

UNIVERSIDADE DE SÃO PAULO
HOSPITAL DE REABILITAÇÃO DE ANOMALIAS CRANIOFACIAS

POLLYANA PEREIRA TEOTONIO DOS SANTOS

**Detalhamento dos fenótipos dentários em pacientes com fissuras
raras da face: revisão sistemática**

BAURU

2022

POLLYANA PEREIRA TEOTONIO DOS SANTOS

**Detalhamento dos fenótipos dentários em pacientes com fissuras
raras da face: revisão sistemática**

Dissertação apresentada ao Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo para obtenção do título de Mestre em Ciências da Reabilitação, na área de concentração Fissuras Orofaciais e Anomalias Relacionadas.

Orientadora: Profa. Dra. Lucimara Teixeira das Neves

Versão Corrigida

BAURU

2022

Santos, Pollyana Pereira Teotonio dos
Detalhamento dos fenótipos dentários em
pacientes com fissuras raras da face: revisão
sistemática / Pollyana Pereira Teotonio dos Santos. -
- Bauru, 2022.

56p. : il. ; 31 cm.

Dissertação (mestrado) -- Hospital de
Reabilitação de Anomalias Craniofaciais,
Universidade de São Paulo, 2022.

Orientadora: Profa. Dra. Lucimara Teixeira das
Neves

Nota: A versão original desta dissertação encontra-se disponível no Serviço de Biblioteca e Documentação da Faculdade de Odontologia de Bauru – FOB/USP.

Autorizo, exclusivamente para fins acadêmicos e científicos, a
reprodução total ou parcial desta dissertação/tese, por processos
fotocopiadores e outros meios eletrônicos.

Assinatura:

Data:

ERRATA

FOLHA DE APROVAÇÃO

DEDICATÓRIA

Dedico este trabalho, primeiramente, a Deus por ser meu sustento e minha força, aos meus familiares que sempre me apoiaram e incentivaram e aos amigos que sempre estiveram ao meu lado, ajudando e colaborando para que tudo desse certo.

AGRADECIMENTOS

Gratidão a Deus porque sem Ele nada teria sentido. Aos meus pais que, em todos os momentos da minha caminhada, não mediram esforços para que eu realizasse meus sonhos e sempre estiveram ao meu lado e ao meu irmão por ser um incentivador e pessoa a quem eu admiro e me inspiro.

Aos familiares que sempre me incentivaram, que estão sempre presente ao meu lado, minha gratidão também.

À profa. Dra. Lucimara Teixeira das Neves por ser a melhor orientadora que eu poderia ter tido, por guiar essa trajetória, por trazer à luz tantas idéias, sempre com um sorriso no rosto e palavras de incentivo.

Aos amigos, antigos e aos novos que conheci nessa caminhada da pós graduação, obrigada por estarem ao meu lado, pelo incentivo no trabalho e pelos momentos de lazer para que a caminhada não fosse árdua.

Ao meu namorado, por chegar em um momento de mudanças e correria e por ficar ao meu lado incentivando e sempre com palavras de conforto.

Ao Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais por ser um lugar acolhedor e mágico, onde pude absorver muito conhecimento e pude crescer tanto no campo profissional quanto no pessoal.

Aos funcionários que sempre estiveram dispostos a atender, orientar, esclarecer dúvidas.

“Não é o quanto fazemos, mas quanto amor colocamos naquilo que fazemos. Não é o quanto damos, mas quanto amor colocamos em dar”.

Madre Teresa de Calcutá

RESUMO

SANTOS PPT. Detalhamento dos fenótipos dentários em pacientes com fissuras raras da face: revisão sistemática [Dissertação]. Bauru: Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, Universidade de São Paulo; 2022.

As fissuras labiopalatinas representam uma das malformações craniofaciais mais comuns. Dentro da classificação das fissuras orofaciais estão as fissuras raras da face que são malformações que afetam outras partes da face e do crânio que não sejam os locais mais comuns, como o lábio e o palato. Este tipo específico de fissura pode estar associado a outras alterações, dentre elas as anomalias dentárias. **Objetivo:** O objetivo deste trabalho foi realizar uma revisão sistemática da literatura para investigar e descrever os fenótipos dentários diagnosticados em sujeitos com fissuras orofaciais raras, determinando quais os mais frequentes. **Métodos:** O protocolo e checklist de orientação para esta revisão sistemática seguiu as diretrizes PRISMA (*Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses: The PRISMA Statement*). O critério PICo (“população”, “interesse” e “contexto”) foi utilizado para construir a orientação de pesquisa. Foi realizada estratégia de busca ampla da literatura, sem limitação de data em 4 bases de dados online: PUBMED, EMBASE, SCOPUS e WEB OF SCIENCE. O período de realização das buscas ocorreu entre fevereiro e março de 2021. Utilizando as estratégias de busca descritas, foram recuperados 153 registros. A sistemática de seleção dos estudos foi realizada em duas fases, por duas examinadoras. Os dados minerados e coletados foram tabulados em uma planilha no programa Microsoft Excel. **Resultados:** Dos 153 registros identificados nas buscas nas bases de dados descritas, foram selecionados 12 estudos para compor essa revisão sistemática, sendo que esses estudos foram publicados entre os anos de 2011 e 2020. Quanto a caracterização da casuística, o número total de casos avaliados nesses estudos foi de 53 sujeitos. A média de idade dos pacientes avaliados variou desde recém nascidos até um paciente com 25 anos. Em relação ao sexo, foram 27 do sexo masculino e 26 do sexo feminino. Dentre os tipos de fissuras raras diagnosticados nos estudos selecionados, a fissura do tipo 7 foi a mais relatada. Enquanto a fissura nº11 e a fissura transversa/oblíqua, foram relatadas, apenas, em um estudo, cada uma. Em relação aos fenótipos dentários, foi diagnosticada uma ou mais anomalias dentárias em 18 dos 53 sujeitos que compuseram a casuística

geral dessa revisão sistemática. Desses 18 sujeitos, 10 apresentavam ausência dentária de um ou mais dentes e 6 pacientes apresentavam apenas dentes supranumerários. A associação de dois fenótipos dentários diferentes, ausência dentária e dentes supranumerários, foi observada em somente 1 paciente e dente hipomineralizado foi encontrado em 1 paciente. **Conclusão:** as ausências dentárias e os dentes supranumerários são os fenótipos dentários mais frequentes nos casos de fissuras orofaciais raras.

Palavras-chave: Fissuras atípicas, fissuras raras, Tessier, anomalias dentárias.

ABSTRACT

SANTOS PPT. Detection of rare consultation phenologies in patients with facial phenotype: systematic review. [Dissertation] Bauru: Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies, University of São Paulo; 2022

Cleft lip and palate represent one of the most common craniofacial malformations. Within the classification of orofacial clefts are rare clefts of the face which are malformations that affect parts of the face and skull other than the most common places, such as the lip and palate. This specific type of cleft may be associated with other deviations, including dental anomalies. **Goal:** The goal of this paper was to carry out a systematic review of literature in order to investigate and describe the dental phenotypes diagnosed in subjects with rare orofacial clefts, thereby determining which are the most frequent. **Method:** The protocol and guidance checklist for this systematic review followed PRISMA guidelines (*Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses: The PRISMA Statement.*) The PICO criterion (“population”, “interest” and “context”) was used for research orientation. A broad literature search strategy was carried out, without date limitation, via four online databases: PUBMED, EMBASE, SCOPUS and WEB OF SCIENCE. This research was carried out between February and March 2021. Using the aforementioned research strategies, 153 records were retrieved. The systematic selection of studies was carried out in two phases, by two examiners. The collected data was tabulated in a spreadsheet in the program Microsoft Excel. **Results:** Of the 153 records identified in the searches in the databases, 12 studies were selected to compose this systematic review, and these studies were published between the years 2011 and 2020. As for the characterization of the sample, the total number of cases evaluated in these studies was 53 subjects. The mean age of the evaluated patients ranged from newborns to a patient aged 25 years old. Regarding gender, 27 were male and 26 were female. Among the rare cleft types diagnosed in the selected studies, type 7 cleft was the most reported. While the type 11 cleft and the transverse/oblique cleft were reported only in one study, each. Regarding dental phenotypes, one or more dental anomalies were diagnosed in 18 of the 53 subjects who composed the general series of this systematic review. Of these 18 subjects, 10 had one or more missing teeth and 6 had only supernumerary teeth. The association of two different dental phenotypes, tooth

absence and supernumerary teeth, was observed in only 1 patient and hypomineralized teeth were found in 1 patient. **Conclusion:** Missing teeth and supernumerary teeth are the most frequent dental phenotypes in cases of rare orofacial clefts.

Keywords: Atypical clefts, rare clefts, Tessier, dental anomalies.

