

RID

REPORTE

Imagenológico Dentomaxilofacial

ISSN: 2791-1888. e-id: e20230201. Número 1 Volúmen 2 Enero - Junio 2023



**Sociedad Venezolana de
Radiología e Imagenología
Dentomaxilofacial**

REPORTE DE CASO

DISPLASIA ODONTOMAXILAR SEGMENTARIA

SEGMENTAL ODONTOMAXILLARY DYSPLASIA

María Teresa Vinatea Cuenca de Figueroa, Víctor Calderón Ubaqui, Carlos Darío Merino Bustamante, Cecilia Roxana Gonzales Pablo

Especialista en Radiología Bucal y Maxilofacial. Facultad de Estomatología Roberto Beltrán, Universidad Peruana Cayetano Heredia. Lima, Perú. maria.vinatea@upch.pe ORCID: 0000-0002-8514-8586; victor.calderon@upch.pe ORCID: 0000-0002-8514-8586; carlos.merino.b@upch.pe ORCID: 0000-0003-4486-7354; cecilia.gonzales.p@upch.pe ORCID: 0000-0002-3624-0466

Editor Académico: Dra. Maira Quevedo-Piña.

RESUMEN

La displasia odontomaxilar segmentaria (DOMS) es una patología del desarrollo no hereditario y poco común, se caracteriza por la variabilidad de sus características clínicas - radiológicas y puede imitar otras lesiones fibro-óseas. Clínicamente, se diagnostica por una deformación unilateral del maxilar superior, agrandamiento gingival ipsilateral y agenesia de uno o dos premolares. Reportamos un caso de DOMS de un paciente del sexo masculino de 21 años de edad, que presentó asimetría facial del tercio medio izquierdo, hipopigmentación del labio superior izquierdo con discontinuidad en el borde bermellón presentando una comisura desdibujada, hipertricosis orbitaria de lado izquierdo; además, el aumento de volumen en el sentido bucopalatino del maxilar superior izquierdo y un patrón anormal de erupción. Las imágenes radiográficas mostraron las trabéculas óseas en disposición vertical sin evidenciar un límite entre la lámina dura y el hueso medular. Siendo una entidad poco frecuente se analiza la información más actualizada disponible en la literatura.

Palabras clave: Enfermedades del desarrollo óseo, maxilar, deformidades dentofaciales, anomalías dentarias, diagnóstico por imagen (DeSC)

Como citar: Vinatea Cuenca de Figueroa MT, Calderón Ubaqui V, Merino Bustamante CD, Gonzales Pablo CR. Displasia odontomaxilar segmentaria. Rep Imagenol Dentomaxilofacial 2023;2(1):e2023020103

Recibido: 30/11/2022
Aceptado: 15/04/2023
Publicado: 29/06/2023



Sociedad Venezolana de
Radiología e Imagenología
Dentomaxilofacial



REPORTE DE CASO

ABSTRACT

Segmental odontomaxillary dysplasia (SOMD) is a rare and non-inherited developmental pathology characterized by the variability of its clinical and radiological characteristics and can mimic other fibro-osseous lesions. Clinically, it is diagnosed by a unilateral deformation of the maxilla, ipsilateral gingival enlargement and agenesis of one or two premolars. We report a case of SOMD in a 21-year-old male patient, who presented facial asymmetry of the left middle third, hypopigmentation of the left upper lip with discontinuity in the vermilion border presenting a blurred commissure, orbital hypertrichosis on the left side; in addition, the buccopalatal volume increase of the left upper maxilla and an abnormal eruption pattern. The radiographic images showed the bone trabeculae in a vertical position without showing a boundary between the lamina dura and the medullary bone. Being a rare entity, we will analyze the most up-to-date information available in the literature.

Key words: Bone diseases developmental, maxilla, dentofacial deformities, tooth abnormalities, diagnostic imaging.

INTRODUCCIÓN

La displasia odontomaxilar segmentaria (DOMS) es una rara patología del desarrollo que se distingue por presentar defectos madurativos en el hueso, encía y dientes de un cuadrante de la maxila¹. Clínicamente, se suelen presentar tres signos característicos: deformación unilateral de la maxila, agrandamiento gingival ipsilateral y agenesis de uno o dos premolares; así mismo, se ha reportado también ausencia del primer molar. En ocasiones, se asocian con alteraciones faciales tales como borde mucocutáneo del labio superior desdibujado, pigmentación unilateral, eritema, hipopigmentación del labio superior e hipertrichosis². La proporción de hombres y mujeres afectados es de 1.8:1 y a menudo se diagnostica antes de los 9 años. La etiología de la DOMS no está clara debido a que la afección es no hereditaria, considerándose, la posibilidad de mutación somática en el gen PIK3CA¹.

