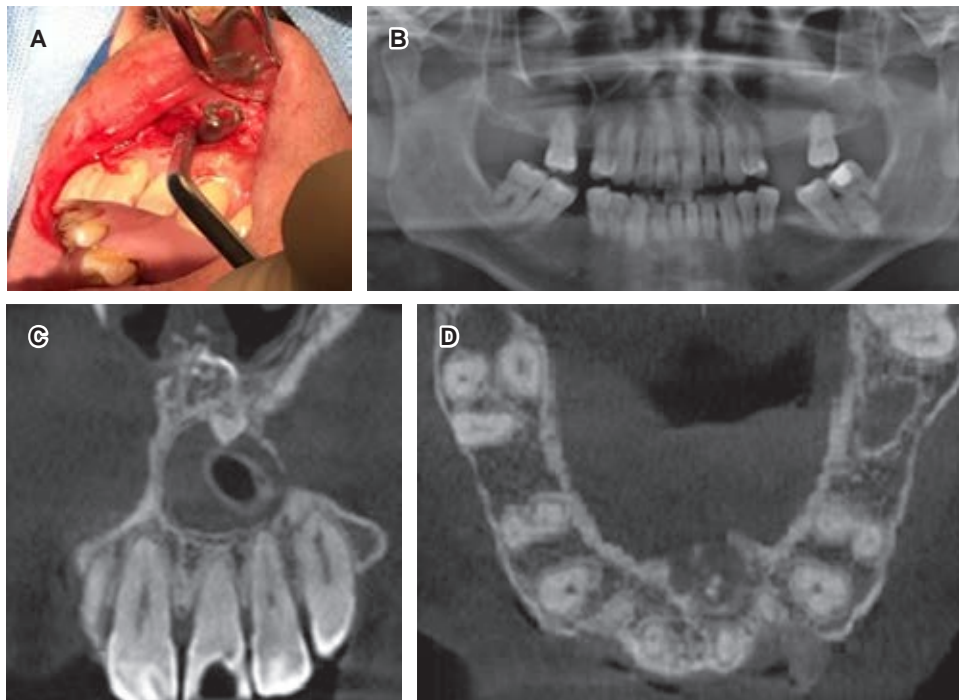


Figura 2: A) Biopsia incisional de lesión quística. Se observa instalación de cánula de descompresión e irrigación. **B-D)** Exámenes imagenológicos de control a los seis meses posterior a descompresión. **B)** Ortopantomografía; se observa lesión radiolúcida a nivel anterosuperior con cánula de descompresión. **C)** CBCT corte coronal, se observa lesión quística con cánula en su espesor y mesiodens invertido el cual se proyecta entre cavidad oral y nasal. **D)** CBCT corte transversal, se evidencia conducto nasopalatino desplazado por lesión quística y aumento de volumen palatino.

A) Incisional biopsy of the cystic lesion. Installation of decompression and irrigation cannula is observed. **B-D)** Follow-up imaging tests at six months after decompression. **B)** Orthopantomography; radiolucent lesion is observed at the anterosuperior level with decompression cannula. **C)** CBCT, coronal plane, the cystic lesion is observed with a cannula in its thickness and inverted mesiodens, which projects between the oral and nasal cavity. **D)** CBCT, cross-sectional CBCT, nasopalatine duct displaced by cystic lesion, and increased palatine volume are evident.

pernumerario invertido de localización buconasal con la corona proyectada hacia la cavidad nasal y la raíz orientada a la cavidad oral, con diámetros de $2.5 \times 2.0 \times 1.9$ cm. Se evidenció además expansión de corticales óseas vestibular y palatina, generando un desplazamiento del conducto nasopalatino, sin compromiso de raíces de dientes vecinos (Figura 1B).