LISTA DE ILUSTRAÇÕES

- Figura 1** - Classificação de Tessier16
- Figura 2** - Fluxograma do processo de seleção dos estudos, seguindo checklist adaptado do PRISMA.....27
- Figura 3** - Número de sujeitos avaliados nos estudos selecionados com relação a distribuição entre os sexo.....33
- Figura 4** - Tipos de fissuras orofaciais raras encontradas nos estudos selecionados34
- Figura 5** - Prevalência de sujeitos descritos com alguma anomalia dentária entre a casuística total dos estudos selecionados.35
- Figura 6** - Distribuição dos fenótipos dentários pela quantidade de sujeitos36
-
-

LISTA DE TABELAS

Tabela 1 - Artigos selecionados	32
--	----

SUMÁRIO

1	INTRODUÇÃO.....	15
2	PROPOSIÇÃO.....	21
3	MÉTODOS.....	25
4	RESULTADOS	31
5	DISCUSSÃO.....	41
6	CONCLUSÃO	49
	REFERÊNCIAS	53

1 INTRODUÇÃO

1 INTRODUÇÃO

As fissuras de lábio e/ou palato são consideradas as malformações craniofaciais mais comuns, com uma prevalência média de 1:650 nascidos vivos. Podem ocorrer associadas a outras alterações fazendo parte de uma síndrome sendo conhecidas como fissuras sindrômicas ou, de forma isolada, quando são chamadas de fissuras não-sindrômicas (FREITAS et al., 2012).

Morfologicamente pode acometer diversas estruturas anatômicas, determinando tipos de fissuras diferentes. Considerando essa heterogeneidade morfo-anatômica e no sentido de facilitar o diagnóstico e especialmente estabelecer protocolos de tratamento reabilitador, foram propostas inúmeras classificações das fissuras orais. O Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais (HRAC/USP) adota a classificação proposta por Spina et al., 1972, modificada por Silva Filho, 1992. Essa classificação utiliza como referência anatômica o forame incisivo, agrupando os diferentes tipos de fissura em 4 grupos principais: Grupo1- Fissuras pré-forame (fissuras de lábio, unilaterais, bilaterais ou medianas, completas ou incompletas), Grupo2- Fissuras transforame (fissuras de lábio e palato, unilaterais, bilaterais ou medianas), Grupo 3- Fissuras pós-forame (fissuras de palato, completas ou incompletas), Grupo 4- Fissuras raras da face. Estas últimas não envolvem, necessariamente, o forame incisivo e ocorrem em áreas distantes daquelas determinadas embriologicamente como áreas de fusão entre os processos faciais para a formação do lábio e do palato (FREITAS et al., 2012).

As fissuras raras, também conhecidas como fendas faciais atípicas, podem acometer tanto tecido mole quanto tecido duro e afetam outras partes não definidas no padrão típico (BELLO et al., 2019). Podem se apresentar clinicamente em graus variados de complexidade, desde um mero entalhe no lábio, nariz ou outra estrutura da face (situação na qual se assemelham a uma cicatriz) até uma separação completa de todas as camadas das estruturas faciais. Em certos casos, um tipo de fenda pode se manifestar em um lado da face, enquanto um tipo diferente está presente do outro lado (ADEOSUN; OGAH, 2017).

Várias classificações específicas já foram propostas a fim de categorizar as fissuras raras. A mais comumente utilizada é a classificação de Tessier que utiliza a órbita como ponto anatômico de referência para a categorização, compreendendo um sistema numérico quase que universalmente utilizado por cirurgiões craniofaciais. Tem como demarcação um eixo horizontal que atravessa as duas órbitas, com fendas acima e abaixo dessa linha (FEARON, 2008) que são numeradas de 0 a 14 (Figura 1) (MAEDA et al., 2014; RACZ et al., 2018). As fissuras localizadas abaixo da órbita são consideradas fissuras faciais e recebem a numeração de 0 a 8 a depender da localização da fissura, sendo 0 aquela localizada na linha média e a 8 a que acomete o canto lateral externo da órbita. Já as fissuras localizadas acima da órbita são chamadas de fissuras cranianas e numeradas de 9 a 14 (Figura 1). Sendo a fissura mediana do arco inferior designada com o número 30. É importante destacar ainda que, entre as fissuras orofaciais raras pode haver associação de uma fissura craniana e uma facial em um único lado, ou em lados distintos.

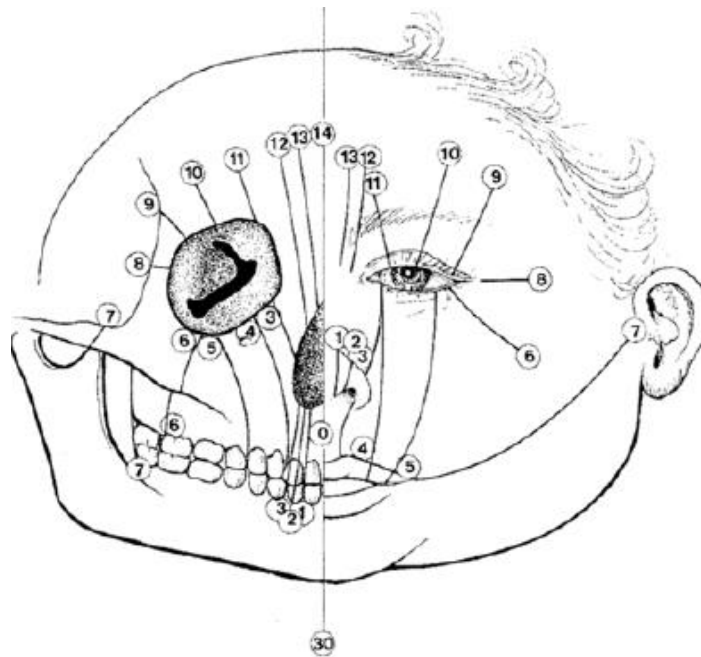


Figura 1-Classificação de Tessier

(Fonte da imagem : Fijałkowska M, Antoszewski B. Rare facial clefts. Pol Przegl Chir. 2015;87(8):389-394)

A gravidade das fissuras raras varia de acordo com sua localização e estruturas afetadas. Muitas vezes as fissuras de tecidos moles não correspondem em sua gravidade às fissuras correspondentes em tecido duro. Além disso, as fissuras de

tecidos moles situadas medialmente ao forame infraorbital são mais destrutivas que as mesmas localizadas em tecido duro, enquanto as de tecidos duros são mais agressivas lateralmente ao forame (RAMANATHAN et al., 2012).

No geral, as fissuras orofaciais, sejam elas típicas (fissura de lábio; fissura de lábio e palato e fissura de palato isolada) ou atípicas (raras) podem levar a diversas consequências a depender dos tecidos envolvidos. As mais comuns são as alterações estéticas, funcionais e emocionais (MAEDA et al., 2014; BALAJI, 2018; LEE; MOHD ZAINAL; MAT ZAIN, 2019; CHUNG et al., 2020).

Além disso, com frequência, são constatadas também outras anomalias associadas às fissuras, sendo que em alguns casos, essas dismorfologias associadas envolvem a cavidade oral, determinando fenótipos dentários alterados, também conhecidos como anomalias ou alterações dentárias.

As alterações dentárias cursando com as fissuras típicas, têm sido amplamente investigadas na literatura. Destacando que a hipodontia, a microdontia, o taurodontismo e os dentes supranumerários são algumas das anomalias mais prevalentes entre sujeitos com fissuras de lábio, de lábio e palato e de palato isoladas e tem um impacto clínico na abordagem de tratamento considerando o tripé da reabilitação estética, funcional e emocional (MELO FILHO et al., 2015; HOWE et al., 2015; WECKWERTH et al., 2016; KONSTANTONIS et al., 2017; MARZOUK et al., 2021).

No contexto das fissuras raras são pontuais os estudos avaliando os fenótipos dentários. Isso, provavelmente, devido à baixa prevalência com que esse tipo de fissura ocorre, realmente é mais difícil obter um conjunto de dados de um número maior de sujeitos com esse tipo específico de fissura. E nesse contexto os poucos estudos publicados referem-se a relatos de casos, apontando isoladamente as anomalias dentárias diagnosticadas. No entanto, nenhum deles apresenta dados conclusivos sobre quais os fenótipos dentários são mais prevalentes entre sujeitos com fissuras orofaciais raras. Nem tão pouco foi realizada uma revisão sistemática da literatura sobre esse tema.

Dessa forma, este estudo propôs realizar uma revisão sistemática de literatura para responder à pergunta de pesquisa: Quais os fenótipos dentários descritos entre sujeitos com fissuras raras, e quais os mais frequentes?

Este estudo se justifica, uma vez que o comprometimento estético e funcional é amplo nas fissuras raras e as anomalias dentárias representam um fator adicional quanto ao impacto que podem ocasionar no processo de reabilitação integral desses casos. Assim, conhecer quais são os fenótipos dentários mais comuns entre sujeitos com fissuras orofaciais raras possibilita, especialmente para a equipe da área de odontologia, ação preventiva no sentido do melhor e mais efetivo planejamento para a reabilitação odontológica, tanto do ponto de vista estético quanto funcional, contribuindo para a melhora da qualidade de vida.