En el año 1987, Miles et al. reportaron dos casos en pacientes niños con asimetría facial congénita, agrandamiento unilateral de la maxila y de la encía correspondiente. Sugiriendo la denominación de Displasia Hemimaxilofacial³. Danforth et al. reportaron

ocho casos con hallazgos similares, pero sin presentar alteraciones cutáneas y sugirieron el término DOMS enfatizando los cambios odontomaxilares mencionados por Miles et al., que siempre están presentes⁴. En el 2004, Welsch y Stein señalaron los cambios dermatológicos que se asocian a esta patología y propusieron una denominación alternativa utilizando la sigla HATS que, en inglés, resume sus principales características: *hemimaxillary enlargement (agrandamiento hemimaxilar)*, *asymmetry of the face (asimetría de la cara)*, *tooth anomalies (anomalías dentales)* and *skin findings (hallazgos cutáneos)*⁵. Minett et al. en el año 2012, señalaron que los cambios cutáneos son más frecuentes en la adolescencia que en la niñez, llegando a la conclusión que esta patología del desarrollo no es estática; sino que, con el paso de los años, se expresan nuevas alteraciones^{6,7}. En el presente reporte se expone el caso de un paciente del sexo masculino de 21 años de edad, con presunción diagnóstica de DOMS, detallándose los aspectos clínicos e imagenológicos de esta entidad patológica del desarrollo.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente de sexo masculino, de 21 años de edad, sin antecedentes médicos personales y familiares relevantes, acude a la Clínica Dental Docente de la Universidad Peruana Cayetano Heredia (CDD-UPCH), referido por el servicio de ortodoncia, por presentar un aumento de tejido óseo, el cual fue incrementando de tamaño en los últimos cinco años.

Al examen clínico extraoral, se observa asimetría facial del tercio medio izquierdo con una marcada prominencia de la zona

canina, una depresión en la zona anterior de la región geniana, hipopigmentación del labio superior izquierdo con discontinuidad en el borde bermellón, presentando una comisura desdibujada e irregular y, la ceja izquierda, ligeramente caudal en comparación a su contralateral. La zona infraorbitaria izquierda muestra hipertrichosis, el ojo izquierdo presenta doble hilera de pestañas tanto superior e inferior (Figuras 1A y 1B).

(A) Hipopigmentación del labio superior

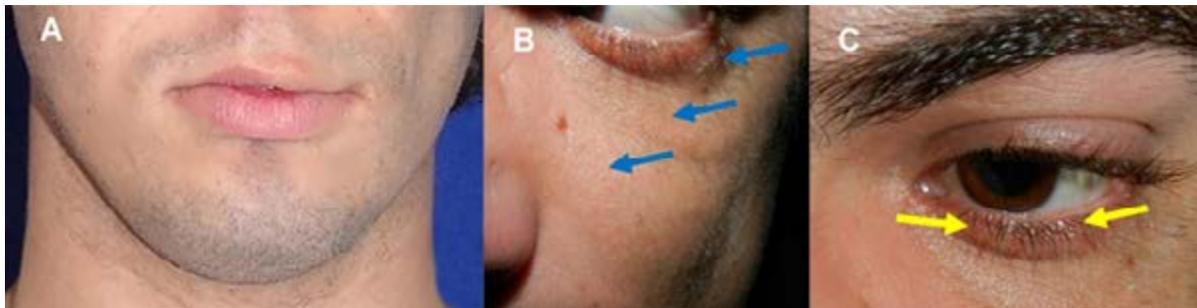


Figura 1. Fotografía extraoral de la región labial y mentoniana, infraorbitaria y palpebral inferior izquierda.

izquierdo con discontinuidad en el borde bermellón y una comisura labial desdibujada e irregular. (B) Hipertrichosis infraorbitaria de lado izquierdo (flechas azules) y región palpebral inferior. (C) Doble hilera de pestañas tanto superior e inferior (flechas amarillas).

Intraoralmente, presenta un aumento de volumen del reborde alveolar vestibular de la pieza dental 2.3 bien delimitado, de superficie regular y de consistencia pétrea, las piezas dentales 2.3 y 2.5 están en infraoclusión, la pieza dental 2.4 se encuentra semi-incluida y giroversada; además, se observa un aumento de volumen en el sentido bucopalatino del maxilar superior izquierdo con la encía hiperplásica y ligeramente eritematosa (Figura 2A y 2B).

Entre los diagnósticos presuntivos, en base a su frecuencia y características clínicas, se

consideró: Displasia fibrosa, Fibroma osificante juvenil, Osteoma central, Osteoblastoma e Hiperplasia hemifacial segmentaria.

A la evaluación de las radiografías panorámica y periapicales se puede observar una alteración de la densidad ósea del hueso alveolar en la zona de piezas 2.3 – 2.6, caracterizada por aumento en su densidad y trabéculas con orientación vertical en patrón de “caída de lluvia”, no se evidencia límite entre la lámina dura y el hueso adyacente; además, se observa desplazamiento cefálico del piso del seno maxilar ipsilateral, la pieza 2.4 en infraoclusión, distoinclinada, en migración mesial y giroversada, la pieza 2.5 se observa mesioangulada (Figura 3, 4A y 4B).