Posterior a consentimiento informado, se realiza biopsia incisional bajo anestesia local, donde se procede a instalar una cánula de descompresión con el objetivo de disminuir el tamaño de la lesión y se indicó aseo con clorhexidina al 0.12% tres veces al día con seguimiento radiográfico a los seis meses (Figura 2A). Con hipótesis diagnóstica de tumor odontogénico adenomatoide, las muestras obtenidas fueron enviadas a estudio histopatológico, el cual mostró una membrana quística con revestimiento epitelial escamoso no queratinizado, de pocas capas, focos de calcificaciones distróficas siendo características

sugestivas de quiste dentígero. Tras seis meses de la intervención se realizó una nueva evaluación clínica e imagenológica, donde el paciente relató disminución del tamaño de la lesión y cese de sintomatología opresiva en relación con el sector anatómico comprometido, observándose radiográficamente una disminución del tamaño de la lesión quística en sector anterosuperior con un diámetro de $1.4 \times 1.7 \times 1.5$ cm asociada a la presencia de cánula de descompresión en su espesor (Figura 2B-D).

Se procedió a realizar una nueva intervención quirúrgica bajo anestesia local, donde se efectuó la enucleación y remoción quística con curetaje óseo con exodoncia de supernumerario. Finalmente se realiza relleno de cavidad con hueso microparticulado liofilizado xenogénico (Alpha Bio's GRAFT) más una membrana de colágeno reabsorbible (MEDPRIN ReDura™), suturando finalmente la mucosa comprometida (Figura 3A y B). La muestra obtenida (Figura 3C) fue

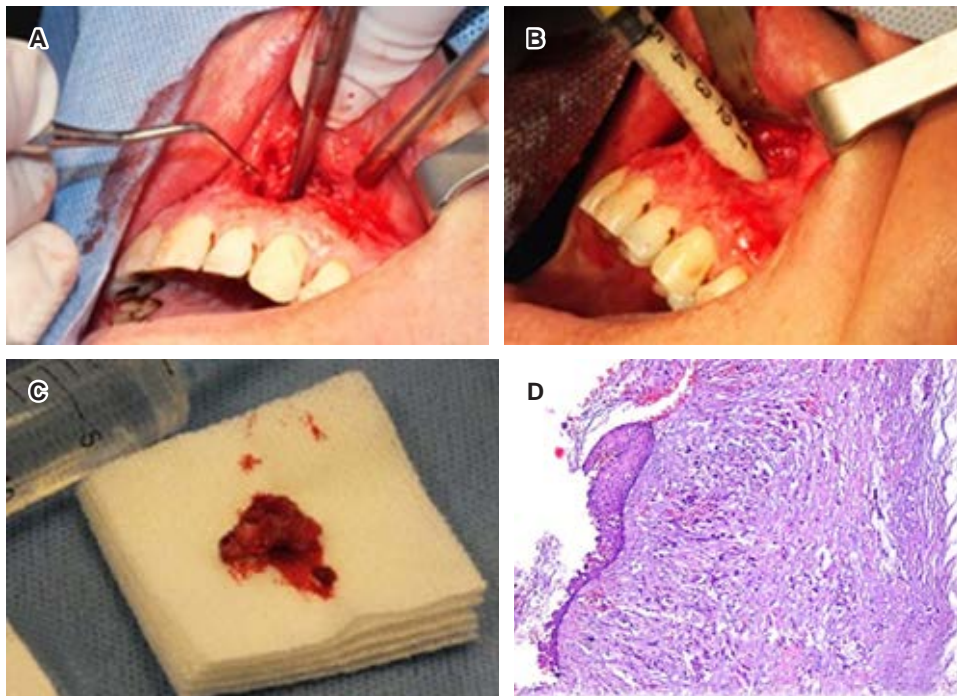


Figura 3: Enucleación de lesión quística. **A)** Se observa curetaje y remoción de pared quística en maxilar superior. **B)** Relleno de cavidad con hueso particulado xenogénico. **C)** Biopsia escisional, se observa muestra de tejido quístico. **D)** Estudio histopatológico de biopsia escisional teñida con hematoxilina-eosina, aumento 10x. Muestra de membrana quística con revestimiento epitelial escamoso no queratinizado, de pocas capas, y focos de calcificaciones distróficas, con infiltrado inflamatorio crónico en tejido conjuntivo.