2 PROPOSIÇÃO

2 PROPOSIÇÃO

O objetivo deste trabalho foi realizar uma revisão sistemática da literatura para investigar e descrever os fenótipos dentários diagnosticados em sujeitos com fissuras orofaciais raras, determinando quais os mais frequentes.

3 MÉTODOS

3 MÉTODOS

PROTOCOLO

O protocolo e checklist de orientação para esta revisão sistemática seguiu as diretrizes PRISMA (*Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses: The PRISMA Statement* (PAGE et al., 2021)).

Critérios de elegibilidade

O critério PICO (“população”, “interesse” e “contexto”) foi utilizado para construir a orientação de pesquisa, com os seguintes critérios de inclusão: (i) *Population*: sujeitos com fissuras orofaciais raras não sindrômicas; (ii) *Interesse*: fenótipos dentários; (iii) *Contexto*: prevalência dos fenótipos dentários diagnosticados no contexto da reabilitação estética e funcional das fissuras orofaciais raras não sindrômicas, independentemente do tipo de fissura rara.

O critério de elegibilidade utilizado para a seleção dos estudos incluídos na revisão foi: (1) apenas artigos completos sem limitação de idioma; (2) que investigaram qualquer tipo de fenótipo dentário em sujeitos com fissuras orofaciais raras não sindrômica, independentemente do tipo de fissura orofacial rara segundo a classificação de Tessier.

Critérios de exclusão

Os estudos foram excluídos conforme as seguintes razões: (1) população em desacordo com o critério PICO previamente estabelecido; (2) ausência de informação quanto ao interesse do estudo ou em desacordo com o critério estabelecido; (3) artigo completo não localizado; (4) outros tipos de publicações distintos de artigo de pesquisa completo, como: carta ao editor, nota, resumo de congressos, anais etc.

Fontes e estratégias de busca

Foi realizada estratégia de busca ampla da literatura, sem limitação de data em 4 bases de dados online: PUBMED, EMBASE, SCOPUS e WEB OF SCIENCE. O período de realização das buscas ocorreu entre fevereiro e março de 2021.

Os seguintes termos foram incluídos na estratégia de busca: “dental anomalies” OR “tooth malformation” OR “dental disorders” OR “tooth agenesis” OR “dental agenesis” OR “hypodontia” OR “supernumerary” OR “taurodontism” OR “hyperdontia” OR “microdontia” OR “macrodontia”; “Tessier classification” OR “atypical facial clefts” OR “rare facial clefts” OR “oblique facial clefts” OR “Tessier cleft”. Foram utilizados os operadores booleanos representados pelos termos AND e OR, que permitem realizar busca por combinação de termos ampliando ou restringindo a pesquisa, sendo OR utilizado para combinação aditiva AND para combinação restritiva.

Seleção dos estudos

Utilizando as estratégias de busca descritas, foram recuperados 153 registros. A sistemática de seleção dos estudos foi realizada em duas fases. Na primeira fase, dois examinadores (PPTS e LTN), revisaram títulos e resumos, excluindo os títulos não relevantes de acordo com o escopo desta revisão, ou seja, aqueles que envolviam síndromes ou que não apresentava dados relativos a nenhum tipo de fissura rara ou mesmo não apresentavam informações sobre os fenótipos dentários. A partir da recuperação de todos os textos completos de todos os trabalhos considerados relevantes selecionados na primeira fase, foi iniciada a segunda fase. Nessa fase, foram lidos esses textos completos sendo excluídos aqueles que não estavam de acordo com os critérios de elegibilidade/exclusão estabelecidos previamente. Havendo divergências em cada uma das fases, estas foram discutidas e a discordância resolvida por consenso entre as duas examinadoras. O fluxograma do processo de busca e seleção está apresentado na figura 2.

Essa estratégia de pesquisa foi planejada de forma a equilibrar a sensibilidade e a precisão. Sendo a sensibilidade caracterizada pela identificação do maior número possível de registros de interesse e precisão pela habilidade de excluir o maior número possível de artigos irrelevantes.

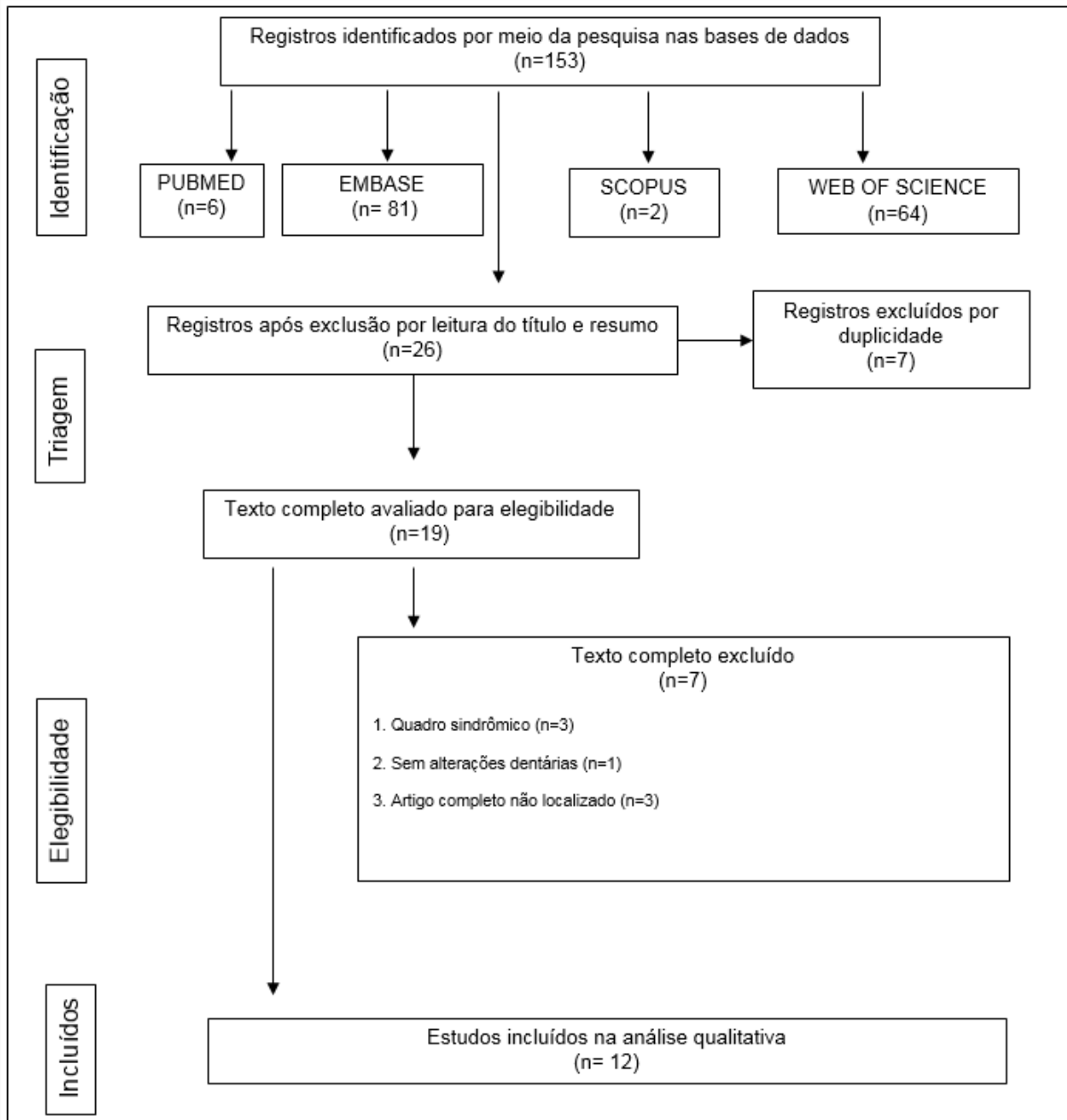


Figura 2 – Fluxograma do processo de seleção dos estudos, seguindo checklist adaptado do PRISMA.

Mineração para coleta de dados

Duas examinadoras (PPTS e LTN) mineraram, coletaram e revisaram sistematicamente as seguintes informações dos artigos incluídos: título, autores, ano, revista, tipo de estudo, objetivo do estudo, número de participantes, perfil dos participantes (idade e sexo), tipo de fissura orofacial rara pela classificação de Tessier, fenótipos dentários diagnosticados, dentes ou grupos de dentes acometidos pelos

fenótipos, metodologia utilizada e origem étnica da casuística. Quaisquer divergências foram resolvidas por discussão e concordância mútua entre as duas autoras.

Os dados minerados e coletados foram tabulados em uma planilha no programa Microsoft Excel.