En la Tomografía Computarizada de Haz Cónico (TCHC) se observa que la lesión no pasa la línea media del maxilar superior, genera



Figura 2. Fotografía intraoral lateral izquierda y oclusal superior (A) Aumento de volumen del reborde alveolar vestibular de pieza dental 23, bien delimitado y de consistencia pétrea. Piezas 23, 24 y 25 en infraoclusión. (B) Aumento de volumen en el sentido buccopalatino del maxilar superior izquierdo con la encía hiperplásica y ligeramente eritematosa.

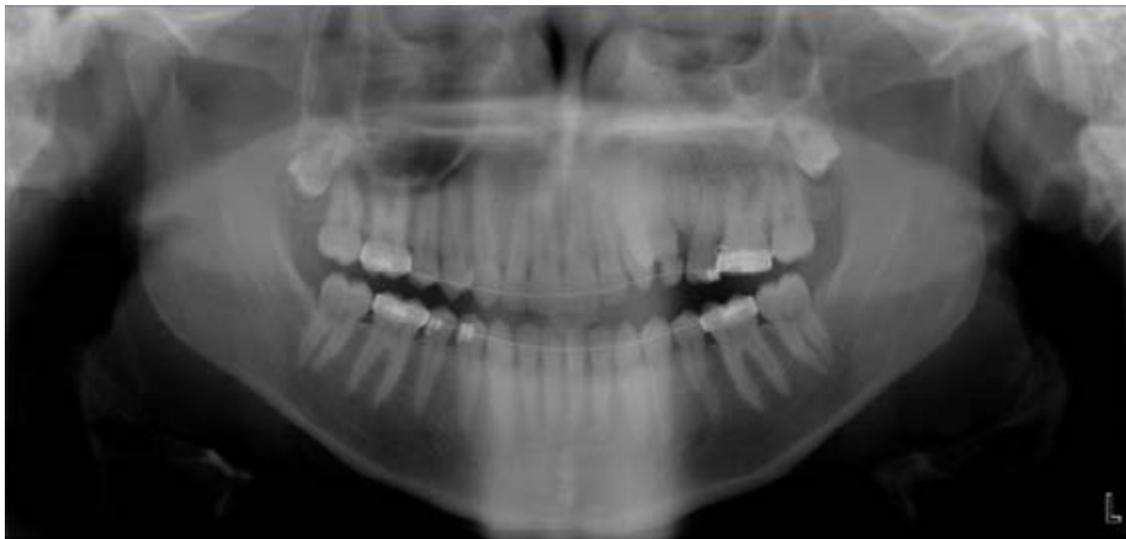


Figura 3. Radiografía panorámica analógica. Aumento de volumen de la densidad ósea del maxilar izquierdo en zona de piezas 2.3-2.4, con desplazamiento del piso del seno maxilar.

aumento en el ancho vestíbulo palatino del reborde alveolar, principalmente, en la zona de canino y premolares; igualmente afecta el hueso alveolar, extendiéndose hasta la apófisis palatina del maxilar. Su aspecto es variado ya que en una zona es un hueso esclerótico, pero en otras, las trabéculas se observan en patrón

“caída de lluvia” sin evidenciar un límite entre la lámina dura y el hueso medular y no afecta la fosa nasal adyacente (Figuras 5A, 5B, 5C, y 5D). Siguiendo con la evaluación imagenológica se le realizó una Gammagrafía Ósea (GO), la cual descartó la presencia de lesiones inflamatorias, traumáticas o de tipo neofornativo en la zona

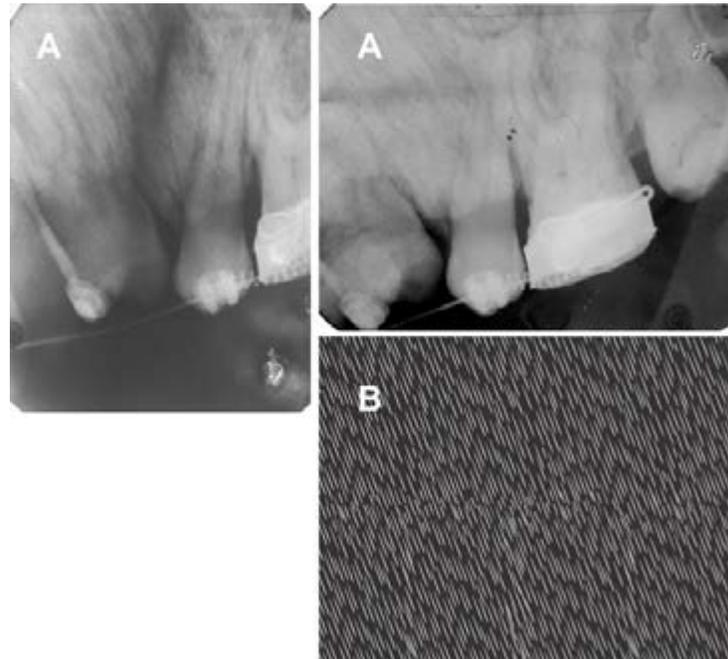


Figura 4. Radiografía periapical analógica de piezas 2.3, 2.4, 2.5, 2.6 y 2.7. (A) Trabéculas óseas con orientación vertical en toda el área, se observa malposición de piezas 2.4 y 2.5. (B) Patrón "caída de lluvia".

