



Dens invaginatus y quiste maxilar asociado: *follow up* y resolución interdisciplinaria

Gerardo Marcelo Gilligan,* Federico Garola,* Martín Bronstein,[§] René Panico,* Edgardo Franciosi,[¶]
Juana Rosa Bozzatello,^{||} Jorge Marcelo Gilligan**

* Cátedra de Estomatología «A», Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba.

[§] Cátedra de Endodoncia «B», Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba.

[¶] Servicio de Cirugía de Cabeza y Cuello, Hospital Italiano, Córdoba.

^{||} Cátedra de Cirugía II «A», Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba.

** Cátedra de Cirugía II «B», Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba.

RESUMEN

Introducción: El *dens invaginatus* (DI) es una anomalía dentaria del desarrollo producida en la etapa de morfo-diferenciación. Puede presentarse bajo diferentes formas con compromiso coronario o radicular. DI puede llevar a necrosis pulpar y consecuentemente, a infecciones periapicales o quistes. **Objetivo:** reportar un caso de un quiste maxilar de considerables dimensiones asociado con DI, enfatizando el tratamiento interdisciplinario. **Presentación del caso:** Se presentó a la consulta una paciente de 26 años con una lesión tumoral dolorosa en paladar y sensación de opresión. La paciente relató una evolución de ocho meses y tratamientos ineficaces sin arribar a un diagnóstico. Previo estudio clínico-radiográfico, se procedió a programar un plan terapéutico basado en: 1) tratamiento de la pieza problema y diagnóstico lesional, 2) descompresión, 3) seguimiento y controles y 4) remoción de remanente lesional y colocación de sustituto óseo. Se evidenció una lesión quística asociada a incisivo lateral con presencia de DI coronario. Se procedió al tratamiento endodóntico del elemento problema seguido de descompresión quística mediante la intervención quirúrgica y posicionamiento de un drenaje. Los controles mostraron una evolución favorable. Por último, se realizó la quistectomía total y colocación de sustituto óseo. En concordancia con otros autores, el diagnóstico histopatológico de quiste inflamatorio, descartando otras entidades más agresivas y la edad de la paciente, condicionó la selección de un tratamiento inicialmente conservador. El remanente lesional determinó la enucleación total de la lesión y la colocación de un sustituto óseo para devolver volumen a la zona afectada. **Conclusiones:** El diagnóstico temprano de DI evita la formación de lesiones secundarias, las cuales en el caso de no ser debidamente diagnosticadas generan morbilidad en los pacientes. El

trabajo interdisciplinario de estas lesiones es fundamental para alcanzar los resultados esperados.

Palabras clave: *Dens invaginatus*, quiste maxilar, anomalías dentarias, descompresión.

INTRODUCCIÓN

El *dens invaginatus* (también llamado dens in dente) es una anomalía del desarrollo dentario, poco frecuente y multifactorial producida en las etapas tempranas de morfo-diferenciación, que puede presentarse bajo diferentes formas clínicas. El término *dens invaginatus* (DI) fue introducido por Hallet, y describe una invaginación dentaria donde se puede observar esmalte en el centro y dentina en la periferia.^{1,2} DI puede ser coronario o radicular, dependiendo del lugar donde se genera la invaginación, siendo el coronario el de mayor frecuencia. La prevalencia reportada de dientes adultos con DI es entre 0.3 y 10%. La pieza dentaria más comúnmente afectada es el incisivo lateral seguido del incisivo central, premolares, caninos y molares, con predilección más frecuente por el maxilar.³

La profundidad de la invaginación varía desde un ligero alargamiento del *cingulum* hasta una marcada profundidad que puede involucrar el ápice dental. De acuerdo a ello, se clasifican según Oehlers en tipo I (las más frecuentes, 79%), que exhibe una invaginación que queda confinada a la corona, tipo II (15%), la invaginación se extiende hasta la unión amelocementaria pudiendo o no comprometer el tejido pulpar, y tipo III (5%), la cual llega a extenderse a través de la raíz, perforando el área radicular.^{3,4} Radiográficamente se muestra una invaginación de esmalte y dentina, la cual puede extenderse a la cámara pulpar, raíz y en algunas ocasiones al ápice radicular. En la mayoría de los casos esta alteración suele ser asintomática y en numerosas ocasiones se encuentra tras un examen radiológico de rutina. En los casos en

Recibido: Mayo 2020. Aceptado: Mayo 2021.

Citar como: Gilligan GM, Garola F, Bronstein M, Panico R, Franciosi E, Bozzatello JR et al. *Dens invaginatus* y quiste maxilar asociado: *follow up* y resolución interdisciplinaria. Rev Odont Mex. 2021; 25 (1): 65-75.

© 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/>)

los que en forma directa o indirecta el DI genera alguna afección pulpar, pueden coexistir lesiones periapicales y/o quistes maxilares asociados con esta anomalía dentaria.⁵⁻⁷ Existen reportes de casos donde quistes maxilares en ausencia de lesiones cariosas en los elementos problema llevan a sospechar que el origen de la afección podría estar asociado a anomalías dentarias como DI. En la mayoría de los casos y reportes, las lesiones se presentan con áreas osteolíticas y próximas al elemento dentario que alberga el DI. Como el incisivo lateral superior es el más frecuente, el quiste maxilar suele aparecer clínicamente como un aumento de volumen, a

veces doloroso, sobre la fibromucosa palatina.⁸ En estos casos el diagnóstico y tratamiento de todo el cuadro clínico resulta un verdadero desafío diagnóstico para el clínico. El objetivo de este trabajo es reportar un caso clínico de un quiste maxilar de considerables dimensiones generado por un DI, haciendo hincapié en su tratamiento endodóntico-quirúrgico.

REPORTE DE CASO

Se presentó a la consulta una paciente de 26 años con una lesión tumoral sumamente dolorosa en pala-