Análise estatística

Foi realizada análise estatística descritiva apresentada por meio de tabelas e gráficos, em números absolutos e percentuais. A síntese de dados ocorreu por meio do agrupamento dos estudos de acordo com o tipo de fissura orofacial rara descrito, apresentando os fenótipos dentários relatados e os dentes acometidos, quando essa informação estava descrita em detalhes no artigo analisado.

4 RESULTADOS

4 RESULTADOS

Dos 153 registros identificados nas buscas nas bases de dados descritas, foram selecionados 12 estudos para compor essa revisão sistemática, sendo que esses estudos foram publicados entre os anos de 2011 e 2020 (tabela 1). Dos 12 estudos selecionados para integrar essa revisão sistemática, 10 (83%) são de relatos de caso apenas, ou relatos de casos com revisão da literatura, sendo que somente 2 estudos (17%) analisaram conjunto de casos por meio de estudos transversais retrospectivos com análise de características de grupo de sujeitos. As regiões com mais estudos foram China (3), Índia (2) e Coréia (2). Os outros estudos foram realizados do Japão, Turquia, Malásia, Estados Unidos e França.

Tabela 1 - Artigos selecionados

TÍTULO	AUTORES	ANO	REVISTA	TIPO DE ESTUDO	OBJETIVO	N. DE PARTICIPANTES do estudo	IDADE	SEXO	N. de sujeitos com fenótipos dentários ²	TIPO DE FISSURA	FENÓTIPO DENTÁRIO	METODOLOGIA	LOCAL
A rare bilateral Tessier no. 6 and 7 clefts	Hou, Rui Feng, Xinghua Zhang, Junrui Liu, Bin Liu, Guical Wang, Lei Chen, Xi Xie, Chao	2011	Journal of CranioMaxillo-Facial Surgery	Relato de caso	Relato de caso de Tessier 6 e 7, com severas deformidades ósseas maxilofaciais e anomalias dentárias.	1	3	M	1	Tessier 6 e 7, bilateral	Molares deciduos supranumerários ambos os lados, na maxila (2 de cada lado)	Fotografias e tomografia	China
A rare case of multiple oblique facial clefts with supernumerary teeth: case report	Ramanathan, Manikandhan Parameswaran, Ananthnarayanan Jayakumar, Naveen Sneha, Pendem Sailer, H.F	2012	CranioMaxillo-Facial Trauma and Reconstruction	Relato de caso	Relato de caso de fissuras faciais obliquas, com severidade variável e vários dentes supranumerários.	1	12	M	1	Tessier 5, 6, lado esquerdo.	14 dentes supranumerários na maxila (molares), impactados (4 lado esquerdo, 10 lado direito) e 5 erupcionados.	Fotografias, radiografia panorâmica e tomografia	Índia
A rare case of accessory maxilla and bilateral Tessier no. 7 clefts, a 10-year followup	BorzabadiFarahani, Ali Yen, Stephen L.K. Francis, Cameron Lara-Sanchez, Pedro A. Hammoudeh, Jeffrey	2013	Journal of CranioMaxillo-Facial Surgery	Relato de caso	Relato de caso e acompanhamento por 10 anos	1	13	M	1	Tessier 7, bilateral	Dentes supranumerários superiores, lado direito. Primeiro molar superior permanente, lado esquerdo, ausente	Exames clínico e radiográfico e fotos	Estados Unidos (Los Angeles)
Tessier 30 symphyseal mandibular cleft: Early simultaneous soft and hard tissue correction A case report	Ladani, Parit Sailer, Herman F. Sabnis, Rajesh	2013	Journal of CranioMaxillo-Facial Surgery	Relato de caso	Relato de um caso complexo de fissura na sínfise mandibular, com anquiilossia, seu tratamento e acompanhamento por mais de três anos.	1	Bebê de 1 semana	M	1	Tessier 30	Ausência do incisivo central inferior esquerdo decíduo e ausência do germe permanente do mesmo	Fotografias e tomografia	Índia
Combination of Tessier clefts 3 and 4: Case report of a rare anomaly with 12 years' follow-up	Maeda T. Oyama A. Okamoto T. Funayama E. Furukawa H. Hayashi T. Muroa N. Sato Y. Yamamoto Y.	2014	Journal of CranioMaxillo-Facial Surgery	Relato de caso	Relatar um caso de uma combinação das fissuras Tessier 3 e 4, com fissura labiopalatina bilateral severa	1	Acompanhamen to do nascimento aos 12 anos	F	1	Tessier 3 e 4, associadas com Tessier 11	Incisivo lateral superior, lado direito, ausente.	Fotografias e tomografia	Japão
Lateral facial cleft associated with accessory mandible having teeth, absent parotid gland and peripheral facial weakness	Özçelik, D. Toplu, G. Türkseven, A. Şenses, D. A. Yigit, B.	2014	Journal of CranioMaxillo-Facial Surgery	Relato de caso	Apresentar um caso com fissura facial transversa, mandíbula acessória, glândula parotídea ausente, deformidade auricular e fraqueza do nervo facial	1	Acompanhamen to desde os 50 dias de vida até os 3 anos de idade	F	1	Tessier 7, lado direito	Dentes supranumerários (2, mandíbula acessória).	Fotografias e tomografia	Turquia
Lateral or oblique facial clefts associated with accessory maxilla: Review of the literature and report of a case	Hou, Min Liu, Chuming Wang, Jianguo Zhang, Lancheng Gao, Quarwen	2015	Journal of CranioMaxillo-Facial Surgery	de caso e revisão da literatura	O objetivo deste artigo é relatar um novo caso de fissura facial transversa bilateral e processos alveolares acessórios e fornecer uma descrição detalhada das anomalias ósseas e dentárias e discutir a possível etiologia dessa condição.	1	23	F	1	Fissura transversa/obliqua bilateral	Dentes supranumerários, superiores, ambos os lados (região posterior).	Exame clínico, radiografia panorâmica e fotos	China
Orthodontic and orthopedic treatment for a growing patient with Tessier number 0 cleft	Baek, Seung Hak Park, Yoon Tee Chung, Jee Hyeok Kim, Sukwha Choi, Jin Young	2018	Korean Journal of Orthodontics	Relato de caso	Apresentar o conceito de tratamento ortodôntico e ortopédico para um paciente em crescimento com fissura Tessier 0	1	5	M	1	Tessier 0	Incisivos centrais superiores (decíduos e permanentes) ausentes.	Exame clínico, radiografia panorâmica e fotos	Coreia
Phenotypic spectrum of Tessier facial cleft number 5	Racz, Caroline Dakopé, Stéphanie Kadlub, Natacha Testelin, Sylvie Devauchelle, Bernard Rachwalski, Martin Picard, Arnaud	2018	Journal of CranioMaxillo-Facial Surgery	Estudo retrospectivo de prontuários e análise de imagens.	Definir o espectro fenotípico das fissuras orbiculo-faciais, dentro das fissuras Tessier 5, para melhorar o manejo clínico.	4	4 a 14 anos P1 10 anos; P2 7 anos; P3 5 anos; P4 3 anos	4M	4	Tessier 5 (formas da Tessier 4 e 6)	Paciente 1- dente supranumerário região de molar, lado esquerdo. Paciente 2-fissura na região de pré-molares, estão ausentes, lado direito. Paciente 3-Fissura na região de canino, dente ausente, lado direito. Paciente 4- dentes situados após o canino, lado esquerdo, ausentes (pré-molares e molares)	Avaliação clínica e exames de imagens (radiografia e tomografia)	França
Blind Tongue and Cleft Palate With and Without a Tessier 30 Facial Cleft: Cases of Rare Congenital Anomalies and a Review of Management and Literature	Lee, Jia Yuan Mohd Zainal, Hamidah Mat Zain, Mohammad Ali Bin	2019	The Cleft Palate-Craniofacial Journal	Relato de caso	Relatar dois casos de língua bífida congênita rara, com fissura palatina e seus tratamentos cirúrgicos	2	11 meses	2F	1	Tessier 30	Dente hipomineralizado, inferior, localizado região mediana.	Fotografias e tomografia	Malásia
Distribution, side involvement, phenotype and associated anomalies of Korean patients with craniofacial clefts from single university hospital-based data obtained during 1999-2018	Chung, Jee Hyeok Yim, Sunjin Cho, Il Sik Lim, Seung Weon Yang, Il Hyoung Ha, Jeong Hyun Kim, Sukwha Baek, Seung Hak	2020	THE KOREAN JOURNAL OF ORTHODONTICS	Estudo retrospectivo longitudinal	Investigar a distribuição, lado envolvido, fenótipo e anomalias associadas de pacientes coreanos com fissuras craniofaciais	38	17 M e meira com 21F		4	Tessier 0, Tessier 30, Tessier 4/ combinação Tessier 3	Tessier 0- ausência de dentes na pré-maxila (2 pac). Tessier 30ausência incisivo central inferior esquerdo (1 pc). Tessier 4, combinação com 3- ausência de múltiplos dentes (1 pac).	Fotografias, radiografias panorâmicas e tomografias computadorizadas e	Coreia
A rare case of accessory maxilla: a case report and literature review of Tessier no. 7 clefts	Sun, Ming Lv, Na Xiao, Ya Li, Jiabin Guo, Guangzhao	2020	Journal of Internation al Medical Research	Relato de caso	Descrever a presença de uma maxila acessória, em um paciente com 25 anos, com fissuras tipo Tessier 7, bilateral.	1	25 M		1	Tessier 7, bilateral	Dentes supranumerários, lado direito, superior.	Fotografias, tomografia e exame histopatológico	China

Quanto a caracterização da casuística desses 12 trabalhos selecionados, o número total de casos avaliados nesses estudos foi de 53 sujeitos. A média de idade dos pacientes avaliados variou desde recém nascidos (LADANI; SAILER; SABNIS, 2013; MAEDA et al., 2014; ÖZÇELIK et al., 2014; LEE; MOHD ZAINAL; MAT ZAIN,

2019) até um paciente com 25 anos (SUN et al., 2020). Em relação ao sexo, foram 27 do sexo masculino e 26 do sexo feminino (Figura 3).

