



ZESPÓŁ POJEDYNCZEGO SIEKACZA W SZCZĘCE – OPIS PRZYPADKU I PRZEGLĄD PIŚMIENNICTWA

Solitary median maxillary central incisor syndrome –
a case report and literature review



Mirella Czapska¹, Kamila Babkiewicz-Jahn²

1. Poradnia, NZOZ Eskulap, Lublin, Polska
2. 1. Wojskowy Szpital Kliniczny z Polikliniką SPZOZ w Lublinie, Polska

Mirella Czapska – 0000-0003-4736-2239

Kamila Babkiewicz-Jahn – 0009-0001-1597-273X

Streszczenie

Wstęp: Zespół pojedynczego siekacza szczęki występuje rzadko. Dostępne są nieliczne doniesienia na jego temat w literaturze. Jest to wada wrodzona, która dotyczy uzębienia mlecznego i stałego. Rzadko występuje w sposób izolowany, zwykle jest to zespół objawów ogólnych. **Cel:** Celem pracy było zebranie doniesień na temat zespołu pojedynczego siekacza i prześledzenie tych doniesień w kontekście przypadku z doświadczenia własnego. **Materiał i metody:** Istniejące w literaturze doniesienia na temat zespołu pojedynczego siekacza szczęki wraz z przedstawionymi w literaturze opisami przypadków. Obserwacja pacjenta (przypadek własny) na podstawie badania ogólnoustrojowego, stomatologicznego oraz radiologicznego. **Wyniki:** Opisany przypadek to potwierdzony badaniami stomatologicznymi oraz radiologicznymi zespół pojedynczego siekacza szczęki. Występują w nim charakterystyczne dla zaburzenia objawy w obrębie jamy ustnej, a przeprowadzony jednocześnie wywiad ogólnoustrojowy potwierdza objawy występujące poza jamą ustną. **Wnioski:** Zespół pojedynczego siekacza szczęki to rzadko występujące zaburzenie w linii pośrodkowej ciała, które zwykle nie jest izolowanym zaburzeniem genetycznym. Mnogość objawów i nieprawidłowości w obrębie całego organizmu wymusza interdyscyplinarne i indywidualne podejście do pacjenta.

Abstract

Introduction: Solitary median maxillary central incisor syndrome is rare, with only single reports in the literature. This congenital defect affects both primary and permanent teeth. It is rarely an isolated anomaly, but usually a set of general symptoms. **Objectives:** The aim of the study was to collect reports on single incisor syndrome and analyze them in the context of our own case. **Materials and methods:** We assessed available literature reports on solitary median maxillary central incisor syndrome, including case reports. We also presented our own case based on systemic, dental, and radiological examination. **Results:** The described case was a single maxillary incisor syndrome confirmed by dental and radiological examinations. The patient presented with oral symptoms typical of the disorder, and a systemic interview confirmed extraoral symptoms. **Conclusions:** Solitary median maxillary central incisor syndrome is a rare midline defect that is usually not an isolated genetic disorder. The multitude of symptoms and disorders throughout the body requires an interdisciplinary and individualized approach to the patient.

Słowa kluczowe: zespół pojedynczego siekacza szczęki; zaburzenia genetyczne; anomalie zębowe

Keywords: solitary median maxillary central incisor; genetic disorders; dental anomalies

DOI 10.53301/lw/190435

Praca wpłynęła do Redakcji: 20.06.2024

Zaakceptowano do druku: 25.06.2024

Autor do korespondencji:

Mirella Czapska
Poradnia, NZOZ Eskulap, Lublin,
ul. Turkusowa 12, 21-002 Lublin
e-mail: mdczapska@gmail.com

Wstęp

Zespół pojedynczego środkowego siekacza szczęki (ang. *solitary median maxillary central incisor syndrome*, SMMCIS) to zaburzenie, dotyczące pośrodkowych struktur ciała, głównie głowy. Jest rzadko występującą wadą wrodzoną, dla której charakterystyczny jest

pojedynczy środkowy siekacz szczęki. Wada ta może dotyczyć zarówno uzębienia mlecznego, jak i stałego. Jest ona związana z nieprawidłowym rozwojem przedśionka jamy ustnej i twarzy. To rzadkie zaburzenie może stanowić wyzwanie diagnostyczne i terapeutyczne, a jednocześnie wymaga podejścia interdyscyplinarnego [1].