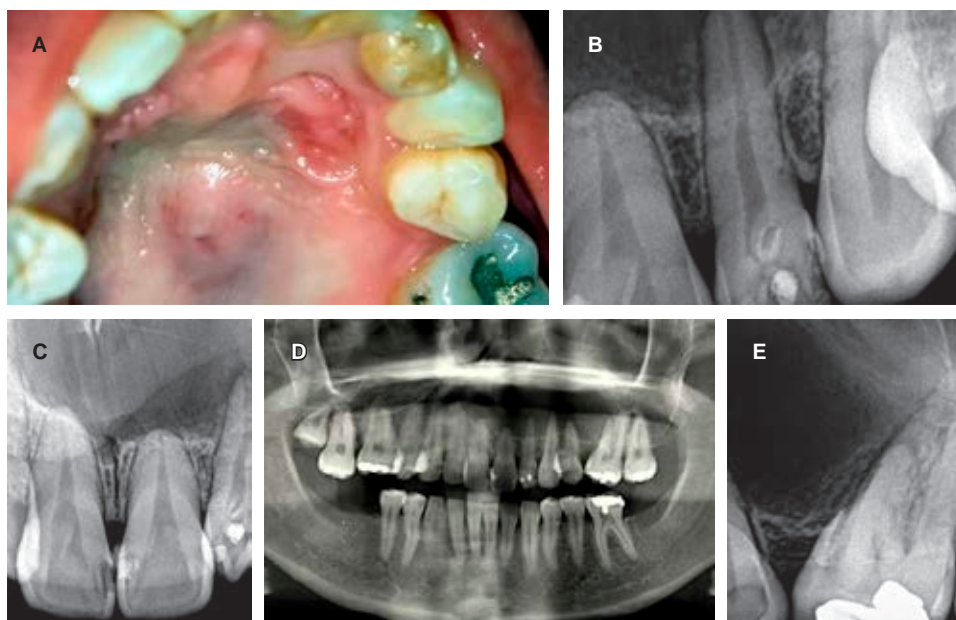


Figura 1: Características clínico-radiográficas del caso. **A)** Se observa sobre la bóveda palatina una lesión discretamente elevada, con superficie eritematosa y zonas azulinas, en la cual durante las maniobras de palpación se podía evidenciar fluctuación y un contenido líquido. Estas maniobras generaban intenso dolor y sensación de opresión en la zona. Además, es importante observar la morfología lóbulo palatino de gran tamaño, asemejándose a la corona clínica de un premolar. **B)** Imagen radiográfica de *dens invaginatus* ía dentaria de la corona y la coloración del incisivo lateral, donde se puede evidenciar un coronario en el incisivo lateral superior izquierdo y una zona de rarefacción ósea en el ápice radicular. **C)** Imagen radiográfica sector anterior de incisivos centrales, donde se puede observar una imagen radiolúcida que involucra dichas piezas dentarias, separadas del tejido óseo normal circundante por una discreta línea radiopaca. **D)** En la ortopantomografía, obsérvese una imagen osteolítica que abarca el hemimaxilar izquierdo. **E)** En esta imagen radiográfica se puede observar el límite posterior de la lesión osteolítica con una zona radiolúcida que llega a generar desplazamiento dentario del primer molar superior izquierdo.

Clinical and radiographical characteristics of the case. A) A discreetly elevated lesion was observed on the palatine vault, with erythematous surface and bluish areas, which could be evidenced fluctuation and liquid content during palpation maneuvers. These maneuvers generated intense pain and a sensation of oppression in the area. In addition, it is important to observe the dental morphology of the crown and the coloration of the lateral incisor, where a large palatal lobe can be seen, resembling the clinical crown of a premolar. **B)** Radiographic image of coronary dens invaginatus in the upper left lateral incisor and an area of bone rarefaction in the root apex. **C)** Radiographic image of the anterior sector of the central incisors, where a radiolucent image involving these teeth can be seen, separated from the surrounding normal bone tissue by a discrete radiopaque line. **D)** In the orthopantomography, observe an osteolytic image involving the left hemimaxillary. **E)** In this radiographic image, the posterior limit of the osteolytic lesion can be seen with a radiolucent area that even generates dental displacement of the left upper first molar.

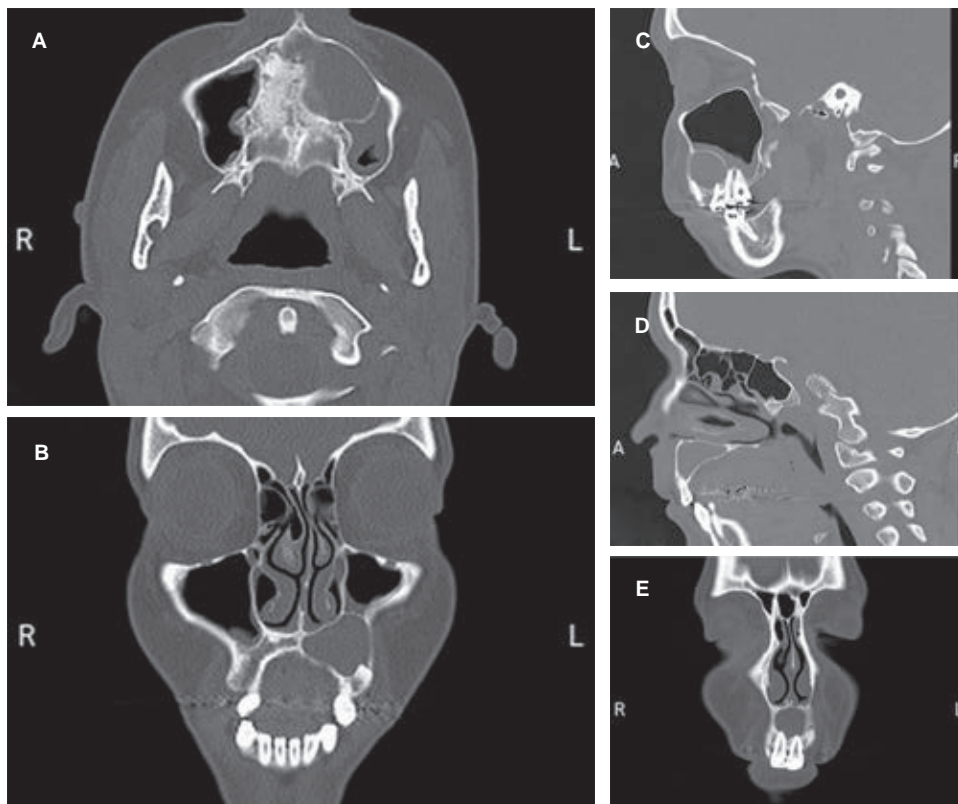


Figura 2: Cortes tomográficos. **A)** Corte axial donde se puede observar imagen radiolúcida que genera osteólisis de hueso maxilar superior y palatino sin llegar a comprometer el seno maxilar. **B)** Corte frontal en el que se puede evidenciar la imagen osteolítica perfectamente delimitada con corticales óseas que no invaden reparos anatómicos como fosas nasales o seno maxilar, generando abombamiento de la tabla vestibular de la maxilar superior en la región perilesional. La mucosa sinusal de ese mismo lado puede observarse discretamente engrosada. **C-D)** Cortes sagitales que muestran la extensión anteroposterior de la lesión en sector de incisivos centrales y canino. Al igual que en las imágenes anteriores, obsérvese la gran extensión de la patología respetando las estructuras anatómicas vecinas. **E)** Corte frontal en sector anterior donde se puede evidenciar la osteólisis que genera la lesión en la región de incisivos centrales llegando a generar una mínima erosión de piso de fosas nasales.