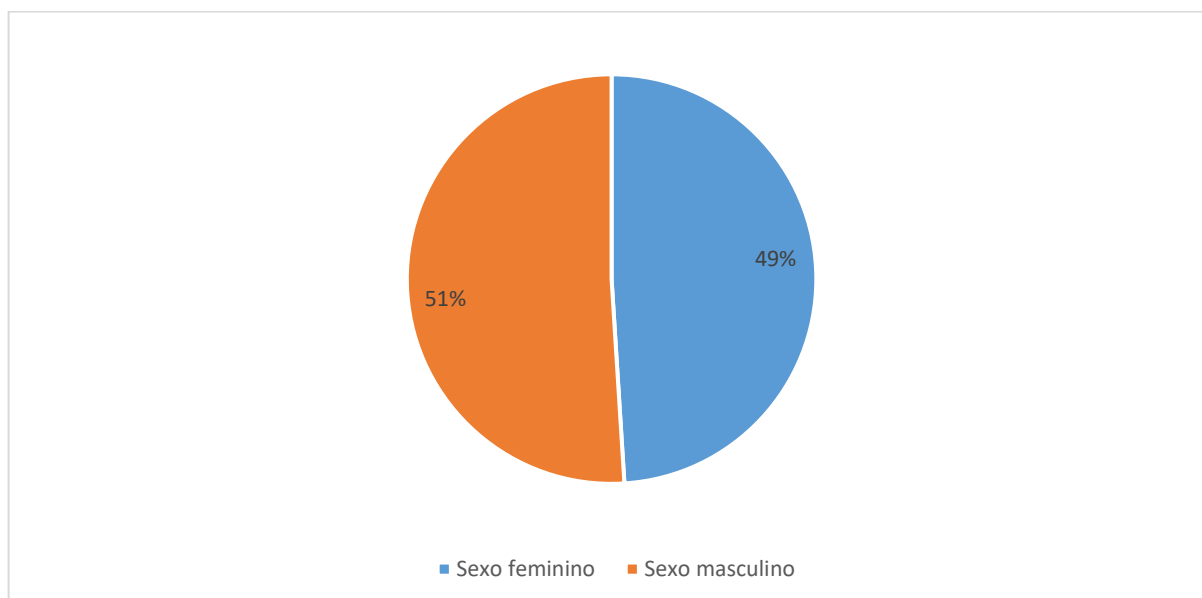


Figura 3- Número de sujeitos avaliados nos estudos selecionados com relação a distribuição entre os sexo

Os tipos de fissura raras descritas nesses trabalhos selecionados foram Tessier 0 (BAEK et al., 2018; CHUNG et al., 2020), Tessier n° 3 (MAEDA et al., 2014; CHUNG et al., 2020), n° 4 (MAEDA et al., 2014; RACZ et al., 2018; CHUNG et al., 2020), n°5 (RAMANATHAN et al., 2012; RACZ et al., 2018), n° 6 (HOU et al., 2011; RAMANATHAN et al., 2012; RACZ et al., 2018), n°7 (HOU et al., 2011; RAMANATHAN et al., 2012; BORZABADI-FARAHANI et al., 2013; ÖZÇELIK et al., 2014; SUN et al., 2020), n°11 (MAEDA et al., 2014) e fissura Tessier n° 30 (LADANI; SAILER; SABNIS, 2013; LEE; MOHD ZAINAL; MAT ZAIN, 2019; CHUNG et al., 2020). Também foi relatada fissura transversa/oblíqua que não foi classificada, no estudo, com a classificação de Tessier (HOU et al., 2015) (Figura 4).

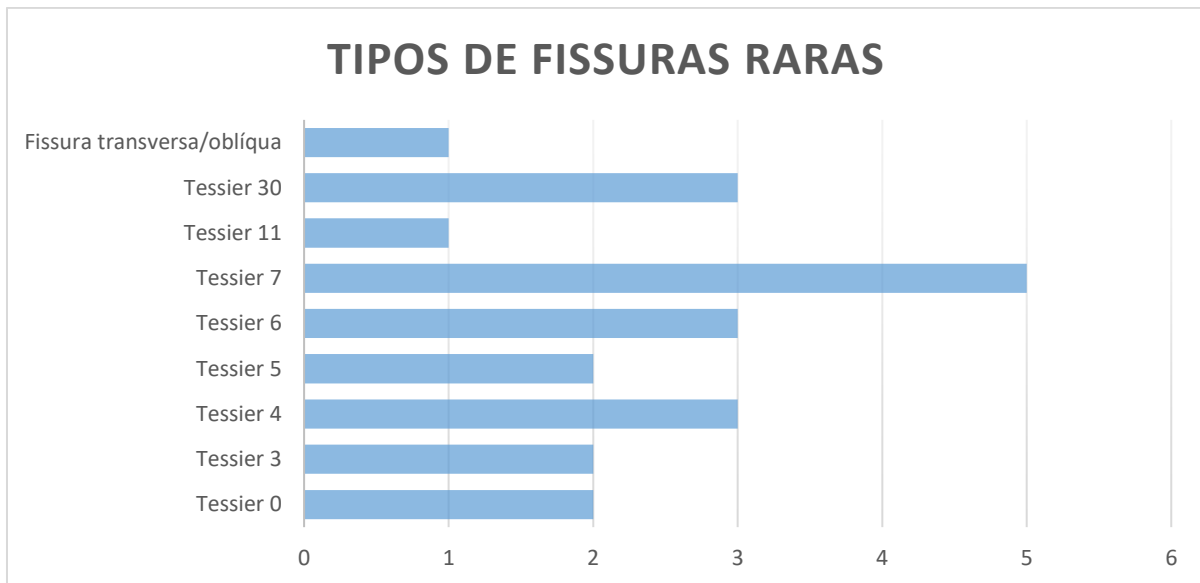


Figura 4- Tipos de fissuras orofaciais raras encontradas nos estudos selecionados

Dentre os tipos de fissuras raras diagnosticados nos estudos selecionados, a fissura do tipo 7 de acordo com a classificação de Tessier, foi a mais relatada, sendo que 5 dos 12 estudos, ou seja, 41,6% dos trabalhos apresentavam algum paciente com esse tipo de fissura rara. Enquanto a fissura nº11 e a fissura transversa/oblíqua, que não tinha a classificação de Tessier foram relatadas, apenas, em um estudo, cada uma. Vale ressaltar que um mesmo paciente poderia apresentar mais de um tipo de fissura rara de Tessier associada, ou mesmo fissuras diferentes em cada lado da face. Por esse motivo, é possível observar, por meio da tabela 1, que em um único artigo de relato de caso, por exemplo, foram diagnosticadas fissuras raras distintas no mesmo caso.

Em relação aos fenótipos dentários, foi diagnosticada uma ou mais anomalias dentárias em 18 dos 53 sujeitos que compuseram essa casuística geral dessa revisão sistemática. Assim, a prevalência geral de anomalias dentárias nessa amostra que compôs a casuística dos estudos selecionados foi de 34% (Figura 5).