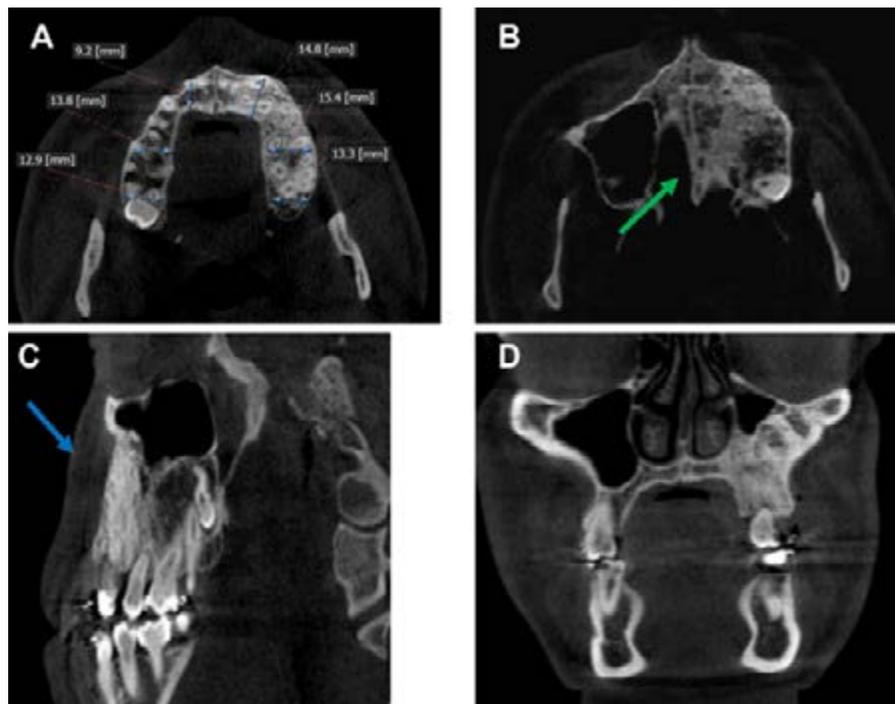


Figura 5. Tomografía Computarizada de Haz Cónico. (A) Corte axial del tercio medio radicular del cuadrante I y II: aumento del ancho vestibulo-palatino del reborde alveolar izquierdo a comparación del derecho. (B) Corte axial a nivel de la apófisis palatina: la alteración ósea se extiende hasta la apófisis palatina. (C) Corte sagital a nivel de piezas 2.4,2.5,2.6,2.7,2.8: el hueso esclerótico no cruza la línea media y desplaza el piso del seno maxilar. (D) Corte coronal a nivel de piezas 1.5 y 2.5: orientación vertical de las trabéculas óseas hasta la zona de la pieza 2.6.

estudiada y en el resto del cuerpo (Figura 6).

Todos estos signos imagenológicos nos llevan a pensar en una DOMS por el aspecto de las trabéculas óseas con orientación vertical en patrón de “caída de lluvia” y la no captación del radionúclido en la GO que no es típico de ninguna otra lesión ósea. Por su parte, los

análisis de laboratorio indicaron valores dentro de lo normal en hemograma, fósforo inorgánico, fosfatasa alcalina y calcio. Finalmente, se realizó una biopsia incisional de la lesión cuyo diagnóstico definitivo fue DOMS. A los 3 meses se le realizaron controles radiográficos sin evidenciar cambios en la lesión.