Epidemiologia

SMMCIS w literaturze medycznej jest relatywnie rzadko przedstawiany ze względu na rzadkość jego występowania. Istnieją jednak pojedyncze doniesienia na jego temat [2].

Zespół ten najczęściej jest diagnozowany w okresie wczesnego dzieciństwa i może dotyczyć uzębienia zarówno mlecznego, jak i stałego. Częstość jego występowania jest szacowana na 1 na 50 000 – 100 000 urodzeń [3]. Istnieją dane dotyczące różnic w częstości występowania SMMCIS w różnych grupach etnicznych [3]. Epidemiologia tego zaburzenia opiera się głównie na pojedynczych doniesieniach i opisach przypadków w literaturze medycznej, dlatego ciężko jest dokładnie określić częstość tej wady oraz jej rozkład populacyjny lub etniczny [3].

Etiologia

SMMCIS jest rzadką anomalią, powodowaną przez różne czynniki etiologiczne, do których należą mutacje genetyczne, ekspozycja na czynniki środowiskowe lub inne czynniki rozwojowe. Jest to zespół wad wrodzonych, na które składają się liczne wady dotyczące głównie środkowych części ciała. Spowodowane są one działaniem nieznanego czynnika [4].

Zespół ten jest zwykle uważany za wadę genetyczną, która może wynikać z mutacji genowych. W literaturze opisano kilka mechanizmów, które mogą być przyczyną wystąpienia tego zaburzenia. Za najbardziej istotne podaje się:

- Mutacje zmiany sensu w genie SHH w locus 7q36;
- Mutacje genów Homeobox (HOX). Geny te odpowiadają za regulację wzrostu i różnicowania komórek podczas rozwoju zarodkowego, w tym zębów;
- Mutacje genów kontrolujących ruchy środkowej linii twarzy. Zaburzenia w obrębie tych genów podczas rozwoju zarodkowego mogą prowadzić do defektów w budowie przedniej części twarzy;
- Czynniki genetyczne związane z siekaczami szczęki. Nieprawidłowości w działaniu tych genów mogą powodować SMMCIS. Wystąpienie pojedynczego siekacza może być zaburzeniem w procesie morfogenezy zębów;
- Ekspresję genów w okresie zarodkowym. Istotne badania w tym zakresie dotyczą ekspresji genów w okresie rozwoju embrionalnego. Nieprawidłowa ekspresja genów w określonym czasie i miejscu podczas rozwoju zarodkowego może przyczyniać się do wystąpienia wady w budowie szkieletu twarzy, w tym również SMMCIS [4, 5].

Za najbardziej prawdopodobne przyczyny omawianej wady rozwojowej uważa się występujące pomiędzy 35. a 38. dniem życia płodowego nieprawidłowości w migracji mezodermy w obrębie wyrostka czołowo-nosowego oraz jej łączenia w linii pośrodkowej [6, 7].

SMMCIS może być dziedziczony autosomalnie dominująco. Istnieją związki pomiędzy tym zaburzeniem a innymi zespołami i wadami genetycznymi. Autorzy opisów przypadków podają, iż SMMCIS kojarzony jest zespołem Pallistera-Hall powodowanym mutacją w genie GLI3. W niektórych przypadkach mogą wystąpić mutacje spon-

taniczne, powodujące zespół SMMCIS niezależne od występowania wad w rodzinie [5].

Objawy kliniczne

Podstawowym objawem SMMCIS jest obecność pojedynczego siekacza w linii pośrodkowej szczęki. Zamiast dwóch zębów siecznych centralnych chorzy posiadają jeden ząb w pośrodkowej lokalizacji. Ząb posiada koronę symetryczną [8].

Poza podstawowym i najbardziej oczywistym objawem chorzy na SMMCIS mogą mieć wiele innych zaburzeń dotyczących twarzoczaszki. Cechy dymorficzne w obrębie twarzy mogą być różne u różnych pacjentów. Do najczęściej występujących należą:

- Zmiany w strukturze nosa, np. zmiana jego kształtu, szeroki grzbiet, zaokrąglony koniuszek czy inne odstępstwa od prawidłowej budowy, malformacje nosa w postaci atrezji nozdrzy tylnych, stenoza otworu gruszkowatego (w około 90%).
- Zmiany w budowie warg, zwykle wady wargi górnej: zmiana kształtu, nietypowe cechy w obrębie czerwieni wargowej.
- Asymetrie lub zmiany w budowie twarzy: zmiany kształtu kości policzkowych, zmiany w budowie podbródka w postaci mikrognacji (hipoplazji żuchwy).

