

# Manejo del espacio en un paciente infantil con síndrome del incisivo central maxilar único

SONIA GUZMÁN PINA<sup>1</sup>, ANTONIA ALCAINA LORENTE<sup>2</sup>, FÁTIMA CERDÁN GÓMEZ<sup>3</sup>, GLORIA SAAVEDRA MARBÁN<sup>4</sup>, OLGA CORTÉS LILLO<sup>5</sup>

<sup>1</sup>Profesora asociada. Universidad de Murcia. Murcia. <sup>2</sup>Práctica privada. Murcia. <sup>3</sup>Universidad Rey Juan Carlos. Madrid. <sup>4</sup>Universidad Complutense de Madrid. Madrid. <sup>5</sup>Profesora permanente laboral. Universidad de Murcia. Murcia

## RESUMEN

**Introducción:** el síndrome del incisivo central maxilar único (SICMU) es una anomalía dental rara donde solo un incisivo central está presente en la arcada maxilar. Esta condición puede estar asociada con otras malformaciones craneofaciales y problemas en el desarrollo dental.

**Caso clínico:** paciente masculino de 8 años de edad que acude para valoración dental. En el examen intraoral se observa un incisivo central permanente único sobre la

línea media del maxilar. Una vez realizado su estudio correspondiente, se consideró la necesidad de una primera fase con ortopedia mediante expansión maxilar. Posteriormente se valoró ortodoncia fija mediante *brackets* hasta su rehabilitación futura con una prótesis fija definitiva en el diente 1.1.

**PALABRAS CLAVE:** Síndrome del incisivo central maxilar único. Malformación craneofacial. Anomalía congénita. Incisivo único.

Recibido: 25/07/2024 • Aceptado: 01/08/2024

*Conflicto de intereses:* los autores declaran no tener conflicto de interés.

*Inteligencia artificial:* los autores declaran no haber usado inteligencia artificial (IA) ni ninguna herramienta que use IA para la redacción del artículo.

Guzmán Pina S, Alcaina Lorente A, Cerdán Gómez F, Saavedra Marbán G, Cortés Lillo O. Manejo del espacio en un paciente infantil con síndrome del incisivo central maxilar único. *Odontol Pediatr* 2024;32(3):215-219

DOI: <http://dx.doi.org/10.20960/odontolpediatr.00030>

## Correspondencia:

Olga Cortés Lillo. Clínica Odontológica, 2 pl. Hospital General Universitario Morales Meseguer. Avda. Marqués de los Vélez, s/n. 30008 Murcia  
e-mail: [ocortes@um.es](mailto:ocortes@um.es)

## INTRODUCCIÓN

El síndrome del incisivo central maxilar único (SICMU) es una anomalía congénita rara que se caracteriza por la presencia de un solo incisivo central en el maxilar superior, ubicado en la línea media. Las teorías acerca de su origen apuntan a causas genéticas y ambientales. Afecta tanto a la dentición temporal como a la permanente y aunque anatómicamente difiere del incisivo central “normal”, su raíz y corona son completamente simétricas (1). Esta rara condición, inicialmente descrita en la literatura científica en la década de 1990 por Hall y colaboradores (2), ha suscitado un creciente interés debido a sus implicaciones clínicas y genéticas. El SICMU no solo afecta la estética dental, sino que también puede estar asociado con defectos en los huesos craneofaciales, cerebro e hipófisis y obstrucción de la vía aérea nasal; así como a otras anomalías craneofaciales y síndromes sistémicos (3-5).

La etiología del SICMU es compleja y se cree que involucra tanto factores genéticos como ambientales. Se ha relacionado con un trastorno del desarrollo intrauterino temprano (desde el día 35 hasta el 38 intrauterino) de etiología desconocida, con una prevalencia de 1 en 50.000 nacimientos vivos (2,3). Estudios recientes han identificado mutaciones en genes específicos, tales como SHH, PAX9 y MSX1 (6,7), que podrían estar implicados en el desarrollo de esta condición, lo que abre nuevas vías para el diagnóstico y manejo (8). Además, la relación entre el SIMU y otras malformaciones congénitas subraya la importancia de un enfoque multidisciplinario en su evaluación y tratamiento (9).

## CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 8 años de edad que acudió como primera visita a la consulta dental en marzo de 2014. La madre refirió que solo tuvo un incisivo central superior temporal. En la actualidad solo hay en boca un incisivo central permanente situado en la línea media maxilar.

A la exploración intraoral, se observó proclinación del único incisivo central maxilar presente y cierto grado de resalte (Fig. 1). Además, el paciente presentaba un hábito de respiración oral y de succión del pulgar. Se solicitó una



Figura 1. Incisivo maxilar permanente único situado en la línea media de la arcada superior.

radiografía lateral de cráneo y una ortopantomografía para hacer una valoración del estado de su oclusión y desarrollo de las arcadas.

Hay que destacar que la madre nos transmitió información acerca de la hermana del paciente, que presentaba un déficit cognitivo severo y labio leporino. Se le citó en consulta y se observó que también presentaba un incisivo central maxilar único. Se le aconsejó a la madre una interconsulta con el genetista para elaborar un estudio genético, además de hacer una valoración de su caso; sin embargo, no llegaron a realizarla y decidieron posponer su tratamiento dental ante las dificultades de colaboración que presentaba la paciente.

Una vez que los padres comprendieron y aceptaron los procedimientos a realizar con su hijo, firmaron el consentimiento informado por escrito que autorizaba también el uso de la información clínica e imágenes intraorales de su hijo para su publicación.

Los tratamientos realizados fueron los siguientes:

1. Profilaxis dental con aplicación tópica de flúor y enseñanza de higiene oral. De acuerdo con las recomendaciones de la AAPD (10) se le instruyó al paciente sobre cepillado mínimo dos veces al día con una pasta fluorada, uso de seda dental y revisiones periódicas con profilaxis dental en la clínica dental dada 6 meses.
2. Registros fotográficos y pruebas complementarias (radiografía lateral de cráneo y ortopantomografía) para valoración de su desarrollo dental y de las arcadas. Se observó caninos permanentes con inclinación y riesgo de impactación.
3. Colocación de un aparato disyuntor en el maxilar superior tipo Hyrax. El objetivo fue ampliar ortopédicamente la arcada superior mediante la separación de la sutura media palatina. Para ello, se utilizó un protocolo de expansión rápida, activando el tornillo de expansión una vez al día durante 12 días. Una vez conseguida la anchura máxima se bloqueó el tornillo del expansor con un composite y se dejó en boca durante dos meses más de forma pasiva. En este tiempo el paciente cesó el hábito de succión digital.
4. Se colocó un botón de nance para mantener el espacio y la estabilidad después de la expansión. Se realizaron controles radiográficos para comprobar la erupción de los caninos definitivos. Al observar una inclinación en su trayectoria, se realizó la exodoncia de los caninos temporales para facilitar la erupción de los caninos permanentes.
5. Cuando el ápice del diente estuvo completamente cerrado, se actualizaron los registros fotográficos y pruebas complementarias para la evaluación de la segunda fase de ortodoncia mediante *brackets*.
6. En su momento, se dudó hacia donde mover el incisivo central único para dejar suficiente espacio para rehabilitar el otro incisivo de forma definitiva en el futuro. Para ello se realizaron diversos controles radiográficos periapicales para determinar a qué lado de la sutura media palatina mover el diente que estaba presente en boca (Fig. 2).

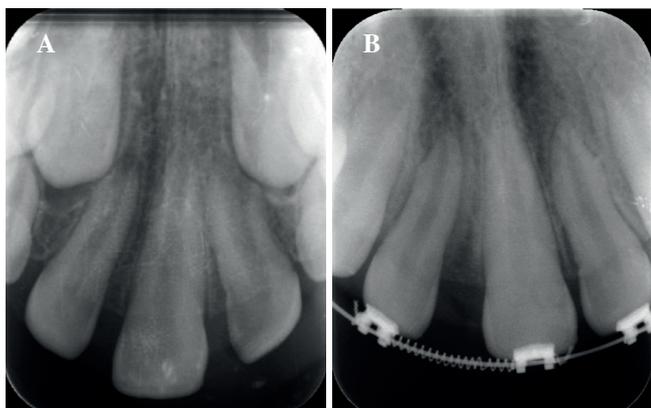


Figura 2. Radiografía periapical con incisivo central único en la línea media para valoración de apertura de espacio con brackets (A); radiografía periapical con brackets en la arcada superior y resorte de apertura de espacio en la zona del diente 1.1 (B).