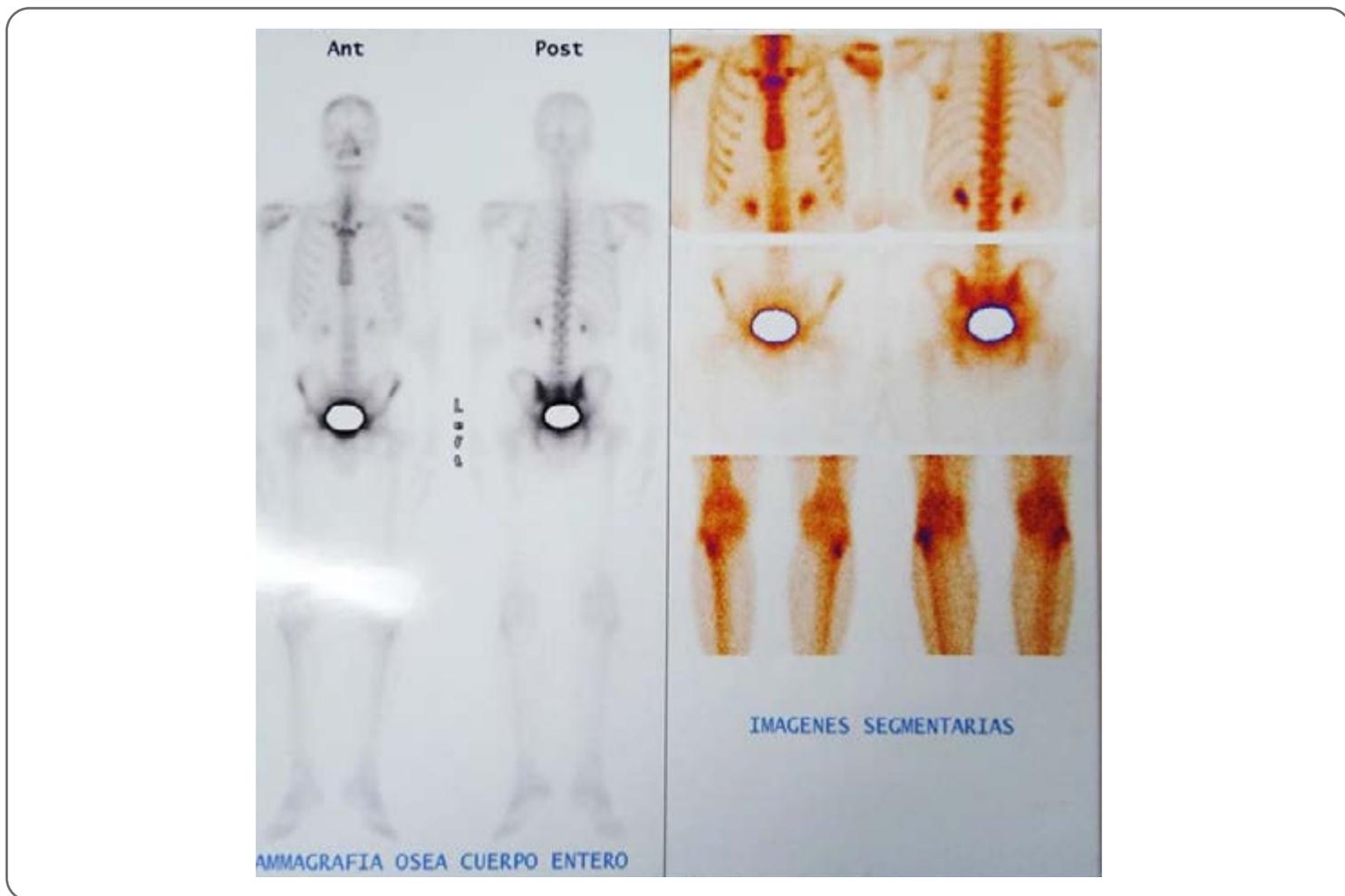


Figura 6. Gammagrafía ósea de cuerpo entero con tecnecio-99m (Tc-99m) obtenida a 2 horas de la administración intravenosa (IV).

DISCUSIÓN

Con relación a la etiología de la DOMS no está del todo clara, el diagnóstico está basado en las características clínicas mencionadas y sus características radiográficas e histológicas. Sin embargo, han surgido ciertos autores que proponen una etiología de antecedentes de

infecciones virales o bacterianas, así como alguna anomalía local del desarrollo en el útero, las cuales pudieran ser los factores etiológicos de la condición, donde, principalmente, se ve afectada la rama maxilar del nervio trigémino⁸. En la anamnesis, el paciente no refirió

antecedentes de origen infeccioso relevantes, pero no podría descartarse que hayan ocurrido.

En los últimos años se ha estudiado la posibilidad de la mutación somática en uno de los genes relacionados al sobrecrecimiento como mecanismo causal, identificando dicha alteración en el gen PIK3CA. Las mutaciones somáticas del gen PIK3CA ocurren, comúnmente, en muchos cánceres humanos incluidos los de mama y colon, al igual que, en trastornos de crecimiento excesivo¹. En el caso presentado, se investigó la no existencia de un patrón hereditario, así como lo reportado en la literatura¹. En cuanto a la incidencia, tal como lo indica la evidencia científica es de ocurrencia esporádica, coincidente con este caso. En relación a su afectación, se ha reportado que puede presentarse en ambos lados del maxilar⁹; en contraposición en el paciente de este reporte que solo afectó el lado izquierdo.