Cystic lesion enucleation. A) Curettage and removal of a cystic wall in the upper maxilla are observed. B) Cavity filling with xenogenic particulate bone. C) Excisional biopsy, a sample of cystic tissue is observed. D) Histopathological study of excisional biopsy stained with hematoxylin-eosin, 10x magnification. Cystic membrane sample with non-keratinized squamous epithelial lining, of few layers, and foci of dystrophic calcifications, with chronic inflammatory infiltrate in connective tissue.

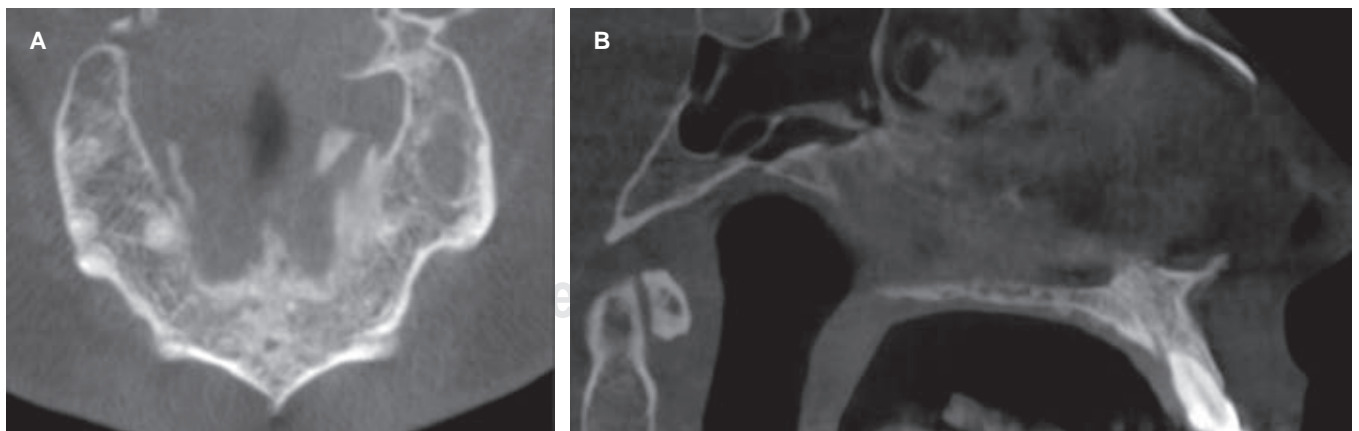


Figura 4: CBCT de seguimiento del caso. **A)** Corte transversal. Se observa neoformación de tejido óseo, sin recidivas de lesiones en región intervenida. **B)** Corte sagital.

Case Follow-up CBCT. A) Cross-sectional plane. A new bone tissue formation is observed without recurrences of lesions in the surgery region. B) Sagittal plane.

enviada nuevamente a análisis histopatológico evidenciándose metaplasia de epitelio quístico escamoso no queratinizado, rodeado por una cápsula de tejido conjuntivo laxo con infiltrado inflamatorio crónico confirmando diagnóstico de quiste dentígero (*Figura 3D*). No se observaron recidivas tras seis meses de seguimiento de la lesión (*Figura 4*).