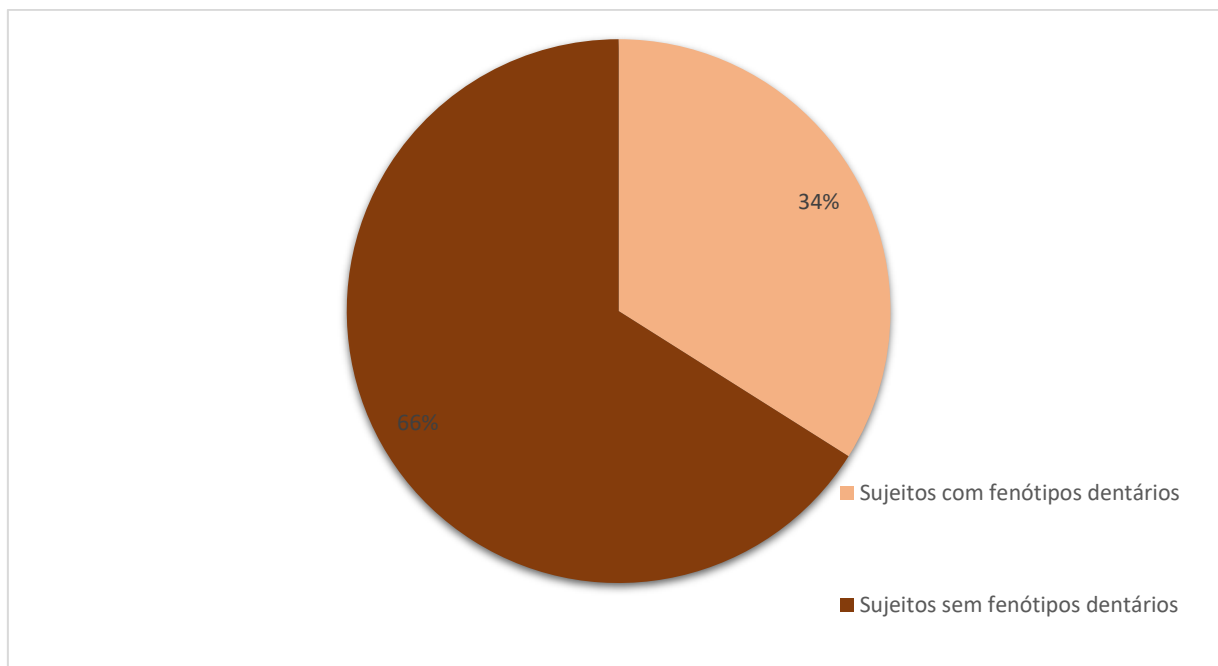


Figura 5- Prevalência de sujeitos descritos com alguma anomalia dentária entre a casuística total dos estudos selecionados.

Desses 18 sujeitos com algum tipo de anomalia dentária, 10 apresentavam ausência dentária de um ou mais dentes (LADANI; SAILER; SABNIS, 2013; MAEDA et al., 2014; BAEK et al., 2018; RACZ et al., 2018; CHUNG et al., 2020) e 6 pacientes apresentavam apenas dentes supranumerários (HOU et al., 2011, 2015; RAMANATHAN et al., 2012; ÖZÇELIK et al., 2014; RACZ et al., 2018; SUN et al., 2020). A associação de dois fenótipos dentários diferentes, ausência dentária e dentes supranumerários, foi observada em somente 1 paciente (BORZABADI-FARAHANI et al., 2013). Foi descrito também 1 paciente com dente hipomineralizado, na região mediana inferior (LEE; MOHD ZAINAL; MAT ZAIN, 2019). (Figura 6).

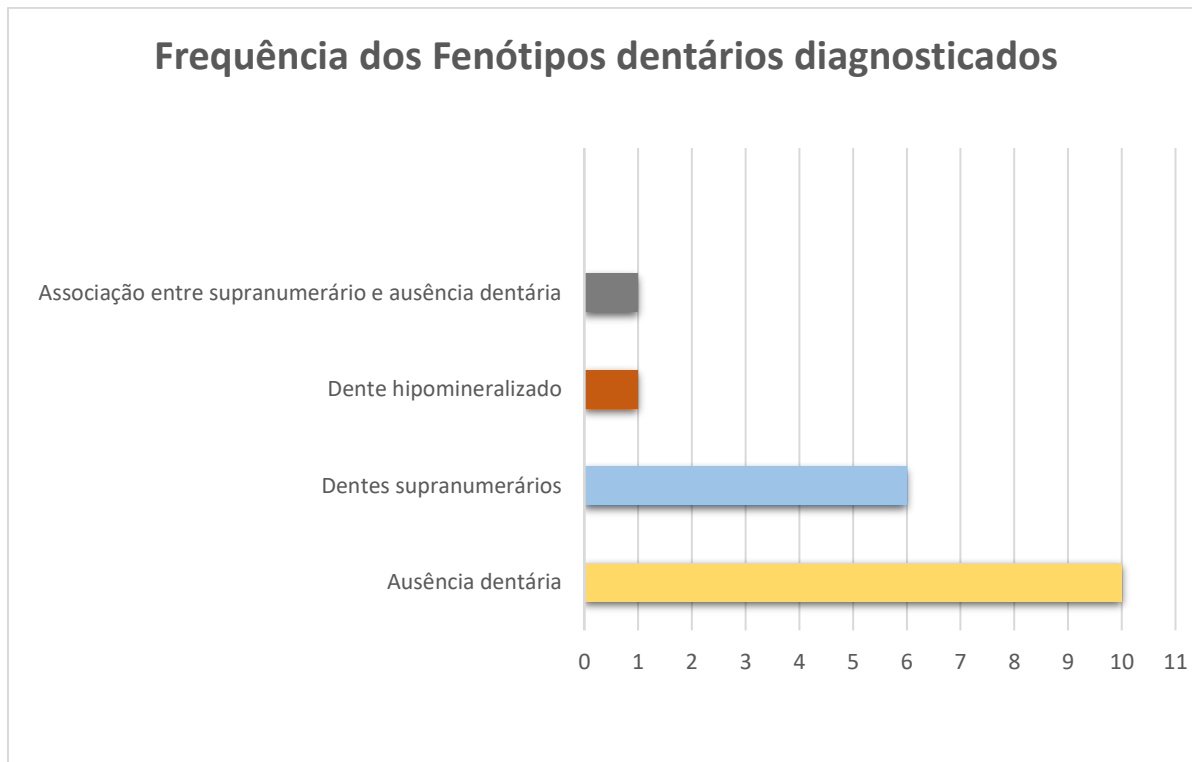


Figura 6- Distribuição dos fenótipos dentários pela quantidade de sujeitos

Dessa forma, analisando somente os sujeitos com algum tipo de anomalia dentária (n=18), a distribuição da prevalência por tipo de alteração foi de: 55,6% (n=10) com as ausências dentárias; 33,4% (n=6) com dentes supranumerários; 5,5% (n=1) com associação entre ausência dentária e dente supranumerário e 5,5% (n=1) com hipomineralização.

Quanto aos dentes ou grupo de dentes acometidos por cada tipo de anomalia dentária, para as ausências dentárias, essas foram descritas em região de incisivos (centrais e laterais), pré-molares e molares, tanto na dentadura decídua como na permanente, havendo em alguns estudos uma correlação do tipo de fissura e sua localização com a ausência dentária.

Os dentes supranumerários foram diagnosticados na maioria dos estudos em dentes posteriores, tanto na dentadura decídua como na permanente. Sendo que alguns estudos descreviam somente que havia dentes supranumerários, sem detalhar quantos dentes ou mesmo quais os dentes acometidos. Em um dos estudos de relato de caso foram 14 dentes supranumerários diagnosticados, sendo que 4 deles estavam impactados.

No único caso que apresentou associação de ausência dentária e também supranumerários, essas anomalias ocorreram respectivamente: ausência do primeiro molar superior esquerdo e supranumerários superiores do lado direito, sendo que nesse relato de caso o paciente apresentava fissura Tessier 7 bilateral.

O outro caso único descrito foi de hipomineralização de dente na região inferior mediana, e nesse caso o paciente apresentava fissura Tessier 30.

5 DISCUSSÃO

5 DISCUSSÃO

As fissuras raras ou atípicas apresentam prevalência em torno de 1,43 a 4,85 a cada 100.000 nascimentos (HOU et al., 2011; MAEDA et al., 2014; BAEK et al., 2018), ocorrência esta inferior à das fissuras típicas, e dessa forma, os casos com esse tipo de fissura, como o próprio nome diz, são raros. Ainda em linha com esse dado epidemiológico, o que também pôde ser constatado no processo de seleção dos estudos a serem incluídos nessa revisão sistemática, a maioria estudos publicados abordando essa temática são de relatos de caso, descrevendo as características faciais e ou cirúrgicas dos casos. E ainda, na grande maioria desses trabalhos, não são analisados outros fenótipos associados cursando com esse tipo de fissura.

Dessa forma, o presente estudo propôs uma revisão sistemática para investigar quais os fenótipos dentários mais frequentes cursando com fissuras orofaciais raras. Ao descrever esses fenótipos dentários mais comum nas fissuras raras esse estudo busca contribuir para o diagnóstico bucal e o planejamento do tratamento odontológico, pois a depender do tipo de fenótipos dentários mais comuns e a frequência com que ocorrem, esse pode ser um fator adicional determinante a ser considerado no processo de reabilitação integral (estética, funcional e emocional) no contexto das fissuras raras.