Comparando el caso con la evidencia actual de la literatura, presenta las características clínico-imagenológicas de la DOMS. Las manifestaciones cutáneas observadas conducen a un diagnóstico presuntivo de DOMS tal como lo refiere la evidencia científica^{10,11}. El paciente presenta las características clínicas de esta patología tales como: asimetría facial leve y no progresiva con depresión levemente dibujada en la zona mucocutánea, pérdida o discontinuidad localizada del borde del bermellón, comisura labial desdibujada, hipertrichosis (característica del nevus pigmentado de Becker)¹². Igualmente, se observa afectación maxilar gíngivo-dento-alveolar desde la eminencia canina en sentido anterior hasta la tuberosidad maxilar en la parte posterior, con una conformación atípica de la corona del incisivo lateral y un patrón anormal de erupción¹³. El reconocimiento temprano de esta condición es importante para diagnosticar y tratar de manera óptima al paciente, permitiendo el acceso a cuidados dentales especiales que incluyen ortodoncia,

cirugía oral y rehabilitación de tipo protésica e implantológica¹⁴.

Diversos autores^{13,15,16} coinciden en la etiología desconocida de esta patología y su presencia en edades tempranas entre 6-17 años, esto puede afectar un segmento del maxilar generando ausencia de premolares o retraso en la erupción. El estudio imagenológico con radiografías y tomografía computarizada sin contraste (ventana para tejidos duros), evidencia la alteración en la densidad ósea localizada siempre en el maxilar, de límites difusos, que afectan el seno maxilar adyacente, sin llegar a línea media, siendo poco deformantes, pero sí autolimitantes a temprana edad en contraposición a las lesiones fibro-óseas. Los hallazgos señalados coinciden con el caso presentado, donde se observa en el tejido óseo trabéculas verticales con una angulación entre 25° a 45°, en disposición paralela, con una apariencia de patrón “caída de lluvia”; sin embargo, por tratarse de una TCHC no se realizó el estudio de las Unidades Hounsfield (UH) ni evaluación con contraste para evidenciar los tejidos blandos circundantes, estudios que hubiesen aportado mayor información para el diagnóstico definitivo.

Diversos términos se han utilizado para describir el aspecto óseo de la DOMS, Kuklani¹⁷ y Kamburogly¹⁸ han realizado revisiones desde el año 1987 hasta el 2020, reportando 65 casos que nombran distintas maneras para describirla: hueso esclerótico, trabécula engrosada, trabéculas verticales, opacidad mal definida, entre otros. Los aspectos mayormente reconocidos, son las trabéculas engrosadas y verticales respectivamente. Becktor et al.¹⁹, indica que el radionúclido utilizado en GO de uno de sus pacientes, no reveló actividad patológica. Esto coincidiría con el caso presentado ya que la disposición vertical de las trabéculas óseas en patrón de “caída de lluvia” es uno de los signos patognomónicos

de la DOMS. De manera similar, los resultados de la GO coinciden, por lo que se sugiere, si fuera posible, ante el descarte de lesiones como displasia fibro-óseas polioestóticas, el uso de esta técnica imagenológica nos podría acercar al diagnóstico definitivo.

Los diagnósticos diferenciales que se tiene en cuenta con relación a la DOMS son: Displasia fibrosa monostótica, Hiperplasia hemifacial segmentaria, Síndrome de HATS, enfermedad de Paget y el síndrome de Maccune – Albright.

En cuanto a la Displasia fibrosa monostótica, se presenta el patrón de vidrio esmerilado o piel de naranja y se visualiza una apariencia granular del hueso, el cual es diferente al patrón óseo observado en los estudios imagenológicos del paciente donde se observa una disposición de las trabéculas con orientación vertical y paralelas. Al estudio con GO, en la displasia fibrosa monostótica se observa gran captación del radionúclido, y en este reporte no se evidenció captación por parte del paciente. Otro aspecto importante es que en el 85% de los pacientes con Displasia fibrosa monostótica están elevados los valores de la fosfatasa alcalina sérica²⁰, en contraposición con los valores normales para este examen de laboratorio que se evidenciaron en el paciente.

La hiperplasia hemifacial segmentaria se caracteriza por un aumento de volumen generalizado en una hemicara. Es decir: hiperplasia de la mitad de la lengua del lado afectado, discrepancias entre los cóndilos, ramas y cuerpos mandibulares del lado afectado y un desarrollo acelerado de las piezas dentarias en comparación con el lado sano²¹, signos no encontrados en el presente caso.

El síndrome de HATS, recibe su nombre de las siglas en inglés que describen su cuadro clínico, H: por el aumento de volumen hemimaxilar, A: de asimetría facial, T: por la presencia de anomalías dentales (teeth en inglés), S: por hallazgos en la piel (skin en inglés). El hallazgo

en la piel se refiere al nevo de Becker. El nevo de Becker es una melanosis hipertricósica con localización más frecuente en el hombro o pecho. Debido a que el nevo de Becker suele estar fuera de los límites del examen clínico de rutina, debe considerarse al síndrome de HATS como un diagnóstico diferencial²².