Tomographical aspect. A) Axial section showing a radiolucent image that generates osteolysis of the maxillary and palatine bone without compromising the maxillary sinus. B) Frontal view showing the osteolytic image delimited with bone cortices that do not invade anatomical repairs such as nostrils or maxillary sinus, generating bulging of the vestibular table of the upper maxilla in the perilesional region. The sinus mucosa of the same side can be observed slightly thickened. C-D) Sagittal slices show the anteroposterior extension of the lesion in the central incisor and canine sector. As in the previous images, note the great extension of the pathology respecting the neighboring anatomical structures. E) Frontal section in the anterior sector, where the osteolysis generated by the lesion in the region of the central incisors can be seen, generating a minimal erosion of the floor of the nostrils.

dar y sensación de opresión en la hemicara izquierda. Durante la anamnesis, la paciente relató haber tenido la misma lesión ocho meses atrás, la cual fue tratada con antibióticos, revirtiendo el cuadro sintomatológico sin llegar a un diagnóstico concreto. La paciente no refirió antecedentes patológicos sistémicos ni heredo-familiares de relevancia clínica.

Al examen intraoral, se observó una región inflamada en el paladar duro, algo lateralizada hacia la izquierda, fluctuante, con tendencia a la supuración y dolorosa a la palpación. El diagnóstico provisional fue

de absceso palatino, evidenciándose el incisivo lateral superior derecho con una coloración grisácea, test de excitabilidad pulpar negativo y sospecha clínica de necrosis pulpar. Al examen radiográfico (técnica periapical), se observó una gran lesión radiolúcida corticalizada que se extendía de las áreas confinadas a la pieza problema (Figura 1). Además, como hallazgo radiográfico de relevancia, se observó a nivel del límite amelocementario una zona de radiodensidad similar a la dentina, asociada a una invaginación de tejido dentario circunscrita por un área radiopaca compa-

tible con DI. Con el objetivo de evidenciar con mayor nitidez esta lesión, se indicaron ortopantomografía y tomografía axial computarizada. En ellas se observó una gran lesión lítica que ocupaba casi la totalidad del hemimaxilar superior izquierdo sin llegar a comprometer fosas nasales y seno maxilar, cuyo límite anterior se encontraba en el sector correspondiente a incisivos centrales y su límite posterior estaba delimitado por el primer molar izquierdo. Asimismo, se evidenciaba osteólisis del hueso maxilar y palatino. La *Figura 2* ilustra los diferentes cortes tomográficos, los cuales permiten observar la imagen osteolítica compatible con el proceso quístico. Todas las piezas involucradas mostraron ausencia de signos de rizólisis patológica y conservaban la vitalidad pulpar, excepto el incisivo lateral superior izquierdo involucrado, con la imagen de DI. El diagnóstico clínico fue quiste maxilar inflamatorio asociado a necrosis pulpar proveniente de incisivo lateral superior.

Previa planificación, junto a especialistas en el área de medicina y patología oral, endodoncia y cirugía de cabeza y cuello, se procedió a programar un plan terapéutico basado en cuatro fases: 1) Fase de tratamiento de la pieza problema y diagnóstico lesional. 2) Fase de descompresión. 3) Seguimiento y controles. 4) Remoción de remanente lesional y colocación de sustituto óseo en forma diferida.

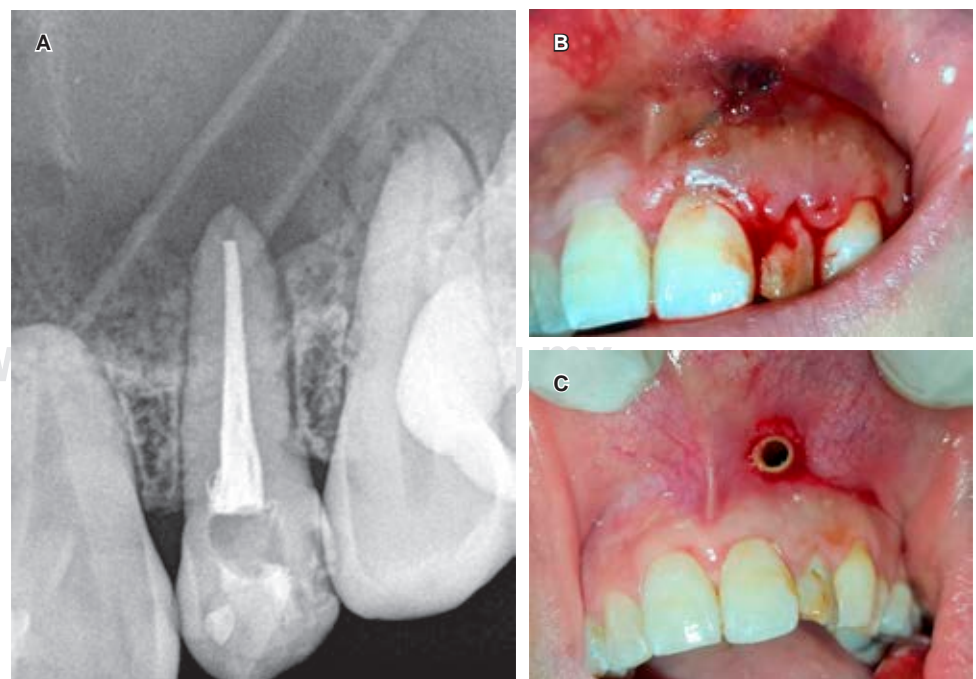
1) Tratamiento de la pieza dentaria problema y fase de diagnóstico de lesión ósea: una vez ob-

tenidas todas las imágenes radiográficas y tomográficas, previo tratamiento con antibioticoterapia y drenaje de lesión palatina, se procedió al tratamiento endodóntico de la pieza problema y la remoción de DI con instrumental rotatorio. El endodoncista, afortunadamente, no advirtió ningún tipo de inconveniente a la hora de realizar el acceso cameral, la instrumentación y su posterior obturación con gutapercha. Debido a la intervención interdisciplinaria endodóntico-quirúrgica, se decidió realizar la terapia endodóntica en dos sesiones con una terapia intermedia a base de hidróxido de calcio. Para el resto de los elementos dentarios comprometidos con el proceso infeccioso, se mantuvo una conducta expectante. Inmediatamente, se indicó una biopsia incisional de la lesión intraósea. Para ello, se realizó un colgajo mucoperióstico del sector antero-superior, trepanación de cortical vestibular, la cual se encontraba conservada, incidiendo a 4 mm del ápice de la pieza dentaria comprometida. Se logró identificar una extensa cavidad ósea de contenido líquido, cubierta por una cápsula difícil de enuclear, se logró remover una zona de cápsula quística para su estudio. Luego se realizó la reposición del colgajo y posterior sutura. Al mismo tiempo, se procedió a instalar un tubo siliconado con la función de drenaje con fines descompresivos. El material obtenido fue sumergido en formalina 10% y enviado a laboratorio de anatomía patológica. El resultado histopatológico fue de quiste maxilar inflamatorio.