DISCUSIÓN

La ubicación habitual del quiste dentígero es en relación con dientes permanentes no erupcionados frecuentemente a nivel del tercer molar inferior; por el contrario, sólo un 5% de éstos se ha asociado a piezas supernumerarias, por lo que los reportes de éstos en relación con mesiodens son poco frecuentes,^{1,12} tal como se presenta en nuestro caso. Adicionalmente, los reportes de quistes dentígeros publicados hacen alusión a su variante común donde la lesión rodea la corona del diente afectado; sin embargo, en la literatura se describen radiográficamente dos variantes adicionales de quistes dentígeros: una variante lateral donde la lesión puede encontrarse lateralmente a lo largo de la raíz de la pieza dentaria cubriendo parcialmente la corona y finalmente una variedad circunferencial cuando el quiste además de rodear la corona, se extiende hacia abajo a lo largo de la superficie de la raíz, dando así la impresión del diente dentro del quiste tal como se presenta en nuestro caso, siendo un hallazgo muy raro, y digno de ser informado.^{13,14} La rareza de esta variante se encontraría relacionada al desplazamiento producido por la presión osmótica que generan estos quistes produciendo estas variaciones anatómicas.¹⁵ La persistencia de esta lesión se ha asociado a complicaciones patológicas, tales como fracturas óseas patológicas, reabsorción radicular o desplazamiento de dientes adyacentes y fístulas oronasaes debido a la extensión de las lesiones entre la cavidad oral y nasal,^{2,15} tal como en el caso que se reporta en este trabajo, e incluso se han reportado grandes inflamaciones y deformaciones del labio superior.^{15,16} Esto es fundamental dado que existen diagnósticos diferenciales asociados a estas variantes como el tumor odontogénico adenomatoide, ameloblastoma uniuquístico, tumor de Pindborg y fibroma odontogénico.^{2,12,17}

Varios planes de tratamiento se han descrito en la literatura para el manejo de estas lesiones, pero no existe un consenso sobre los criterios de selección sobre la modalidad de tratamiento adecuada, la elección de ésta debe basarse en el tamaño y localización del quiste, edad, dentición afectada, y la relación con estructuras circundantes.¹⁴ Los métodos empleados para la eliminación han incluido descompresión, mar-

supialización y enucleación. Sin embargo, los criterios para seleccionar estas modalidades de tratamiento no están claramente definidos. Además, en la literatura faltan series de estudios y seguimiento a largo plazo para evaluar diversos resultados de tratamiento, recurrencias y comparar datos demográficos, siendo la enucleación en conjunto con la extirpación del diente afectado la más utilizada dado que se ha reportado que es el método terapéutico con menor tasa de recidiva. Además, se ha reportado el uso de diferentes materiales de injerto para rellenar la cavidad residual, incluyendo hueso aloplástico, hueso alogénico, hueso xenogénico o una combinación de estos materiales, pero los injertos de celulosa autógenos producen los resultados más favorables y predecibles, tanto experimental como clínicamente.^{14,17-19} En nuestro caso se prefirió la descompresión con la posterior enucleación a los seis meses con extracción del diente supernumerario y posteriormente se rellenó la cavidad con hueso microparticulado liofilizado xenogénico.

CONCLUSIÓN

La aparición de quistes dentígeros asociados a dientes supernumerarios invertidos en la región anterior del maxilar es poco frecuente, siendo los mesiodens invertidos los más prevalentes. Para prevenir el desarrollo de este tipo de lesiones, además de evitar efectos no deseados en los dientes adyacentes y estructuras anatómicas vecinas, la detección prematura basada en un examen clínico y radiográfico completo es necesaria para un diagnóstico preciso y una planificación adecuada de tratamiento. Además, es fundamental realizar un análisis histopatológico para realizar diagnóstico diferencial con lesiones potencialmente invasivas y/o malignas.

Clinical case

Circumferential dentigerous cyst associated with oronasal inverted mesiodens: case report

Andrés Noah Melián Rivas,*
Nicolas Tobar Villanueva,[§] Camila Boin Bakit,*
Daniela Alegría Villa,[†] Marcela Torrealba,^{||}
Antonio Marino Espinoza**

* Cirujano Dentista, Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital San Juan de Dios. Santiago, Chile.

§ Cirujano Dentista, Facultad de Odontología, Universidad Finis Terrae. Santiago, Chile.