Poza nieprawidłowością siekaczy centralnych w szczęce mogą również pojawić się inne anomalie zębowe, w postaci nieprawidłowego położenia innych zębów, nieprawidłowej ich liczby oraz hipodoncji [9, 10]. Wady w liczbie i ułożeniu zębów generują problemy zgryzowe u pacjentów z SMMCIS.

Poza objawami związanymi z anomaliami w obrębie twarzoczaszki mogą pojawić się zaburzenia dotyczące różnych układów, najczęściej serca, układu moczowego, układu nerwowego [11]. Różne wady rozwojowe związane z SMMCIS generują problemy z układem słuchowym, wpływają na rozwój mowy oraz na funkcje żucia [12].

Wady strukturalne ucha środkowego, pojawiające się z zespołem SMMCIS w postaci malformacji kości słuchowych lub narządów słuchowych, mogą powodować zaburzenia przewodzenia dźwięków i wpływają na słuch. U niektórych pacjentów może wystąpić niedorozwój struktur słuchowych, co prowadzi do deficytów słuchowych obserwowanych zwłaszcza w dzieciństwie.

U pacjentów z SMMCIS obserwujemy zaburzenia fonacyjne. Wynikają one z nieprawidłowości w budowie twarzoczaszki, takich jak hipoplazja nosa, zaburzenia w budowie podbródka, w układzie oddechowym. Pacjenci z tym zespołem mogą mieć rozszczep podniebienia, co dodatkowo powoduje trudności w rozwoju mowy. Te wszystkie zaburzenia mogą powodować problemy z artykulacją dźwięków.

Istotny wydaje się wpływ SMMCIS na funkcje żucia. Znaczenie mają tu potencjalne skutki strukturalne SMMCIS dla układu stawowo-więzadłowego żuchwy oraz ogólnej budowy jamy ustnej. Na funkcję żucia będą miały wpływ niewątpliwie wady rozwojowe w obrębie jamy ustnej, takie jak anomalie zębowe, hipodoncja,

wady zgryzu, hipoplazja podniebienia. Wszystkie te nieprawidłowości wpływają na sposób żucia pokarmów. Chorzy mają szczególnie trudności w żuciu twardych pokarmów lub pokarmów wymagających długiego żucia. To z kolei generuje nieprawidłowe obciążania istniejącego układu zębów oraz stymuluje powstawanie wad zgryzu [12].

Inne zaburzenia rozwojowe mogące współwystępować z zespołem SMMCIS to m.in. wrodzone wady serca (25% przypadków), w tym tetralogia Fallota (15% przypadków), skolioza (14% przypadków), atrezja przełyku (10% przypadków), hipoplazja obojczyków, anosmia, brak nerki, niedoczynność tarczycy oraz przewlekła niewydolność przedniego płata przysadki mózgowej, wady rozwojowe mózgowia, łagodne lub ciężkie upośledzenia umysłowe (50%). SMMCIS współtowarzyszy w 50% przypadków niskorosłość [13].

Leczenie

Leczenie pacjentów z SMMCIS wymaga podejścia interdyscyplinarnego. Zespół powinien składać się ze stomatologa, ortodonta, logopedy i laryngologa.

Chory z SMMCIS wymaga często ustawienia zębów i korekcji zgryzu przez ortodonta. W terapii mowy, oddechu, zaburzeń żucia potrzebna jest współpraca logopedy, ortodonta i otolaryngologa. Niekiedy pacjenci wymagają interwencji chirurgicznej. Jest ona wskazana w przypadku wad strukturalnych twarzoczaszki [14].

Opis przypadku

10-letni chłopiec został przyjęty w poradni stomatologicznej w celu ustalenia rozpoznania zaistniałych nieprawidłowości oraz ewentualnego skierowania na leczenie do poradni specjalistycznej. Pacjent charakteryzował się prawidłowym rozwojem psychosomatycznym. W wywiadzie nie odnotowano chorób przewlekłych ani leków przyjmowanych na stałe. W okresie letnim występowały obserwowane przez mamę alergie na trawy, niepotwierdzone właściwymi badaniami. Według przekazu mamy chłopiec nie przeżył urazów w okresie wczesnego dzieciństwa dotyczących okolic jamy ustnej lub mama ich nie pamięta. Dziecko wyraża chęć leczenia z powodów estetycznych oraz problemów społecznych w szkole.