Figura 3:

Colocación de drenaje con fines descompresivos. **A)** Radiografía postendodoncia y colocación inmediata de drenaje. **B)** Se puede observar la sutura del tubo de drenaje a la mucosa alveolar. **C)** Mucosa sana circundante al drenaje, fotografía obtenida durante un procedimiento de reemplazo del tubo siliconado.

Drainage placement for decompressive purposes. A) Post-endodontic radiography and immediate drainage placement. B) Shows the suture of the drainage tube to the alveolar mucosa. C) Healthy mucosa surrounding the drain, photograph obtained during a siliconized tube replacement procedure.



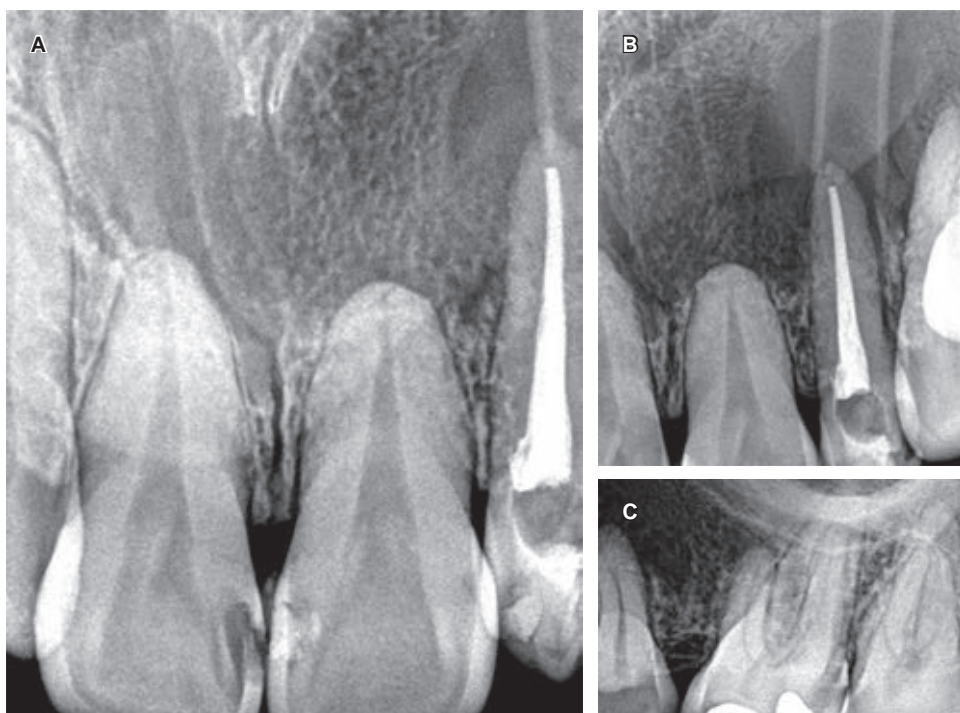


Figura 4:

Imágenes radiográficas periapicales de control.

A-C) Imágenes radiográficas periapicales de control durante el seguimiento clínico del caso, observando la aposición de tejido óseo en las áreas periféricas del quiste, y reducción del tamaño de la lesión.

Periapical control radiographic images. A-C) Control periapical radiographic images during the clinical follow-up of the case, showing the apposition of bone tissue in the peripheral areas of the cyst and reduction of the size of the lesion.

La *Figura 3 A y B* evidencian la radiografía y la clínica inmediata a la colocación del drenaje por donde la paciente realizaba los lavados. En la *Figura 3C* se puede observar normalidad de los tejidos circundantes al catéter; esta fotografía fue tomada a los cuatro meses de la colocación inicial durante un procedimiento de reemplazo del dispositivo.

2) Fase de tratamiento conservador (descompresión): la colocación del dispositivo de drenaje en la zona permitió comenzar con lavados diarios, al principio realizado por profesionales calibrados y luego mediante la paciente misma bajo instrucciones, en forma ambulatoria. Las maniobras de drenaje y descompresión redujeron la presión intraquística generando alivio y desaparición de la sintomatología. La lesión abscedosa ubicada en la fibromucosa palatina remitió. Consecuentemente a ello, se realizó el tratamiento endodóntico de la pieza problema y se procedió a la remoción de DI con instrumental rotatorio.

3) Seguimiento y controles: se realizaron controles clínicos y radiográficos mensuales, mientras la paciente seguía realizando los lavados mediante el tubo de drenaje ubicado *ad hoc* con el objetivo de llevar a cabo la técnica descompresiva. A los tres y seis meses de control, se observó la formación de trabéculas óseas (evidenciables en las radiografías intraorales de control) próximas a los límites anteroposteriores de la lesión quística (*Figura 4*).

4) Remoción de remanente lesional y colocación de sustituto óseo en forma diferida: a los ocho meses de tratamiento descompresivo, a petición de la paciente, se procedió a realizar lavado quirúrgico de la lesión y remoción de remanente quístico bajo anestesia general. Se procedió a realizar una incisión amplia tipo festoneada que se extendió desde el incisivo lateral derecho hasta el segundo molar izquierdo. Posteriormente a la separación del mucoperiostio, se efectuó el curetaje del lecho quístico, desprendimiento de su cápsula y colocación de sustituto óseo sintético inyectable en pasta, compuesto de fosfato dicálcico deshidratado en 55%, fosfato tricálcico en 45% con poder bioconductor para relleno del gran colapso óseo residual postquistectomía (*Figura 5 A y B*), el mismo fue recubierto con membrana de colágena reabsorbible. Se retiró el drenaje que se había colocado en primera cirugía de diagnóstico. Por último, se procedió a reposicionar el colgajo mucoperiostico y la confección de una sutura a puntos separados. El diagnóstico histopatológico de la lesión enucleada confirmó el diagnóstico inicial (quiste maxilar inflamatorio). La *Figura 5C* fue obtenida en forma inmediata a la colocación del sustituto óseo. Durante su evolución, se realizó un seguimiento clínico y radiográfico del caso con resultados altamente satisfactorios (en la *Figura 5D* se puede observar el estado de la pieza problema y los tejidos peridentarios

normales con relación al sustituto óseo). A la fecha, la paciente lleva dos años de control, observando ausencia de recidivas y vitalidad pulpar conservada de las piezas previamente involucradas.