- † Cirujana dentista, especialista en Patología Oral y Maxilofacial, Hospital de la Serena, La Serena, Chile.
- ‡ Cirujana Dentista, especialista en Radiología Oral y Maxilofacial, Facultad de Odontología, Universidad Finis Terrae, Santiago, Chile.
- ** Cirujano Maxilofacial, Servicio de Cirugía Maxilofacial, Hospital de Carabineros. Santiago, Chile.

ABSTRACT

Introduction: the dentigerous cyst is a developmental odontogenic cyst characterized by surrounding the crowns of unerupted or developing teeth whose exact pathogenesis is still unknown. These lesions are rarely associated with supernumerary teeth, accounting for 5 to 6% of all reported dentigerous cysts; 90% develop around mesiodens in the anterior maxilla, with few reports associated with inverted mesiodens. Additionally, few cases of variants of circumferential dentigerous cysts have been identified, which surround the tooth, being a rare entity whose differential diagnosis represents a challenge. **Objective:** to present the case of a rare circumferential variant of the dentigerous cyst of oronasal localization associated with an inverted supernumerary tooth in the upper maxilla. **Case report:** a 43 years old male patient, systemically healthy, reports pressure in the anterior maxilla. Clinically, vestibular and palatine tumor mass of firm consistency, covered by regular mucosa, is felt. Radiographic examination revealed a cortical osteolytic area with radiopaque foci. In addition, a CBCT showed a cystic lesion, cranially related to an inverted mesiodens. A decompression cannula is installed, and an incisional biopsy is performed. Histopathological analysis shows a cystic membrane with non-keratinized squamous epithelial lining and dystrophic calcifications foci. Therefore, the dentigerous cyst diagnosis is proposed. After six months, a control was performed with panoramic radiography and CBCT; a decrease in lesion size was observed. The consequent surgical enucleation is performed with the subsequent filling of the bed with lyophilized bone without recurrences at six months. **Conclusion:** due to the clinical behavior of this lesion and its particular location, clinical examinations, imaging, and histopathological studies are essential to formulate a correct diagnosis and treatment plan.

Keywords: dentigerous cyst, inverted mesiodens, supernumerary tooth, oronasal.

INTRODUCTION

The dentigerous cyst, also known as a follicular cyst, is an odontogenic cyst from cells of the reduced enamel epithelium.¹ It is characterized by surrounding the crown of an unerupted or developing tooth, which is attached to the tooth's neck at the cementum-enamel junction.^{1,2} Although its pathogenesis is uncertain, it has been suggested that the pressure by an erupting tooth in the follicle may obstruct venous flow by inducing the accumulation of exudate between the reduced enamel epithelium and the crown of the tooth. On the other hand, some research reports that inflammatory processes at the periapical level of non-vital deciduous teeth near the follicles of permanent successors could constitute a risk factor associated with the appearance of dentigerous cysts.^{2,3} These account for 24% of

odontogenic cysts and rank second in frequency of maxillary cysts.³ They appear mainly in males in the second or third decades and rarely in children (less than 2% incidence). They are often asymptomatic, so they are frequently radiographic findings, which can generate significant bone expansions, with pathological fractures, erosions, rizolisis, tooth mobility, and even superinfections, so they are considered the most aggressive odontogenic cysts.³⁻⁵

Radiographically it is observed as a well-defined unilocular radiolucency surrounding the crown of an unerupted tooth and may present cortical radiopaque margins;⁵ however, a histopathological study is necessary for its definitive diagnosis.¹⁻⁵ Frequently (approximately 75%), it is located at lower third molars. Although it is generally associated with permanent teeth, 5% has been associated with supernumerary teeth, with mesiodens being the most affected.⁵⁻⁷

The prevalence in mesiodens is 0.15 to 1.9%; clinically, the dentigerous cyst due to a supernumerary tooth occurs in the first four decades of life.⁸ In addition, supernumerary teeth may appear alone or multiple, unilateral or bilateral, erupted or impacted, and occur in the maxilla or mandible. It has been reported that the direction of mesiodens eruption may be regular, horizontal, or, the most frequent, inverse^{9,10} and whose presence may generate complications such as dental impaction, crowding, diastema formation, tooth mobility, occlusal interference, caries, periodontal problems, and appearance of dentigerous cysts¹¹ as is the case that is reported.