Por se tratar de uma condição atípica e envolver um grande espectro de alterações, o diagnóstico precoce é importante para um bom prognóstico e o manejo desses pacientes necessita de uma equipe multidisciplinar para tratamento e acompanhamento incluindo, na equipe, um cirurgião plástico e um cirurgião-dentista (MAEDA et al., 2014; SUN et al., 2020).

A partir do somatório das casuísticas dos 12 trabalhos selecionados para compor essa revisão sistemática, foi avaliado um total de 53 sujeitos, havendo uma distribuição equilibrada quanto ao perfil do gênero dessa casuística, pois 27 (51%) eram do sexo masculino, enquanto 26 (49%) eram do sexo feminino, o que coincide com a distribuição encontrada no estudo de Chung et al., 2020. Já o trabalho de Kalantar-hormozi et al., 2017, mostrou porcentagem maior para o sexo feminino

(51,3%). Chung et al., 2020 discutem que essas discrepâncias podem ser devido a diferenças étnicas.

Por meio da avaliação desse dado aparentemente não há predileção por gênero em se tratando de fissuras orofaciais raras, não considerando o tipo específico de fissura rara. Esses resultados diferem dos dados de prevalência encontrados para as fissuras típicas (lábio, lábio e palato e palato isolada) em que as fissuras de palato isoladas são mais prevalentes no sexo feminino, enquanto as fissuras de lábio isoladas ou lábio e palato são mais prevalentes no sexo masculino (TRINDADE IEK, 2007; MARTELLI et al., 2012).

Com relação ao tipo de fissura rara, a fissura do tipo Tessier 7 foi a mais prevalente nos trabalhos analisados. Um estudo retrospectivo longitudinal realizado por Chung et al., 2020, também encontrou a fissura Tessier 7 como a mais prevalente entre as fissuras raras avaliadas naquele estudo.

Por outro lado, a fissura menos prevalente nessa casuística que compôs esta revisão foi a Tessier 11 e a transversa/oblíqua. Na literatura consultada não foram encontrados trabalhos que abordassem uma possível justificativa para esses achados.

Em relação aos fenótipos dentários, a prevalência de um ou mais tipos de anomalias dentárias nessa casuística de sujeitos com fissuras raras foi de 34%, ou seja, de um total de 53 sujeitos avaliados em todos os trabalhos, em apenas 18 foi descrito algum tipo de anomalia dentária associada. Por meio da revisão dos resultados dos estudos incluídos no presente trabalho, não foi possível saber se eles realizaram o diagnóstico de todas as anomalias dentárias presentes nos casos analisados ou se apenas relataram as alterações mais comuns ou aquelas que chamaram mais a atenção.

Uma possível explicação para tal prevalência poderia estar relacionada também a diferenças metodológicas ou abordagens utilizadas nos estudos para esses diagnósticos. Ou mesmo a questão da idade do paciente na data do exame, pois o perfil de faixa etária, considerando todos os estudos incluídos, foi bem amplo, variando de um bebê de 1 semana a um sujeito com 25 anos de idade. Esse amplo espectro de faixa etária realmente dificulta muito a avaliação de possíveis anomalias dentárias, que dependem preferencialmente de avaliação clínica e radiográfica para o

diagnóstico conclusivo. Além disso, para os diagnósticos de alguns tipos específicos de fenótipos dentários há uma faixa etária ideal, especialmente na dentadura permanente, como por exemplo as hipodontias e as alterações estruturais do esmalte dentário, entre outras, fato este que pode levar a uma subestimativa da prevalência de anomalias dentárias nessa população, especialmente quando os pacientes são avaliados em faixas etárias muito precoces.

Considerando esses 18 sujeitos com algum tipo de anomalia dentária, o fenótipo mais comum foram as ausências dentárias e os dentes supranumerários. Analisando individualmente a prevalência de cada uma das alterações, é possível verificar que a prevalência das ausências dentárias foi de 55,6% com predominância de ausências de incisivos centrais e laterais, permanentes e decíduos, tanto na maxila quanto na mandíbula. Sendo descritos também ausências de pré-molares e achados incomuns de ausência de molares permanentes. No geral, quanto a esses achados é importante destacar que muitos dos trabalhos utilizam o termo ausências dentárias ao invés de agenesia dentária ou hipodontia, que seria o termo mais adequado para designar a ausência congênita do dente. Esse fato pode estar associado a impossibilidade de um diagnóstico conclusivo se a ausência do dente é devida a uma hipodontia verdadeira ou decorrente de uma perda dentária de causa desconhecida antecedente ao exame do paciente. Podendo também ser atribuído as metodologias utilizadas para o diagnóstico, assim como à idade do paciente na data da realização da avaliação.

Nos sujeitos com fissura orofaciais típicas, as hipodontias também são muito comuns, sendo que a ausência do incisivo lateral do lado fissurado é o fenótipo dentário mais comumente encontrado (RIBEIRO et al., 2003; TEREZA; CARRARA; COSTA, 2010). E esse fato também pode ser observado nos resultados encontrados no presente estudo, em que, em muitos casos, a região que apresentava a ausência dentária era coincidente com a localização da fissura atípica. Para essas ausências dentárias próximas a região da fissura são levantadas algumas hipóteses de causa e efeito como a deficiência de aporte sanguíneo desencadeada pela presença do defeito ou mesmo a manipulação dos tecidos nos procedimentos cirúrgicos reparadores. Além disso, fatores genéticos também têm sido apontados como fator etiológico associado a essas anomalias dentárias em pacientes com fissuras orofaciais (OLIVEIRA SÁ et al., 2015).

Os pacientes que apresentaram dentes supranumerários representaram 33,4% da amostra. Esse tipo de anomalia dentária também é encontrado com frequência na população com fissuras típicas (OLIVEIRA SÁ et al., 2015) e com uma frequência inferior, em pacientes sem anomalias craniofaciais (ANEGUNDI et al., 2014). Interessante que os dentes retidos ou impactados, que representam um outro tipo de anomalia dentária, foram diagnosticados associados aos dentes supranumerários todos eles relatados em um dos estudos selecionados nesta revisão (RAMANATHAN et al., 2012).

Analisando esses dados referentes aos supranumerários por um outro prisma, considerando uma possível correlação entre o tipo de fissura e o tipo de anomalia dentária, nos trabalhos que apresentaram casos de fissura do tipo Tessier 7 (n=5), representando 41,67% do total de trabalhos selecionados para esta revisão, o fenótipo dentário mais comum associado a esse tipo específico de fissura foi a presença de dentes supranumerários.

Enquanto a associação entre supranumerários e ausências dentárias, foi relatada em somente um dos trabalhos selecionados, representando 5,5%. Esse tipo de associação entre agenesia dentária e dentes supranumerários, apesar de não ser comum, também foi relatada no trabalho de Küchler et al., 2011 em casuística de sujeitos com fissuras típicas.

A ocorrência de hipomineralização de incisivo inferiores foi relatada em somente um caso isolado com fissura Tessier 30. O que pode ter ocorrido em decorrência da presença da própria fissura na mandíbula com consequente comprometimento de irrigação para essa região de incisivos e para os dentes em formação, comprometendo o processo de mineralização da estrutura dentária durante a odontogênese. Contudo, o foco principal desse trabalho era a descrição da característica clínica assim como o procedimento cirúrgico para a reabilitação de dois casos com língua bífida congênita associada a Tessier 30, o que não permite concluir que esse era o único fenótipo dentário presente nesses casos clínicos.

Por fim, os resultados dessa revisão sistemática apontam que as ausências dentárias e os dentes supranumerários são os fenótipos dentários mais frequentes nos casos de fissuras orofaciais raras. No entanto, deve-se considerar as limitações do presente estudo, no que tange a própria característica dos trabalhos de revisões

sistemáticas que por mais que sejam realizadas atendendo a protocolos padronizados e validados, está sujeita a vieses, como diferenças metodológicas quanto aos critérios diagnósticos utilizadas nos diversos trabalhos selecionados para integrar a revisão, o que pode impactar nos resultados obtidos. E ainda, alguns dos trabalhos selecionados não apresentavam quantos ou quais dentes tinham sido acometidos pelos fenótipos dentários descritos, o que não permitiu chegar a um padrão provável de que essas anomalias dentárias estejam realmente associadas exclusivamente a área da fissura. Assim, recomendamos que em estudos futuros envolvendo anomalias dentárias seria interessante apresentar esse tipo de informação, isso porque o impacto clínico do número de dentes acometidos e quais os dentes envolvidos têm consequências no prognóstico clínico e logo, podem apontar se há um padrão esperado ou mesmo uma chance de predição. Sendo, algumas vezes, possível antecipar condutas clínicas para minimizar esse impacto clínico no processo de reabilitação.