Materiały i metody

Do analizy przypadku wykorzystano materiał uzyskany podczas wizyty pacjenta w poradni stomatologicznej. Do opisu przypadku wykorzystano dane z wywiadu stomatologicznego i ogólnomedycznego, dokumentację radiologiczną oraz zdjęcia zewnątrzustne i wewnątrzustne pacjenta.

Wyniki

U pacjenta zaobserwowano cechę charakterystyczną dla SMMCIS: obecność pojedynczego środkowego siekacza szczęki w uzębieniu stałym (ryc. 1). Korona pojedynczego siekacza górnego jest symetryczna. Obserwując siekacz centralny, można zauważyć brak zróżnicowania kątów siecznych. Oba kąty przypominają kąt dystalny prawidłowego siekacza (ryc. 2 i ryc. 3)



Rycina 1. Zdjęcie zewnątrzustne z widocznym pojedynczym siekaczem szczęki



Rycina 2. Model szczęki pacjenta z widocznym pojedynczym siekaczem centralnym szczęki



Rycina 3. Zestawienie modeli szczęki i żuchwy badanego pacjenta. Na zdjęciu pantograficznym widoczny pośrodkowo położony pojedynczy siekacz środkowy. Poza tą wadą obecne są zawiązki wszystkich zębów stałych, łącznie z zębami ósmymi w łuku górnym i dolnym (ryc. 4)



Rycina 4. Pantomogram badanego pacjenta

Charakterystyczne zmiany w tkankach miękkich w obrębie jamy ustnej to brak wędzidełka wargi górnej i brodawki przysiecznej, a w budowie szczęki – kształt V podniebienia łuku zębowego. U pacjenta występuje dodatkowo wydatny wał w linii pośrodkowej podniebienia twardego i niedobór wzrostu na szerokość. W wyglądzie zewnętrznym można stwierdzić anomalie w postaci niewyraźnej rynienki podnosowej i łukowatego zarysu wargi górnej.

Dyskusja

SMMCIS jest rzadko spotykaną nieprawidłowością, która zwykle nie występuje jako izolowana wada genetyczna [15–19]. Zespół ten część autorów klasyfikuje jako wyodrębnioną jednostkę chorobową [20, 21], częściej jednak jest uważany za towarzyszący innym zespołom anomalii rozwojowych, np. holoprosencefalii [17–22].

Hall podaje, iż przyczyną powstawania SMMCIS są nieznane czynniki etiologiczne oddziałujące na zarodek między 35. a 38. tygodniem życia płodowego [2]. Skutkiem ich działania jest zahamowanie lub spowolnienie poprzecznego wzrostu szczęki i struktur leżących w linii środkowej ciała, co z kolei powoduje zlanie lewej i prawej listewki zębowej [20]. Zaburzenia te skutkują powstaniem pojedynczego górnego siekacza o symetrycznej budowie, a także zaburzeń tworzenia części szwu podniebiennego oraz wędzidełka wargi górnej [20].

U badanego pacjenta, podobnie jak w doniesieniach innych autorów, pojawiają się odpowiednie cechy kliniczne wskazujące na rozpoznanie SMMCIS.

Jednym z podstawowych objawów towarzyszących pojedynczemu siekaczowi środkowemu szczęki jest zmniejszona liczba zębów. Hipodoncja częściej dotyczy zębów stałych (1–10%) niż zębów mlecznych (0,4–0,9%) [14–16]. W omawianym przypadku poza anomalią w postaci pojedynczego siekacza środkowego nie zaobserwowano braków zębowych, co więcej, pacjent posiada zawiązki wszystkich zębów trzonowych. Kształt zęba siecznego górnego i jego położenie w linii pośrodkowej ciała wskazuje jednak na występowanie u niego zespołu SMMCIS.

U omawianego pacjenta odnotowano równocześnie inne charakterystyczne dla zespołu SMMCIS objawy,

o których w swoich opracowaniach mówią inni autorzy: brak wędzidełka wargi górnej, spłaszczony, łukowato wygięty górny wał czerwieni wargowej bez łuku Kupidyna [15, 20, 22]. Pacjent miał ponadto krótką, wąską szczękę w kształcie litery V i na wysoko wysklepionym podniebieniu wydatny wał podniebienny. Według Kjaer i wsp. cechy te stanowią kryterium rozpoznania holoprosencefalii. Jest to najcięższa manifestacja SMMCIS, która dotyczy zaburzeń budowy ośrodkowego układu nerwowego, podstawy czaszki i twarzy [8].