There are few reports in the literature about the association of dentigerous cysts with inverted mesiodens and even rarer the association with circumferential dentigerous cysts. Therefore, the aim is to present the therapeutic management of a circumferential variant of the dentigerous cyst associated with an oronasal inverted mesiodens.

CASE REPORT

A 43-year-old male patient consults for increased volume on the palate. Without a systemic history, he reports moderate, intermittent, localized pain with oppressive sensation in the maxillary anterosuperior sector, with unknown evolution time. On clinical examination, a tumor mass is observed in the vestibule's and palate's background, extended from DO 2.2 to 1.1, rounded, firm consistency, covered by normal mucosa, painful on palpation, and of defined borders. The teeth involved had cavities but were vital to endodontic tests without mobility or displacement (*Figure 1A*).

At the beginning, a large radiolucent lesion and the integrity of periodontal spaces in the compromised teeth were radiographically observed, so panoramic radiography and CBCT were requested; these studies revealed a circumscribed osteolytic lesion, well delimited with cortical margins concerning teeth roots 1.1 to 2.2, confirming the presence of a cystic lesion in the anterosuperior maxillary area associated with the existence of inverted supernumerary tooth of buccal location, with the crown projected towards the nasal cavity and the root oriented to the oral cavity, with diameters of $2.5 \times 2 \times 1.9$ cm. In addition, expansion of the vestibular and palatine bony cortical was evidenced, generating a displacement of the nasopalatine duct without compromising the roots of adjacent teeth (*Figure 1B*).

After informed consent was granted, an incisional biopsy was performed under local anesthesia; subsequently, a decompression cannula was installed to decrease the lesion size. Then, grooming with 0.12% chlorhexidine was indicated three times daily with radiographic follow-up at six months (*Figure 2A*). With the probable diagnosis of adenomatoid odontogenic tumor, the samples obtained were sent to histopathological study; it showed a cystic membrane with a non-keratinized squamous epithelial lining of a few layers and dystrophic calcifications foci, all suggestive features of a dentigerous cyst. A new clinical and imaging evaluation was conducted six months after the intervention. The patient reported a lesion size decrease and cessation of oppressive symptoms related to the anatomical sector involved. Radiographically, a reduction in the cystic lesion size in the anterosuperior sector was observed, with a diameter of $1.4 \times 1.7 \times 1.5$ cm, associated with the presence of decompression cannula in its thickness (*Figure 2B-D*).

A new surgical intervention was performed under local anesthesia, and enucleation and cystic removal were performed with bone curettage with supernumerary tooth extraction. Finally, the cavity filling was made with xenogenic lyophilized bone micro particulates (Alpha Bio's Graft) plus a collagen resorbable membrane (MEDPRIN ReDura™), finally suturing the compromised mucosa (*Figure 3A and B*). The sample obtained (*Figure 3C*) was sent again to histopathological analysis evidencing metaplasia of non-keratinized squamous cystic epithelium, surrounded by a capsule of loose connective tissue with chronic inflammatory infiltrate, confirming the diagnosis of a dentigerous cyst (*Figure 3D*). After six

months of follow-up of the lesion, no recurrence was observed (*Figure 4*).