7. Se consideró un caso sin extracciones, y se colocaron brackets en la arcada superior para abrir el espacio en la zona del diente 1.1 ausente. Un mes después se colocaron brackets inferiores.
8. Una vez conseguido el espacio suficiente se colocó un diente de resina estético con un bracket cementado en sustitución del diente 1.1 (Fig. 3).
9. Tras 24 meses de tratamiento se quitó la ortodoncia superior e inferior y se colocó un arco palatino con un diente de resina en la zona de 1.1. para conservar el espacio hasta que el paciente pudiera valorar una prótesis o implante definitivo (Fig. 4).

les. Estudios recientes han identificado mutaciones en genes como SHH, PAX9 y MSX1, sugiriendo que alteraciones en las rutas de señalización molecular son cruciales para el desarrollo dental y craneofacial (7,11). Además, la exposición a teratógenos durante el embarazo, como el consumo de alcohol y tabaco, se ha asociado con un mayor riesgo de SICMU (12). La interacción entre factores genéticos y ambientales subraya la complejidad de esta condición y la necesidad de investigaciones adicionales para entender completamente su etiología (13).

En este caso, es relevante que la hermana del paciente también presentaba un incisivo único además de fisura en la zona central del paladar, lo que podría determinar la ausencia del incisivo contralateral. Dado que la madre del paciente no realizó ninguna consulta con el genetista, no se ha podido



Figura 3. Brackets en la arcada superior e inferior con diente de resina colocado en el lugar de 1.1.



Figura 4. Vista oclusal de la arcada superior con botón de nance y diente de resina tras finalizar el tratamiento de ortodoncia (A); vista frontal de la arcada superior en inferior en oclusión después de la ortodoncia fija (B); vista oclusal de la arcada inferior con retención fija tras el tratamiento de ortodoncia (C).

10. En su última revisión, un año y medio después de finalizar la ortodoncia, se realiza una ortopantomografía y se remite para extracción de cordales inferiores y valoración para implante dental (Fig. 5).

## DISCUSIÓN

El síndrome del incisivo central maxilar único (SICMU) es una anomalía dental rara y compleja que ha generado diversas teorías sobre su origen. Entre las teorías más destacadas se encuentran las causas genéticas, ambientales y multifactoria-



Figura 5. Ortopantomografía del paciente con retención fija superior e inferior posterior al tratamiento de ortodoncia con brackets.

confirmar este hecho. Sin embargo, al estar presente en ambos hermanos, es una sospecha del origen genético del SICMU.

El tratamiento temprano del SICMU en la consulta de odontopediatría es fundamental debido a las implicaciones estéticas y funcionales que esta anomalía presenta. Los niños en edades tempranas ya experimentan un importante componente social, y la presencia de un único incisivo maxilar puede afectar su autoestima y su integración social (14). La intervención oportuna permite no solo mejorar la apariencia estética, sino también abordar posibles problemas funcionales como dificultades en la masticación y el habla (15). Además, un tratamiento temprano facilita la planificación ortodóntica y otros procedimientos necesarios, mejorando así el pronóstico a largo plazo para el desarrollo oral y la calidad de vida del paciente (16).

Existe discrepancia sobre la expansión maxilar con disyuntores en casos de SICMU con opiniones divididas en la literatura. Algunos estudios abogan por la expansión maxilar temprana para corregir el colapso de la arcada y crear espacio para la colocación de prótesis o implantes en el futuro (17). La expansión rápida del maxilar (ERM) ha mostrado ser efectiva para mejorar el ancho transversal de la arcada y proporcionar un espacio adecuado para el desarrollo dental (18). Sin embargo, otros investigadores sugieren que la expansión puede ser innecesaria o incluso contraproducente en ciertos casos, especialmente si no hay suficiente desarrollo de la sutura media palatina (19). Melsen (20) argumenta que la morfología de la sutura y la maduración esquelética son factores determinantes en la respuesta al tratamiento de expansión maxilar, y que una evaluación detallada es esencial antes de proceder con ERM. En este caso clínico, coincidimos con autores que sí que realizaron la ERM como parte de su tratamiento tales como Pedraza y cols. (1), que realizó la expansión maxilar en un caso similar de incisivo único en un niño de 8 años con resultado favorable.