Z uwagi na wąską szczękę u pacjenta oraz na typ uzębienia mieszanego można rozważyć, zgodnie z zaleceniem Barcelosa i wsp., leczenie za pomocą aparatów ruchomych. Ma ono na celu poprawę inklinacji siekacza środkowego [22]. Według protokołu leczenia proponowanego przez Halla nie zaleca się leczenia na etapie uzębienia mieszanego, a rozpoczyna się je po zakończeniu wymiany uzębienia. Według tego protokołu stosuje się poszerzenie szczęki, przemieszczenie siekacza środkowego i odzyskanie miejsca na odbudowę protetyczną drugiego siekacza środkowego [2]. Machado i wsp. rekomendują szybkie poszerzenie szczęki (ang. *rapid maxillary expansion*, RPE) w pierwszym etapie leczenia i w kolejnym etapie leczenia aparatami stałymi [17].

Według niektórych autorów poszerzenie szczęki może nie przebiegać zgodnie z założeniami. Jest to skutek braku szwu podniebiennego w jego przednim odcinku. W celu powodzenia ekspansji szczęki przed wprowadzeniem leczenia ortodontycznego zalecana jest osteotomia szczęki [16].

Wnioski

Ze względu na rzadkość SMMCIS i ograniczoną liczbę przypadków opisywanych w literaturze, doniesienia na temat tego zespołu są ograniczone.

Cechy dymorficzne pojawiające się w SMMCIS mogą być bardzo różne u różnych pacjentów, dlatego też powinny być diagnozowane indywidualnie i z należytą starannością. Często niezbędne są badania dodatkowe w postaci konsultacji specjalistycznych, badań obrazowych. Tylko staranna diagnostyka pozwala na szczegółowe określenie objawów i potrzeb terapeutycznych pacjenta.

Pacjenci z SMMCIS powinni być regularnie monitorowani przez interdyscyplinarny zespół, składający się z stomatologów, ortodontów, logopedów, laryngologów i internistów.

Ze względu na potencjalne wady w obrębie ucha pacjenci z SMMCIS powinni być monitorowani pod kątem deficytów słuchowych przez otolaryngologów. Taka kontrola powinna być przeprowadzona już w okresie rozwojowym.

U dzieci z SMMCIS zaleca się regularne monitorowanie rozwoju mowy. Wczesne wykrycie problemów w tym zakresie pozwala na wdrożenie w odpowiednim momencie opieki logopedycznej w formie terapii indywidualnej. Taka interwencja poprawia funkcjonowanie pacjenta w codziennym życiu, a w przypadku dziecka umożliwia mu właściwy rozwój i naukę w środowisku rówieśników.

W przypadku zdiagnozowania zaburzeń żucia konieczne jest wdrożenia odpowiedniej interwencji terapeutycznej prowadzonej przez logopedę lub ortodontę. Wczesna interwencja u dziecka z SMMCIS może znacząco poprawić jego funkcjonowanie w zakresie żucia i przełykania.

Pacjenci z SMMCIS wymagają opieki interdyscyplinarnej. Współpraca ortodonta, stomatologa, chirurga szczękowo-twarzowego, pediatry i logopedy pomaga w prawidłowym rozwoju fizycznym, intelektualnym i społecznym dzieci.

Ważnym aspektem leczenia dziecka z SMMCIS jest edukacja rodziców i pacjentów. Ważne jest, aby byli oni świadomi konieczności regularnego monitorowania i leczenia wad rozwojowych oraz konsekwencji tego procesu dla zdrowia i funkcjonowania dziecka, również w przyszłości.