DISCUSIÓN

Se han propuesto diferentes causas de esta afección que incluyen el retraso del crecimiento focal, infección, proliferación rápida de una parte del epitelio interno del esmalte en la papila dental, aumento de

la presión externa localizada, fusión de dos gérmenes dentales, trauma, distorsión y protrusión del órgano del esmalte durante el desarrollo del diente y ausencia de moléculas de señalización para la morfogénesis y, por lo tanto, factores genéticos involucrados.^{8,9}

A causa de la anatomía tortuosa de los dientes invaginados es posible desarrollar caries sin alguna lesión clínicamente perceptible. El esmalte y la dentina pueden encontrarse defectuosos, delgados en proximidades con la cámara pulpar, o simplemente estar ausentes, por lo que el tejido pulpar queda ex-

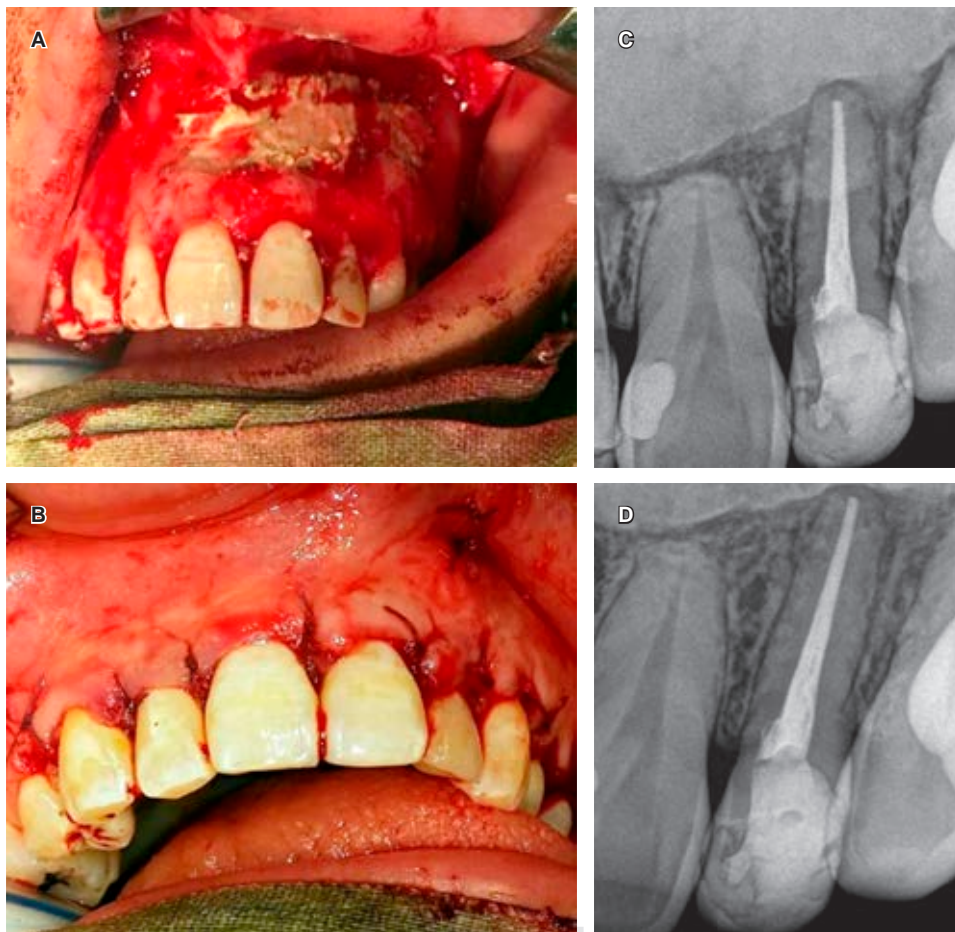


Figura 5: Remoción del remanente quístico y colocación de sustituto óseo. **A-B)** Muestran el colgajo amplio realizado para el abordaje y el lecho quirúrgico postquistectomía relleno con el sustituto óseo, el cual fue debidamente compactado en el interior del tejido óseo. Luego de la colocación de membrana reabsorbible, se realizó la reposición del colgajo mucoperiosteal y la sutura correspondiente. **C)** Radiografía postquirúrgica inmediata donde puede observarse el material de relleno como una masa densa radiopaca. **D)** El control radiográfico al año muestra normalidad de los tejidos dentarios y peridentarios, y persistencia del sustituto óseo.

Remotion of the cystic remanent and placement of bone substitute. A-B) Show the wide flap made for the approach and the post-cystectomy surgical bed filled with the bone substitute duly compacted inside the bone tissue. After the placement of the resorbable membrane, the mucoperiosteal flap was repositioned, and the corresponding suture was placed. C) Immediate postoperative X-ray where the filling material can be seen as a dense radiopaque mass. D) Radiographic control at one year shows normal dental and periodontal tissues and persistence of the bone substitute.

puesto de manera directa al medio oral, produciendo su infección y posterior necrosis. Una circunstancia clínica agravante podría estar asociada justamente a una afección cariosa y su progresión a través de la comunicación de la porción invaginada de la superficie palatina de la pieza con la cavidad oral.¹⁰ En nuestro caso, se pudo evidenciar una restauración con composite de larga data en cercanías de la cámara pulpar; sin embargo, no se podría descartar la teoría de la existencia de una caries clínicamente no detectable en asociación a la porción palatina del DI. Ambas situaciones, sumadas a la presencia misma de un DI con compromiso cameral, podrían ser los motivos que llevaron a la necrosis pulpar.

El diagnóstico temprano resulta un condicionante de la terapéutica a utilizar, ya sea preventiva o restauradora. En etapas incipientes se recomienda una restauración de composite sellante bajo un estricto control clínico-radiográfico a fin de evitar futuras complicaciones. En casos de necrosis pulpar, como el presente, es necesaria la terapia endodóntica. En quienes los DI fueron tratados con anterioridad endodónticamente, el retratamiento suele ser una terapéutica poco predecible por la gran dificultad que representa para el endodoncista establecer longitudes de trabajo y su posterior instrumentación, por lo que en casos de afección apicoperiapical con abscesos crónicos sin tendencia a la remisión, la cirugía apical está indicada con curetaje y obturación retrógrada utilizando cementos biocerámicos.¹¹ La extracción será la última opción a considerar.