DISCUSSION

The usual location of the dentigerous cyst is related to non-erupted permanent teeth at the level of the lower third molar. However, 5% have been associated with supernumerary teeth, so these reports about mesiodens are rare,^{1,12} as is the case we report. Additionally, published papers on dentigerous cysts allude to their common variant where the lesion surrounds the crown of the affected tooth. However, two additional variants of dentigerous cysts are described radiographically in the literature: the lesion may be found laterally (along the root of the tooth partially covering the crown) and a circumferential variant (when the cyst in addition to surrounding the crown, extends downwards along the surface of the root, thus giving the impression of the tooth inside the cyst) as is the case we are presenting, being an infrequent finding, and worthy of being informed.^{13,14}

The rarity of this variant would be related to the displacement produced by the osmotic pressure generated by these cysts creating these anatomical variations.¹⁵ Furthermore, the persistence of this lesion has been associated with pathological complications, such as pathological bone fractures, root resorption or neighboring tooth displacement, and oronasal fistulas due to the extent of the lesions between the oral and nasal cavity,^{2,15} as the case reported in this paper, and even large inflammations and deformations of the upper lip have been reported.^{15,16} This information is crucial since differential diagnoses are associated with these variants, such as an adenomatoid odontogenic tumor, unicystic ameloblastoma, Pindborg tumor, and odontogenic fibroid.^{2,12,17}

Several treatment plans for managing these lesions have been described in the literature, but there is no consensus on the criteria for selecting the appropriate treatment modality. The choice should be based on the size and location of the cyst, age, affected teeth, and the relationship to surrounding structures.¹⁴ Methods used for removal include decompression, marsupialization, and enucleation.

However, the criteria for selecting these treatment modalities are not clearly defined. Additionally, in the literature, there is a lack of studies and long-term follow-up to evaluate treatment outcomes and recurrences and compare demographic data; enucleation and removal of the affected tooth are the most used method since it has been reported to be therapeutic method with the lowest rate of recurrence.

The use of different graft materials to fill the residual cavity has also been reported, including alloplastic bone, allogeneic bone, xenogenic bone, or a combination of these materials; autogenous cellulose grafts produce the most favorable and predictable results, both experimentally and clinically.^{14,17-19}

In our case, decompression was preferred with subsequent enucleation at six months with the extraction of the supernumerary tooth. Then the cavity was filled with xenogenic lyophilized bone micro particulates.

CONCLUSION

The appearance of dentigerous cysts associated with inverted supernumerary teeth in the anterior region of the maxilla is unusual, with inverted mesiodens being the most prevalent.

Early detection based on a complete clinical and radiographic examination is necessary for accurate diagnosis and proper treatment planning to prevent such lesions and avoid unwanted effects on adjacent teeth and neighboring anatomic structures. Besides, histopathological analysis is essential to formulate the differential diagnosis with potentially invasive or malignant lesions.