Dessa forma, por meio de um diagnóstico mais amplo será possível melhorar o detalhamento do espectro de fenótipos envolvidos nos casos de fissuras raras, melhorando o diagnóstico e especialmente proporcionando dados para um melhor plano de tratamento global visando a reabilitação integral dos pacientes com fissuras orofaciais raras refletindo em melhora da qualidade de vida e integração socioemocional.

6 CONCLUSÃO

6 CONCLUSÃO

Os resultados dessa revisão sistemática apontam que as ausências dentárias e os dentes supranumerários são os fenótipos dentários mais frequentes nos casos de fissuras orofaciais raras.

REFERÊNCIAS

REFERÊNCIAS

ADEOSUN, Oo.; OGAH, S. Rare craniofacial cleft in a dark-skinned African population. **Nigerian Medical Journal**, v. 58, n. 1, p. 21, 2017.

ANEGUNDI, R. et al. Prevalence and characteristics of supernumerary teeth in a non-syndromic South Indian pediatric population. **Journal of Indian Society of Pedodontics and Preventive Dentistry**, v. 32, n. 1, p. 9–12, jan. 2014. Disponível em:
<https://www.researchgate.net/publication/260218594_Prevalence_and_characteristics_of_supernumerary_teeth_in_a_nonsyndromic_South_Indian_pediatric_population>

BAEK, S. H. et al. Orthodontic and orthopedic treatment for a growing patient with Tessier number 0 cleft. **Korean Journal of Orthodontics**, v. 48, n. 2, p. 113–124, 2018.

BALAJI, S. M. Two-stage Corrections of Rare Facial Tessier's Cleft-3,4,5,6,7. **Annals of Maxillofacial Surgery**, v. 8, n. 1, p. 1–2, 2018.

BELLO, S. A. et al. Atypical Facial Clefts From Northcentral Nigeria, Review of 36 Cases. **The Cleft palate-craniofacial journal : official publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association**, v. 56, n. 4, p. 514–520, 2019.

BORZABADI-FARAHANI, A. et al. A rare case of accessory maxilla and bilateral Tessier no. 7 clefts, a 10-year follow-up. **Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery**, v. 41, n. 6, p. 527–531, 2013. Disponível em:
<<http://dx.doi.org/10.1016/j.jcms.2012.11.019>>.

CHUNG, J. H. et al. Distribution, side involvement, phenotype and associated anomalies of korean patients with craniofacial clefts from single university hospital-based data obtained during 1998–2018. **Korean Journal of Orthodontics**, v. 50, n. 6, p. 383–390, 2020.

FEARON, J. A. Rare craniofacial clefts: A surgical classification. **Journal of Craniofacial Surgery**, v. 19, n. 1, p. 110–112, 2008.

FREITAS, J. A. de S. et al. Rehabilitative Treatment of Cleft Lip and Palate: Experience of the Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies/USP (HRAC/USP)--Part 1: Overall Aspects. **Journal of applied oral science : revista FOB**, v. 20, n. 1, p. 9–15, fev. 2012.

HOU, M. et al. Lateral or oblique facial clefts associated with accessory maxillae: Review of the literature and report of a case. **Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery**, v. 43, n. 5, p. 585–592, 2015. Disponível em: <<http://dx.doi.org/10.1016/j.jcms.2015.02.008>>.

HOU, R. et al. A rare bilateral Tessier no. 6 and 7 clefts. **Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery**, v. 39, n. 2, p. 93–95, 2011. Disponível em: <<http://dx.doi.org/10.1016/j.jcms.2010.10.011>>.

HOWE, B. J. et al. Spectrum of dental phenotypes in nonsyndromic orofacial clefting. **Journal of Dental Research**, v. 94, n. 7, p. 905–912, 3 jul. 2015. Disponível em: <pmc/articles/PMC4530345/>.

KALANTAR-HORMOZI, A. et al. Prevalence of Rare Craniofacial Clefts. **The Journal of craniofacial surgery**, v. 28, n. 5, p. e467–e470, 1 jul. 2017. Disponível em: <<https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/28678141/>>.

KONSTANTONIS, D. et al. A cross-sectional analysis of the prevalence of tooth agenesis and structural dental anomalies in association with cleft type in non-syndromic oral cleft patients. **Progress in Orthodontics**, v. 18, n. 1, 1 dez. 2017. Disponível em: <pmc/articles/PMC5498431/>.

LADANI, P.; SAILER, H. F.; SABNIS, R. Tessier 30 symphyseal mandibular cleft: Early simultaneous soft and hard tissue correction - A case report. **Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery**, v. 41, n. 8, p. 735–739, 2013. Disponível em: <<http://dx.doi.org/10.1016/j.jcms.2012.12.009>>.

LEE, J. Y.; MOHD ZAINAL, H.; MAT ZAIN, M. A. Bin. Bifid Tongue and Cleft Palate With and Without a Tessier 30 Facial Cleft: Cases of Rare Congenital Anomalies and a Review of Management and Literature. **The Cleft Palate-Craniofacial Journal**, p. 105566561984677, 2019.

MAEDA, T. et al. Combination of Tessier clefts 3 and 4: Case report of a rare anomaly with 12 years' follow-up. **Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery**, v. 42, n. 8, p. 1985–1989, 2014. Disponível em: <<http://dx.doi.org/10.1016/j.jcms.2014.09.003>>.

MARTELLI, D. R. B. et al. Fissuras lábio palatinas não sindrômicas: relação entre o sexo e a extensão clínica. **Brazilian Journal of Otorhinolaryngology**, v. 78, n. 5, p. 116–120, 2012. Disponível em: <<http://www.scielo.br/j/bjorl/a/MdJ5Hc8STdrjYBBQg3RQ8vM/?lang=pt>>.

MARZOUK, T. et al. **Association between Dental Anomalies and Orofacial Clefts: A Meta-analysis**JDR Clinical and Translational ResearchSAGE Publications, , 1 out. 2021. . Disponível em: </pmc/articles/PMC8447105/>.

MELO FILHO, M. R. M. et al. Taurodontism in patients with nonsyndromic cleft lip and palate in a Brazilian population: A case control evaluation with panoramic radiographs. In: Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology and Oral Radiology, 6, **Anais...Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol**, 1 dez. 2015. Disponível em: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/26428895/>.

OLIVEIRA SÁ, J. De et al. ANOMALIAS DENTÁRIAS NAS FISSURAS LABIAIS E/OU PALATINAS NÃO-SINDRÔMICAS: REVISÃO DA LITERATURA. **Journal of Dentistry & Public Health**, v. 5, n. 3, 18 jun. 2015. Disponível em: <https://www5.bahiana.edu.br/index.php/odontologia/article/view/495>.

ÖZÇELİK, D. et al. Lateral facial cleft associated with accessory mandible having teeth, absent parotid gland and peripheral facial weakness. **Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery**, v. 42, n. 5, p. 239–244, 2014.

PAGE, M. J. et al. The PRISMA 2020 statement: An updated guideline for reporting systematic reviews. **The BMJ**, v. 372, 2021.

RACZ, C. et al. Phenotypic spectrum of Tessier facial cleft number 5. **Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery**, v. 46, n. 1, p. 22–27, 2018.

RAMANATHAN, M. et al. A Rare Case of Multiple Oblique Facial Clefts with Supernumerary Teeth: Case Report. **Cranio-maxillofacial Trauma and Reconstruction**, v. 05, n. 04, p. 239–242, 2012.

RIBEIRO, L. L. et al. Dental anomalies of the permanent lateral incisors and prevalence of hypodontia outside the cleft area in complete unilateral cleft lip and palate. **Cleft Palate-Craniofacial Journal**, v. 40, n. 2, p. 172–175, 15 mar. 2003. Disponível em: <https://journals.sagepub.com/doi/10.1597/1545-1569_2003_040_0172_daotpl_2.0.co_2?url_ver=Z39.88-2003&rfr_id=ori%3Arid%3Acrossref.org&rfr_dat=cr_pub++0pubmed>.

SUN, M. et al. A rare case of accessory maxilla: a case report and literature review of Tessier no. 7 clefts. **Journal of International Medical Research**, v. 48, n. 5, 2020a.

TEREZA, G. P. G.; CARRARA, C. F. D. C.; COSTA, B. Tooth abnormalities of number and position in the permanent dentition of patients with complete bilateral cleft lip and palate. **Cleft Palate-Craniofacial Journal**, v. 47, n. 3, p. 247–252, maio 2010. Disponível em: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/20426674/>.

TRINDADE IEK, S. F. O. **Fissuras labiopalatinas - uma abordagem interdisciplinar**. São Paulo: Ed. Santos, 2007.

WECKWERTH, G. M. et al. Taurodontism, root dilaceration, and tooth transposition: A radiographic study of a population with nonsyndromic cleft lip and/or palate. **Cleft Palate-Craniofacial Journal**, v. 53, n. 4, p. 404–412, 1 jul. 2016. Disponível em: <<https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/26247709/>>.