Teniendo en cuenta nuestro caso, además de la anomalía presente, se detectó un quiste inflamatorio de grandes dimensiones que ocupaba casi la totalidad del hemimaxilar superior izquierdo. En lesiones tan extensas como la que aquí se presenta, se recomienda la toma previa de biopsia incisional con el objetivo de establecer el diagnóstico histopatológico. Descartar patologías quístico-tumorales como queratocistes y ameloblastomas, a pesar de ser infrecuentes en esta zona, es relevante a la hora de plantear futuras orientaciones terapéuticas. El tratamiento conservador está indicado para lesiones extensas y en pacientes jóvenes. La técnica descompresiva propuesta por Thoma (1958), empleada en el presente caso, consiste en la realización de una ventana de apertura en la pared quística, colocación y fijación de un tubo o stent.¹² Esta técnica busca la reducción quística a partir de la descompresión asociada a un cese de la presión intraquística, lo que resulta en una disminución de tamaño e inducción a la neoformación ósea. Conjuntamente, proporciona un mejor acceso quirúrgico para la enucleación posterior a baja

morbilidad postoperatoria, disminuye la probabilidad de infección y promueve la cicatrización, ayudando a mantener la vitalidad de dientes relacionados con la cavidad quística y la integridad de estructuras anatómicas nobles.¹³⁻¹⁵ Los efectos de la descompresión según la edad son controvertidos; sin embargo, se describió que los pacientes más jóvenes tienen tasas de reducción quística más altas.¹⁶ En nuestro caso, la descompresión quística y los lavados quirúrgicos llevados a cabo durante casi un año determinaron una marcada reducción del tamaño de la lesión, pudiendo evidenciar a lo largo de los seguimientos radiográficos la neoformación ósea, especialmente en los límites anteriores y posteriores del quiste (sector de incisivos y primer molar superior).

La enucleación posterior, que no siempre es requerida en casos de descompresión asociada a endodoncia, permite la resolución completa del caso. Los defectos óseos que pueden sobrevenir deben tratarse mediante procedimientos regenerativos. En lechos quirúrgicos postquistectomía de gran tamaño, se aconseja la utilización de algunas de las modalidades empleadas en la actualidad, pueden llevarse a cabo a partir de fosfato de calcio, sustitutos óseos de diferente origen, hidroxiapatita, plasma rico en fibrina, etcétera. Posteriormente, con el objetivo de evitar el colapso del colgajo mucoperiostico, que protege el material de relleno óseo y previene la migración del epitelio, se aconseja la colocación de membranas colágenas.^{17,18}

Definitivamente, en estos casos es indispensable realizar un estricto seguimiento clínico-radiográfico para monitorear el estado del hueso afectado y la vitalidad de las piezas dentarias inicialmente comprometidas con la lesión quística.

CONCLUSIÓN

Si bien el DI es una anomalía dentaria de escasa frecuencia, puede llevar a cuadros clínicos que generan gran morbilidad en los pacientes, requiriendo intervenciones quirúrgicas mayores. Los incisivos laterales con alteraciones clínicas en su anatomía coronaria deberán ser siempre analizados con radiografías periapicales para descartar posibles anomalías de desarrollo como DI.

Aun cuando el diagnóstico precoz de DI no haya generado alteraciones clínicamente evidenciables, lleva a tratamientos menos invasivos. No obstante, cuando se parte de un diagnóstico de DI tardío, erróneo en el contexto de lesiones periapicales y/o quísticas asociadas, se requiere de terapéuticas más complejas y/o prolongadas.

Clinical case

Dens invaginatus and associated maxillary cyst: follow up and interdisciplinary resolution

Gerardo Marcelo Gilligan,* Federico Garola,*
Martín Bronstein,§ René Panico,* Edgardo Franciosi,¶
Juana Rosa Bozzatello,|| Jorge Marcelo Gilligan**

* Cátedra de Estomatología «A», Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba.

§ Cátedra de Endodoncia «B», Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba.

¶ Servicio de Cirugía de Cabeza y Cuello, Hospital Italiano, Córdoba.

|| Cátedra de Cirugía II «A», Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba.

** Cátedra de Cirugía II «B», Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba.

ABSTRACT

Introduction: *Dens invaginatus* (DI) is a developmental dental abnormality in the early stages of tooth morph differentiation. It could be present with many clinical or radiographic characteristics with crown or root involvement. DI could lead to pulp necrosis and periapical infections or maxillary cysts. **Objective:** To report a case of an extensive maxillary cyst associated with DI, emphasizing the interdisciplinary treatment. **Case report:** A 26-year-old female with a painful tumor on the palate and oppression feeling presented to the consultation. She started an 8-month evolution and failed treatments without receiving a final diagnosis. After a clinical-radiographic study, a therapeutic approach was planned based on: 1) treatment of DI and cyst diagnosis, 2) cyst reduction by decompression, 3) follow-up and controls, and 4) removal of the remnant cyst and placement of bone substitute. A cystic lesion was observed related to the lateral incisor, presenting a coronal ID anomaly. Endodontic treatment of the incisor was performed, followed by a cystic decompression by surgical intervention and positioning of drainage. Clinical and radiographic controls showed a favorable evolution. Finally, a total cystectomy was done with the placement of a bone substitute. **Conclusions:** the early DI diagnosis avoids the formation of secondary lesions. If not accurately diagnosed, this condition could generate morbidity in patients. Therefore, interdisciplinary treatment should be considered to achieve successful results.

Keywords: *Dens invaginatus*, maxillary cyst, dental anomalies, decompression.

INTRODUCTION

Dens invaginatus (also called dens in dente) is a rare multifactorial anomaly of dental development, produced in the early stages of morphodifferentiation, which might present in different clinical forms. *Dens invaginatus* (DI) term was introduced by Hallett, describing a dental invagination in which enamel is the center and dentin in the periphery.^{1,2} DI can be coronal (the most frequent) or radicular, depending on where intussusception is generated. The reported

prevalence in adult teeth is between 0.3% and 10%; the most affected tooth is the lateral incisor, followed by the central incisor, premolars, canines, and molars, especially at the upper jaw.³

The depth of the invagination varies, from a slight elongation of the cingulum to a marked depth that may involve the dental apex. Related to this, DI are classified according to Oehlers as type I (the most frequent, 79%), confined to the crown; type II (15%), the invagination extends to the enamel-cementum junction, or without compromising the pulp tissue and type III (5%) which extends through the root, perforating its area.^{3,4} Radiographically, an invagination of enamel and dentin might extend to the pulp chamber, the root, and sometimes to the root apex. In most cases, this alteration is asymptomatic and therefore diagnosed as an accidental finding in routine dental practice. In other cases, a variable macroscopic morphology and color change of the involved element may suggest the presence of DI.

In those cases where DI generates a pulp condition, periapical lesions and/or maxillary cysts associated with this dental anomaly might coexist.⁵⁻⁷ Cases have been reported where maxillary cysts –in the absence of carious lesions– make a suspect that the condition's origin could be associated with dental anomalies such as ID. In most cases and reports, the lesions present osteolytic areas and close to the dental element that harbors the DI. Like the upper lateral incisor, the most common, the maxillary cyst usually appears clinically as an increase in volume, sometimes painful, on the palatal fibromucosa.⁸ In these cases, the diagnosis and treatment of the whole clinical picture is a real diagnostic challenge for the clinician.