Piśmiennictwo

- Li J, Liu D, Liu Y, Zhang C, Zheng S. Solitary Median Maxillary Central Incisor Syndrome: An Exploration of the Pathogenic Mechanism. *Front Genet*, 2022; 13: 780930. doi: 10.3389/fgene.2022.780930
- Hall RK. Solitary median maxillary central incisor (SMMCI) syndrome. *Orphanet J Rare Dis*, 2006; 1: 12. doi: 10.1186/1750-1172-1-12
- DiBiase AT, Cobourne MT. Beware the solitary maxillary median central incisor. *J Orthod*, 2008; 35: 16–19. doi: 10.1179/146531207225022365
- Lygidakis NN, Chatzidimitriou K, Petrou N, Lygidakis NA. Solitary median maxillary central incisor syndrome (SMMCI) with congenital nasal pyriform aperture stenosis: literature review and case report with comprehensive dental treatment and 14 years follow-up. *Eur Arch Paediatr Dent*, 2013; 14: 417–423. doi: 10.1007/s40368-013-0044-5
- Zatoński T, Pazdro-Zastawny K, Morawska-Kochman M, et al. Single median maxillary central incisor syndrome and variant in SMO gene associated with SHH pathway. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2020; 134: 110038. doi: 10.1016/j.ijporl.2020.110038
- Kerbrat JB, Miskowiak C, Trost O, Kerbrat A. Osteogenic distraction to treat solitary median maxillary central incisor (SMMCI) syndrome: a case report. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2022; 51: 1469–1472. doi: 10.1016/j.ijom.2022.03.006
- Nalawade TM, Mallikarjuna RM, Sogi HPS, et al. Solitary Median Maxillary Central Incisor: A Case Report with 3-Year Follow-Up and Literature Review. *Contemp Clin Dent*, 2021; 12: 324–327. doi: 10.4103/ccd.ccd_713_20
- Kjaer I, Becktor KB, Lisson J, et al. Face, palate, and craniofacial morphology in patients with a solitary median maxillary central incisor. *Eur J Orthod*, 2001; 23: 63–73. doi: 10.1093/ejo/23.1.63
- Yassin OM, El-Tal YM. Solitary maxillary central incisor in the midline associated with systemic disorders. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 1998; 85: 548–551. doi: 10.1016/S1079-2104(98)90289-X
- Alex T, Shenoy RD. Solitary median maxillary central incisor with congenital strabismus and autoimmune thyroiditis in a young child. *BMJ Case Rep*, 2021; 14: e240418. doi: 10.1136/bcr-2020-240418
- Nanni L, Ming JE, Du Y, et al. SHH mutation is associated with solitary median maxillary central incisor: A study of 13 patients and review of the literature. *Am J Med Genet*, 2001; 102: 1–10. doi: 10.1002/1096-8628(20010722)
- McNamara T, Field D, McNamara T. A solitary maxillary central incisor treated orthodontically: a case report. *Spec Care Dentist*. 1999; 19: 135–138. doi: 10.1111/j.1754-4505.1999.tb01414.x
- Chandrasekaran D, Yezdani A, Tajir F, Saravanan B, Rajasekar L. Solitary median maxillary central incisor: A case report of a rare dental anomaly. *J Pharm Bioallied Sci*, 2015; 7: 309. doi: 10.4103/0975-7406.155968
- Bolan M, Derech CD, Côrrea M, et al. Palatal expansion in a patient with solitary median maxillary central incisor syndrome. *Am J Orthod Dentofac Orthop*, 2010; 138: 493–497. doi: 10.1016/j.ajodo.2008.09.037
- Cho SY, Drummond BK. Solitary median maxillary central incisor and normal stature: a report of three cases. *Int J Paediatr Dent*, 2006; 16: 128–134. doi: 10.1111/j.1365-263x.2006.00685.x
- Youko K, Satoshi F, Kubota K, Goto G. Clinical evaluation of a patient with single maxillary central incisor. *J Clin Pediatr Dent*, 2002; 26: 181–186. doi: 10.17796/jcpd.26.2.k521j56563773367
- Machado E, Machado P, Grehs B, Grehs RA. Solitary median maxillary central incisor: case report. *Dent Press J Orthod*, 2010; 15: 55–61. doi: 10.1590/S2176-94512010000400009
- Ilhan O, Pekcevik Y, Akbay S, 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: e130–e134. English, Spanish. doi: 10.5546/aap.2018.eng.e130
- Aughton DJ, AlSaadi AA, Transue DJ. Single maxillary central incisor in a girl with del(18p) syndrome. *J Med Genet*, 1991; 28: 530–532. doi: 10.1136/jmg.28.8.530
- Binner Becktor K, Sverrild L, Pallisgaard C, et al. Eruption of the central incisor, the intermaxillary suture, and maxillary growth in patients with a single median maxillary central incisor. *Acta Odontol Scand*, 2001; 59: 361–366. doi: 10.1080/000163501317153202
- Garavelli L, Zanacca C, Caselli G, et al. Solitary median maxillary central incisor syndrome: clinical case with a novel mutation of sonic hedgehog. *Am J Med Genet A*, 2004; 127A: 93–95. doi: 10.1002/ajmg.a.20685
- Barcelos R, Nivoloni Tannure P, Farinhas JA, et al. Solitary median maxillary central incisor in two healthy siblings: case report. *J Disabil Oral Health*, 2011; 12: 133–135