Clínicamente, la enfermedad de Paget se caracteriza por un aumento de volumen que involucra todo el hueso, de presentación bilateral, diferente a la presentación unilateral de nuestro caso. Imagenológicamente, el patrón óseo que observamos en la enfermedad de Paget suele ser de tipo “algodonoso” generalizado con presencia de Hiper cementosis, el paciente de este reporte difiere en estas dos características; además, el grupo etario involucrado en la Enfermedad de Paget está principalmente en la cuarta década, a diferencia de la DOMS que afecta a niños y adolescentes. Un aspecto importante son los valores de fosfatasa alcalina sérica que están elevados en los pacientes con enfermedad de Paget²³, a diferencia del presente caso, en el cual se realizaron los exámenes de laboratorio para evaluar la fosfatasa alcalina, obteniéndose valores normales.

El síndrome de Maccune – Albright se caracteriza por la triada compuesta por: displasia fibrosa, máculas cutáneas de color café con leche y pubertad precoz, el patrón óseo es de vidrio esmerilado o piel de naranja (característicos de displasia fibrosa). Las pigmentaciones pueden encontrarse en zonas donde el examen clínico de rutina no suele llegar, como la espalda baja y la zona perianal²⁴. Las tres particularidades resaltantes de esta entidad patológica no se observaron en el paciente.

Respecto al tratamiento de la DOMS existen pocos estudios publicados con seguimiento a largo plazo, por lo que, no se podría proponer un esquema terapéutico estándar. El tratamiento va a depender, básicamente, de las manifestaciones más relevantes que

se presenten en cada caso. En general, los objetivos que se buscan al abordar estas lesiones son: devolver la oclusión funcional del lado afectado y restaurar la armonía estética del tercio medio de la cara, empleando para ello, ortodoncia, cirugía y/o prótesis dentales. Si bien es cierto, en la literatura hay evidencias de tratamientos ortodóncicos y rehabilitaciones protésicas implantosoportadas exitosas², debe tenerse en consideración la posible presencia de miofibroblastos en el hueso perirradicular y en la pulpa de los dientes afectados, ya que, estas células están involucradas en la reabsorción radicular y ósea observada en la

DOMS⁹. Un estímulo exagerado podría producir una necrosis con el consiguiente perjuicio del paciente e incluso llegar a un desenlace fatal, por lo que se podría recomendar, en ciertos casos, no realizar ningún tratamiento, a menos que haya un compromiso funcional extenso.

CONCLUSIÓN

La DOMS es una patología rara que se presenta en pacientes jóvenes y de etiología desconocida. Imagenológicamente, el signo más característico de la DOMS es el trabeculado óseo con orientación vertical en forma de “caída de lluvia”, junto con disminución del tamaño del seno maxilar afectado, retraso en la erupción de piezas dentales, entre otros. El diagnóstico diferencial incluye patologías como: displasia fibrosa monostótica, hiperplasia hemifacial segmentaria, síndrome de HATS, la enfermedad de Paget y el síndrome de Maccune – Albright. El tratamiento de esta patología será multidisciplinario y dependerá del grado de afección dental, ósea y/o cutánea de cada caso.

Conflicto de intereses: los autores declaran que no tienen conflicto de interés con este trabajo.

Autor de correspondencia:

María Teresa Vinatea Cuenca de Figueroa:
calle Hermanos, Catarí 430. San Miguel.
Lima, Perú. maria.vinatea@upch.pe