This paper aims to report a clinical case of an extensive cyst generated by ID, lightening the endodontic-surgery treatment.

CASE REPORT

A 26-year-old female patient presented for consultation with a painful tumor lesion on the palate and a sensation of tightness in the left hemifacies. During the anamnesis, the patient reported having had the same lesion eight months earlier, which was treated with antibiotics, reversing the symptoms, but without receiving a specific diagnosis. The patient reported no clinically relevant systemic or family pathological history.

The intraoral examination revealed a slightly enlarged area in the palatal fibromucosa lateralized to the left, fluctuating, with a tendency to suppuration and pain on palpation. The provisional diagnosis was a

palatal abscess, showing the upper right lateral incisor with a grayish coloration, negative pulp excitability test, and clinical suspicion of pulp necrosis. X-ray (periapical technique) showed a large radiolucent lesion in the cortex that extended beyond the areas confined to the problematic tooth (*Figure 1*).

In addition, as a relevant radiographic finding, a zone of radiodensity similar to dentin was observed at the level of the enamel-cementum junction, associated with an invagination of dental tissue circumscribed by a radiopaque area, compatible with DI.

An orthopantomography and a computed axial tomography showed a large lytic lesion in almost the entire left upper hemimaxilla without compromising the nasal cavity and maxillary sinus, whose anterior limit was in the corresponding central incisor sector and its posterior limit was delimited by the left first molar.

Figure 2 illustrates the different tomographic sections that allow observing the osteolytic image compatible with the cystic process. All the teeth involved showed an absence of signs of pathological rhizolysis and preserved pulp vitality, except for the left upper lateral incisor associated with DI. The clinical diagnosis was a maxillary inflammatory cyst associated with pulp necrosis of the upper lateral incisor.

Before planning together with specialists in the Area of Oral Medicine and Pathology, Endodontics, and Head and Neck Surgery, a therapeutic plan on four phases was programmed. 1) Treatment phase of the problematic tooth and lesion diagnosis. 2) Decompression phase. 3) Monitoring and control. 4) Removal of the lesion remnant and placement of bone substitute on a delayed basis.

1) Treatment of the involved tooth and lesion diagnosis phase: with radiographic and tomographic images, after treatment with antibiotics and having drained the palatal lesion, the root canal treatment of the involved tooth was done, and with rotatory instruments was eliminated the DI, both situations without inconvenience. Due to the endodontic-surgery inter-discipline, endodontic therapy was applied in two sessions, with an intermediate calcium hydroxide-based therapy. An expectant behavior was kept regarding the remaining dental elements compromised with the infectious. An incisional biopsy of the intraosseous lesion was immediately indicated. For this, a mucoperiosteal flap was made from the anterosuperior sector, trepanning, and preserving the vestibular cortex, incising 4 mm from the apex of the compromised tooth. An extensive bone cavity with liquid content was identified, covered by a capsule of difficult enucleation, which was partially

extracted for histopathological study. Subsequently, the flap was replaced and sutured together with the placement of a silicone tube for decompressive purposes. The histopathological result revealed a maxillary inflammatory cyst. *Figure 3 A and B* show the X-ray image of the drainage through which the patient flushed the cystic cavity. *Figure 3C* the tissue surrounding the catheter is normal in appearance. This photo was taken four months after initial placement during a device replacement procedure.

2) Decompression (conservative treatment phase): placing the drain device to allow washings of the cystic cavity. Initially, the washes were carried out by professionals calibrated for this purpose and later through the instruction to the patient on an outpatient basis. Drain and decompression maneuvers reduced the intracystic pressure generating relief and disappearance of the symptoms. The palatal abscess was remitted. Consequently, root canal treatment of the involved tooth and removal of DI with rotary instrumentation was finished.

3) Monitoring and control: monthly clinical and radiographic control was carried out. The patient continued with the washing on an outpatient basis for six months. Bone trabeculae formation and a notable lesion reduction (evident in the intraoral X-ray control) were observed near to the anteroposterior limits of the cystic lesion in the three and 6-month control (*Figure 4*).

4) Removal of the lesion remnant and placement of bone substitute on a delayed basis: after eight months of decompressive treatment, the patient requested a surgical lesion cleaning, so the cystic remnant was removed using general anesthesia. A mucosal flap extending from the right lateral incisor to the left second molar was done. After separating of the mucoperiosteum, the cystic bed was curetted; detachment of its capsule and placement of injectable synthetic bone substitute paste, composed of 55% dehydrated dicalcium phosphate, 45% tricalcium phosphate with bioconductive power to fill the collapsed bone after residual cystectomy, were performed (*Figure 5 A and B*). Next, the bone substitute was covered with a resorbable collagen membrane. Later, the drainage placed in the first diagnostic surgery was removed. Finally, the mucoperiosteal flap repositioned and sutured at separate points. The histopathological diagnosis of the enucleated lesion confirmed the initial diagnosis (inflammatory maxillary cyst).

Figure 5C was obtained immediately after the placement of the bone substitute. A clinical and

radiographic follow-up was carried out throughout its evolution with highly satisfactory results (*Figure 5D* shows the status of the problematic tooth and standard peri-dental tissues related to the bone substitute). To date, the patient has been under control for two years, observing the absence of recurrences and preserved pulp vitality of the previously involved pieces.

DISCUSSION

Different causes associated with DI development have been proposed. These include focal growth retardation, infection, the rapid proliferation of part of internal enamel epithelium in the dental papilla, increased localized external pressure, fusion of two dental germs, trauma, distortion and protrusion of the enamel organ during tooth development, and absence of signaling molecules for morphogenesis and, therefore, genetic factors.^{8,9}

The tortuous anatomy of invaginate teeth makes dental tissue more susceptible to bacterial colonization and the subsequent carious lesions development, difficult to diagnose clinically. In addition, enamel and dentin may be defective, thin in proximity to the chamber, or simply absent. Therefore, the pulp tissue is exposed directly to the oral environment, causing its infection and subsequent necrosis. An aggravating clinical circumstance could be associated with a carious condition and its progress by communicating the invaginate portion of the palatal tooth surface with the oral cavity.¹⁰ In our case, a long-standing composite restoration could be seen in the proximity of the pulp chamber. However, the theory of clinically undetectable caries associated with the palatal portion of the DI could also be considered in the etiological analysis. Both situations, added to the presence of a DI with cameral involvement, could be the reasons that led to pulp necrosis.

Early diagnosis is a determining factor in the therapy to be used, preventive or restorative. In incipient stages, a composite sealant restoration is recommended under strict clinical-radiographic control to avoid future complications. In cases of pulp necrosis, such as the current case, endodontic therapy or a combination of endodontics and dental-maxillary surgery is necessary. In those cases where ID was previously endodontically treated, retreatment is usually unpredictable due to the difficulty of establishing working length and subsequent instrumentation. In consequence, in cases of apical-periapical affection with chronic abscesses without remission, apical surgery is indicated, with curettage

and retrograde filling with bioceramic cement.¹¹ Extraction would be the last option to consider.