REFERENCIAS / REFERENCES

1. Agrawal NK. Dentigerous cyst in a child associated with multiple inverted supernumerary teeth: a rare occurrence. *Int J Burns Trauma*. 2012; 2 (3): 171-173.
2. Anthonappa RP, Ekambaram M, Neboda CNG, King NM, Rabie AM. Genetic basis of dentigerous cysts associated with supernumerary teeth: A narrative review. *J Investig Clin Dent*. 2018; 9 (1). doi: 10.1111/jicd.12267.
3. Dhupar A, Yadav S, Dhupar V, Mittal HC, Malik S, Rana P. Bi-maxillary dentigerous cyst in a non-syndromic child – review of literature with a case presentation. *J Stomatol Oral Maxillofac Surg*. 2017; 118 (1): 45-48. doi: 10.1016/j.jormas.2016.12.001.
4. El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, Takata T, Slootweg PJ. *WHO Classification of head and neck tumours*. 4th edition. Lyon: IACR; 2017.
5. Borrás-Ferreres J, Sánchez-Torres A, Aguirre-Urizar JM, Gay-Escoda C. Dentigerous cyst with parietal and intracystic calcifications: a case report and literature review. *J Clin Experimental Dent*. 2018; 10 (3): e296-e299. doi: 10.4317/jced.54505.
6. Villasis-Sarmiento L, Portilla-Robertson J, Melendez-Ocampo A, Gaitan-Cepeda LA, Leyva-Huerta ER. Prevalence and distribution of odontogenic cysts in a Mexican sample. A 753 cases study. *J Clin Exp Dent*. 2017; 9 (4): e531-e538. doi: 10.4317/jced.53627.
7. Lin HP, Wang YP, Chen HM, Cheng SJ, Sun A, Chiang CP. A clinicopathological study of 338 dentigerous cysts. *J Oral Pathol Med*. 2012; 42 (6): 462-467. doi: 10.1111/jop.12042.
8. Giovanetti K, Sigua-Rodriguez EA, Pacheco L, Portela-Figueiredo E, Albergaria-Barbosa JR. Mesiodens. Reporte de caso. *Rev Fac Odontol Univ Antioq*. 2016; 28 (1): 210-219. doi: 10.17533/udea.rfo.v28n1a12.
9. Lee SS, Kim SG, Oh JS, You JS, Jeong KI, Kim YK et al. A comparative analysis of patients with mesiodens: a clinical and radiological study. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg*. 2015; 41 (4): 190-193. doi: 10.5125/jkaoms.2015.41.4.190.
10. Goksel S, Agirgol E, Karabas HC, Ozcan I. Evaluation of prevalence and positions of mesiodens using cone-beam computed tomography. *J Oral Maxillofac Res*. 2018; 9 (4): e1. doi: 10.5037/jomr.2018.9401.
11. Jeon JY, Park CJ, Cho SH, Hwang KG. Bilateral dentigerous cysts that involve all four dental quadrants: a case report and literature review. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg*. 2016; 42 (2): 123-126. doi: 10.5125/jkaoms.2016.42.2.123.
12. Kim KS, Mun SK. Extensive dentigerous cyst associated with a mesiodens: CT findings. *Ear Nose Throat J*. 2013; 92 (8): E6-E8. doi: 10.1177/014556131309200818.
13. Narsapur SA, Choudhari S. Dentigerous cyst with atypical mesiodens: an unusual clinical case report. *RSBO (Online)*. 2015; 12 (2): 220-224.
14. Hasan S, Ahmed SA, Reddy LB. Dentigerous cyst in association with impacted inverted mesiodens: report of a rare case with a brief review of literature. *Int J Appl Basic Med Res*. 2014; 4 (Suppl 1): S61-S64. doi: 10.4103/2229-516X.140748.
15. Riachi F, Khairallah CM, Ghosn N, Berberi AN. Cyst volume changes measured with a 3D reconstruction after decompression of a mandibular dentigerous cyst with an impacted third molar. *Clin Pract*. 2019; 9 (1): 1132. doi: 10.4081/cp.2019.1132.
16. Kouhsoltani M, Mesgarzadeh AH, Moradzadeh Khiavi MM. Mandibular fracture associated with a dentigerous cyst: report of a case and literature review. *J Dent Res Dent Clin Dent Prospects*. 2015; 9 (3): 193-198. doi: 10.15171/joddd.2015.035.
17. Patil AS, Jathar PN, Panse AM, Bahutule SR, Patil RU, Patil M. Infected dentigerous cyst and its conservative management: a report of two cases. *Int J Clin Pediatr Dent*. 2019; 12 (1): 68-72. doi: 10.5005/jp-journals-10005-1578.
18. Patel K, Patel N, Venkataraghavan K. Management of a dentigerous cyst associated with inverted and fused mesiodens: a rare case report. *J Int Oral Health*. 2013; 5 (4): 73-77.
19. Perjuci F, Ademi-Abdyli R, Abdyli Y, Morina E, Gashi A, Agani Z et al. Evaluation of spontaneous bone healing after enucleation of large residual cyst in maxilla without graft material utilization: case report. *Acta Stomatol Croat*. 2018; 52 (1): 53-60. doi: 10.15644/asc52/1/8.

Correspondencia / Correspondence:
Andrés Noah Melián Rivas
E-mail: andresmelianrivas@gmail.com