REFERENCIAS

1. Gibson TM, Rafferty K, Ryan E, Ganguly A, Koutlas IG. Segmental Ipsilateral Odontognathic Dysplasia (Mandibular Involvement in Segmental Odontomaxillary Dysplasia?) and Identification of PIK3CA Somatic Variant in Lesional Mandibular Gingival Tissue. *Head Neck Pathol.* 2020;4:1-6. DOI: 10.1007/s12105-020-01185-5
2. Castaño P, Varela I, Limeres J, Diniz M, Abeleira MT, Outumuro M, et al. Case report of segmental odontomaxillary dysplasia with cutaneous manifestations. *Eur J Paediatr Dent.* 2020 Sep;21(3):235-237. DOI: 10.23804/ejpd.2020.21.03.14
3. Miles DA, Lovas JL, Cohen MM Jr. Hemimaxillofacial dysplasia: a newly recognized disorder of facial asymmetry, hypertrichosis of the facial skin, unilateral enlargement of the maxilla, and hypoplastic teeth in two patients. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987; 64(4): 445-8. DOI: 10.1016/0030-4220(87)90150-2
4. Danforth RA, Melrose RJ, Abrams AM, Handlers JP. Segmental odontomaxillary dysplasia. Report of eight cases and comparison with hemimaxillofacial dysplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1990;70(1):81-5. DOI: 10.1016/0030-4220(90)90183-s
5. Welsch MJ, Stein SL. A syndrome of hemimaxillary enlargement, asymmetry of the face, tooth abnormalities, and skin findings (HATS). *Pediatr Dermatol* 2004;21(4): 448-51. DOI: 10.1111/j.0736-8046.2004.21405.x
6. Minett CP, Daley TD. Hemimaxillofacial dysplasia (segmental odontomaxillary dysplasia): case study with 11 years of follow-up from primary to adult dentition. *J Oral Maxillofac Surg* 2012;70(5):1183-91. DOI: 10.1016/j.joms.2011.02.114
7. Smith MH, Cohen DM, Katz J, Bhattacharyya I, Islam NM. Segmental odontomaxillary dysplasia: An underrecognized entity. *J Am Dent Assoc.* 2018 Feb;149(2):153-162. DOI: 10.1016/j.adaj.2017.08.007
8. Agrawal A, Daniel J, Vijeve V. Segmental odontomaxillary dysplasia. *J Indian Soc Pedod Prev Dent.* 2014 Jan-Mar;32(1):83-6. DOI: 10.4103/0970-4388.127071
9. Azevedo RS, da Silveira LJ, Moliterno LF, Miranda ÂM, de Almeida OP, Pires FR. Segmental odontomaxillary dysplasia: report of a case emphasizing histopathological, immunohistochemical and scanning electron microscopic features. *J Oral Sci.* 2013 Sep;55(3):259-62. DOI: 10.2334/josnusd.55.259
10. Rossi, L. Moneghini, V. Capilupi, T. Anello, E. Corsi, A. Tregambi, D. et al. Displasia odontomaxillare segmentale: revisione della letteratura e descrizione del primo caso italiano. *Dental Cadmos.* 2016;84(4):202-210.
11. Yassin OM, Rihani FB. Combined cutaneous findings with segmental odontomaxillary dysplasia: Review of the literature and proposal of a new clinical classification. *Int Med Case Rep J.* 2008 Nov 18; 1:7-11. DOI: 10.2147/imcrj.s4045
12. Shah A, Latoo S, Ahmed I, Malik AH, Hassan S, Bhat A, et al. Midline segmental odontomaxillary dysplasia. *Ann Maxillofac Surg.* 2012 Jul;2(2):185-9. DOI: 10.4103/2231-0746.101358
13. Whitt JC, Rokos JW, Dunlap CL, Barker BF. Segmental odontomaxillary dysplasia: report of a series of 5 cases with long-term follow-up. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2011 Aug;112(2):e29-47. DOI: 10.1016/j.tripleo.2011.03.013
14. Brenes VK, Castro MS, Ulate JJ. Displasia odontomaxilar segmentaria en el paciente pediátrico: Reporte de un caso. *Odovtos-Int J Dent Sc.* 2016;18(1E):53-60.
15. Friedlander-Barenboim S, Kamburoğlu K, Kaffe I. Clinical and radiological presentation of hemimaxillofacial dysplasia/segmental odontomaxillary dysplasia: critical análisis and



report of a case. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol. 2012; 113(2):268-73. DOI: 10.1016/j.tripleo.2011.03.051

16. Neville B, Damm D, Allen D, Chi A. Oral and maxillofacial pathology. 4th ed. Missouri: Elsevier, 2016.

17. Kuklani R, Nair M. Segmental odontomaxillary dysplasia: Review of the literature and case report. Int J Dent. 2010; 2010: 837283. DOI: 10.1155/2010/837283

18. Kamburoglu K, Karsli N, Koklu A, Gunhan O. Hemimaxillofacial dysplasia/segmental odontomaxillary dysplasia (HD/SOD): an updated review of 65 cases and report of an unusual new case. Int J Oral Dent Health. 2020;6(4):1-10. DOI: 10.23937/2469-5734/1510122

19. Becktor K, Reibel J, Vedel B, Kjaer I. Segmental odontomaxillary dysplasia: clinical, radiological and histological aspects of four cases. Oral Dis. 2002; 8(2):106-10. DOI: 10.1034/j.1601-0825.2002.1c773.x

20. Kose TE, Dincer Kose O, Erdem MA, Cankaya AB, Ozcan Duman I. Monostotic fibrous dysplasia presenting in maxilla: a case report. J Istanbul Univ Fac Dent. 2016;50(2):38-42. DOI: 10.17096/jiufd.99328

21. Dattani A, Heggie A. Hemifacial hyperplasia: a case series and review of the literature. Int J Oral Maxillofac Surg. 2020;(20)1-8. DOI: 10.1016/j.ijom.2020.05.008

22. Alakeel A. Hemimaxillary Enlargement, Asymmetry of the Face, Tooth Abnormalities, and Skin Findings (HATS) Syndrome: A Case Report and Review of the Literature. Cureus. 2020 May 16;12(5):e8159. DOI: 10.7759/cureus.8159

23. Corral Gudino L. Protocolo diagnóstico y tratamiento de la enfermedad de Paget, Medicine. 2016; 12(16):920-924.

24. Morata Alba J, Morata Alba L, Díez Gandía E. ¿Qué puede ocultar una mancha café con leche?. Rev Pediatr Aten Primaria. 2018;20:371-4.