In the case described, secondary to the present dental anomaly, an inflammatory cyst in almost the entire left upper hemimaxilla was diagnosed. Therefore, an incisional biopsy is recommended to establish the histopathological diagnosis in such extensive lesions.

Different diagnoses could be considered related to cystic lesions of the jaws. Despite keratocysts and ameloblastomas are not frequent in the anterior portion of the maxilla should be included in differential diagnosis and less aggressive cystic entities such as a nasopalatine cyst. That is why it is relevant to take material from one or several sectors of the lesion for subsequent histopathological analysis and obtain a certain diagnosis. This procedure allows planning the appropriate therapeutic approach in each case.

Conservative treatment is indicated for extensive cystic lesions in young patients. The decompressive technique proposed by Thoma (1958),¹² used in the present case, consists of creating an open window in the cystic wall with the subsequent placement and fixation of a tube or stent. This technique aims to reduce the lesion volume while stopping the intracystic pressure, which also induces the formation of new bone. Furthermore, it provides better surgical access for subsequent enucleation with low postoperative morbidity, reducing the probability of infection and promoting healing. Another advantage of this technique is that it allows the pulp vitality of teeth related to the cystic cavity and the integrity of noble anatomical structures.¹³⁻¹⁵ Although the effects of decompression according to age are controversial, younger patients have been reported to have higher rates of cystic reduction.¹⁶ In our case, cystic decompression and surgical procedures carried out for almost a year determined a marked reduction in the size of the lesion, being able to show, throughout the radiographic follow-ups, new bone formation, especially at the anterior and posterior limits of the cyst (incisor sector and upper first molar).

Posterior enucleation, which is not always necessary in cases of endodontic-associated decompression, allows complete resolution of the case. Regenerative procedures should treat any bone defect that might arise. In large post-cystectomy surgical beds, it is advisable to use different modalities such as applying calcium phosphate, bone substitutes of different origins, hydroxyapatite, plasma rich in fibrin, etc. Subsequently, placing

collagen membranes is helpful to avoid collapse of the mucoperiosteal flap, protect the bone filling material and prevent migration of the epithelium.^{17,18}

In these cases, it is essential to carry out a strict clinical-radiographic follow-up to monitor the status of the affected bone, and the vitality of the teeth initially compromised with the cystic lesion.

CONCLUSION

Although DI is a rare dental anomaly, it can lead to clinical pictures that generate significant morbidity in patients, requiring major surgical interventions. Lateral incisors with clinical abnormalities in their coronal anatomy should always be carefully analyzed with a periapical X-ray to rule out possible developmental anomalies such as DI. The early DI diagnosis avoids the formation of secondary lesions. If not accurately diagnosed, this condition could generate morbidity in patients. Interdisciplinary treatment should be considered to achieve successful results.

REFERENCIAS / REFERENCES

- Rajendran A. *Shafer's textbook of oral pathology*. 7th edition. India: Elsevier; 2012.
- Mupparapu M, Singer SR. A review of *dens invaginatus* (dens in dente) in permanent and primary teeth: report of a case in a microdontic maxillary lateral incisor. *Quintessence Int*. 2006; 37 (2): 125-129.
- Neville BW. *Oral and maxillofacial pathology*. St. Louis: Elsevier; 2016.
- Oehlers FA. *Dens invaginatus* (dilated composite odontome). I. Variations of the invagination process and associated anterior crown forms. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1957; 10 (11): 1204-1218.
- Augsburger RA, Brandebura J. Bilateral *dens invaginatus* with associated radicular cysts. A case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1978; 46 (2): 260-264.
- Galindo-Moreno PA, Parra-Vázquez MJ, Sánchez-Fernández E, Avila-Ortiz GA. Maxillary cyst associated with an invaginated tooth: a case report and literature review. *Quintessence Int*. 2003; 34 (7): 509-514.
- Falcao LS, de Freitas PS, Marreiro RO, Garrido AD. Management of *dens invaginatus* type III with large periradicular lesion. *J Contemp Dent Pract*. 2012; 13 (1): 119-124.
- Hegde V, Morawala A, Gupta A, Khandwawala N. Dens in dente: A minimally invasive nonsurgical approach! *J Conserv Dent*. 2016; 19 (5): 487-489.
- Morales Amaya LH, Trejo Quiroz P, Carmona Ruiz D, De León Torres C. *Dens invaginatus* tipo III: reporte de un caso. *UstaSalud*. 2011; 10: 132.
- Mupparapu M, Singer SR, Pisano D. Diagnosis and clinical significance of *dens invaginatus* to practicing dentist. *N Y State Dent J*. 2006; 72 (5): 42-46.
- Hulsmann M. *Dens invaginatus*: aetiology, classification, prevalence, diagnosis, and treatment considerations. *Int Endod J*. 1997; 30 (2): 79-90.
- Neaverth EJ, Burg HA. Decompression of large periapical cystic lesions. *J Endod*. 1982; 8 (4): 175-182.
- Enislidis G, Fock N, Sulzbacher I, Ewers R. Conservative treatment of large cystic lesions of the mandible: a prospective study of the effect of decompression. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2004; 42 (6): 546-550.
- Oliveros-Lopez L, Fernandez-Olavarria A, Torres-Lagares D, Serrera-Figallo MA, Castillo-Oyagüe R, Segura-Egea JJ et al. Reduction rate by decompression as a treatment of odontogenic cysts. *Med Oral Patol Oral Cirugía Bucal*. 2017; 22 (5): e643-e650.
- Swantek JJ, Reyes MI, Grannum RI, Ogle OE. A technique for long term decompression of large mandibular cysts. *J Oral Maxillofac Surg*. 2012; 70 (4): 856-859.
- Kubota Y, Imajo I, Itonaga R, Takenoshita Y. Effects of the patient's age and the size of the primary lesion on the speed of shrinkage after marsupialisation of keratocystic odontogenic tumours, dentigerous cysts, and radicular cysts. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2013; 51 (4): 358-362.
- Von Arx T, Al Saeed M. The use of regenerative techniques in apical surgery: a literature review. *Saudi Dent J*. 2011; 23 (3): 113-127.
- Von Arx T, Cochran DL. Rationale for the application of the GTR principle using a barrier membrane in endodontic surgery: a proposal of classification and literature review. *Int J Periodontics Restorative Dent*. 2001; 21 (2): 127-139.

Correspondencia/Correspondence:
Gerardo Marcelo Gilligan
E-mail: ggilligan@unc.edu.ar