La decisión de realizar o no la expansión maxilar debe basarse en una evaluación individualizada de cada paciente, considerando factores como la severidad de la anomalía, la edad del paciente y la presencia de otras malformaciones craneofaciales (21). La clasificación de la maduración de la sutura palatina media, propuesta por Angelieri y cols. (22), proporciona una herramienta útil para determinar el momento óptimo para la expansión maxilar, mejorando así los resultados del tratamiento.

En este caso, el paciente presentaba dificultad respiratoria debido además a la obstrucción nasal característica de este síndrome (3,4). Debido a lo anterior, se consideró que la expansión era un procedimiento importante también para la mejora de las vías aéreas y respiración nasal del paciente.

Otras opciones de tratamiento descritas en la literatura incluyen el autotrasplante de otro órgano dental (por ejemplo, un premolar), mimetizar el diente trasplantado y reemplazar el incisivo ausente (23). Una opción más drástica es la extracción del incisivo central único, el cierre de los espacios mediante tratamiento ortodóntico y la posterior rehabilitación de los incisivos laterales con coronas cerámicas, junto con la adaptación estética de los caninos (24).

En este caso tuvimos dudas de hacia dónde mover el incisivo presente en la arcada. No encontramos en la literatura ningún trabajo que determine que una localización sea más favorable que otra por lo que optamos por desplazarlo hacia la zona contraria al mayor espacio disponible para el diente futuro.

## CONCLUSIÓN

El SICMU es una condición compleja con múltiples teorías sobre su origen y diversas consideraciones para su manejo. La intervención temprana en odontopediatría es crucial para abordar tanto las implicaciones estéticas como funcionales de esta anomalía. La decisión sobre la expansión maxilar debe ser cuidadosamente evaluada para cada paciente, y se requiere más investigación para establecer guías claras y efectivas para el tratamiento de esta condición.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Pedraza NM, Esparza LDG, Preciado RM, Berber MAR, Rodríguez MSR, Delgadillo GT, et al. Síndrome del incisivo central maxilar único y el papel del odontopediatra en el manejo interdisciplinario. Reporte de un caso clínico. *Odontol Pediatr* 2018;26:155-66.
2. Hall RK, Bankier A, Aldred MJ, Kan K, Lucas JO, Perks AGB. Solitary median maxillary central incisor, short stature, choanal atresia/midnasal stenosis (SMMCI) syndrome. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endodontology* 1997;84(6):651-62. DOI: 10.1016/s1079-2104(97)90368-1
3. Schneider UEM, Moser L. Orthodontic space closure in a young female patient with solitary median maxillary central incisor syndrome. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2021;160(1):132-46. DOI: 10.1016/j.ajodo.2020.05.018
4. Dean JA, Avery DR, McDonald RE, editores. *McDonald and Avery's dentistry for the child and adolescent*. Tenth edition. St. Louis, Missouri: Elsevier; 2016. pp. 700.
5. Ilhan O, Pekcevik Y, Akbay S, Ozdemir SA, Memur S, Kanar B, et al. Solitary median maxillary central incisor, holoprosencephaly and congenital nasal pyriform aperture stenosis in a premature infant: case report. *Arch Argent Pediatr*. 2018;116(1):e130-e134. DOI: 10.5546/aap.2018.eng.e130
6. Kerekes-Máthé B, Mártha K, Bănescu C, O'Donnell MB, Brook AH. Genetic and Morphological Variation in Hypodontia of Maxillary Lateral Incisors. *Genes* 2023;14(1):231. DOI: 10.3390/genes14010231
7. Cobourne MT, Sharpe PT. Diseases of the tooth: the genetic and molecular basis of inherited anomalies affecting the dentition. *WIREs Dev Biol*. marzo de 2013;2(2):183-212. DOI: 10.1002/wdev.66
8. Nieminen P. Genetic basis of tooth agenesis. *J Exp Zool B Mol Dev Evol* 2009;312B(4):320-42. DOI: 10.1002/jez.b.21277
9. Shapira Y, Lubit E, Kuftinec MM. Hypodontia in Children with Various Types of Clefts. *Angle Orthod* 2000;70(1):16-21. DOI: 10.1043/0003-3219(2000)070<0016:HICWVT>2.0.CO;2
10. American Academy of Pediatric Dentistry. Policy on role of dental prophylaxis in pediatric dentistry. *The Reference Manual of Pediatric Dentistry*. Chicago, Ill.: American Academy of Pediatric Dentistry 2022;67-9.
11. Vieira AR, Wing MR, Marazita ML. Genetic factors in hypodontia and hyperdontia. *Orthod Craniofac Res* 2014;17(2):56-60.
12. Harris EF, Hullings JG. Delayed dental development in children exposed to alcohol pre- and postnatally. *Alcohol Clin Exp Res*. 1993;17(5):1047-51.
13. Shimizu T, Maeda T. Prevalence and genetic basis of tooth agenesis. *Jpn Dent Sci Rev* 2009;45(1):52-8. DOI: 10.1016/j.jdsr.2008.12.001
14. Vieira AR. Genetics of craniofacial development and malformations. *Orthod Craniofac Res* 2003;6 Suppl 1:484-9.

15. Tinanoff N, Reisine S. Update on early childhood caries since the Surgeon General's Report. *Acad Pediatr* 2009;9(6):396-403. DOI: 10.1016/j.acap.2009.08.006
16. Warren JJ, Bishara SE. Duration of nutritive and nonnutritive sucking behaviors and their effects on the dental arches in the primary dentition. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2002;121(4):347-56. DOI: 10.1067/mod.2002.121445
17. Feldens EG, Feldens CA, Kramer PF, da Silva KG, Munari CC, Brei V, et al. Understanding school teacher's knowledge regarding dental trauma: a basis for future interventions. *Dent Traumatol* 2010;26(2):158-63. DOI: 10.1111/j.1600-9657.2009.00863.x
18. Pithon MM, Bernardes LA, Nery MS, et al. Influence of malocclusion on the self-esteem of adolescents. *Angle Orthod* 2014;84(3):518-23.
19. Baccetti T, Franchi L, McNamara JA Jr. The cervical vertebral maturation (CVM) method for the assessment of optimal treatment timing in dentofacial orthopedics. *Semin Orthod* 2005;11(3):119-29. DOI: 10.1053/j.sodo.2005.04.005
20. Melsen B. A histological study of the influence of sutural morphology and skeletal maturation on rapid palatal expansion in children. *Trans Eur Orthod Soc.* 1972;277-94.
21. Kartal Y, Kaya B. Factors affecting the stress distribution in the mid-palatal suture after rapid maxillary expansion. *Orthod Craniofac Res* 2020;23(2):230-6.
22. Angelieri F, Cevidanes LH, Franchi L, Gonçalves JR, Benavides E, McNamara JA Jr. Midpalatal suture maturation: classification method for individual assessment before rapid maxillary expansion. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2013;144(5):759-69. DOI: 10.1016/j.ajodo.2013.04.022
23. Nota A, Ehsani S, Pittari L, Gastaldi G, Tecco S. Rare case of skeletal third class in a subject suffering from Solitary Median Maxillary Central Incisor syndrome (SMMCI) associated to panhypopituitarism. *Head Face Med* 2021; 17:49. DOI: 10.1186/s13005-021-00300-3
24. İlhan O, Pekcevik Y, Akbay S, Ozdemir SA, Memur S, Kanar Bet al. Solitary median maxillary central incisor, holoprosencephaly and congenital nasal pyriform aperture stenosis in a premature infant: case report. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(1):130-4. DOI: 10.5546/aap.2018.eng.e130