Sialolito de grandes proporções em glândula submandibular

Large sialolith in submandibular gland

Sialolito grande en glándula submandibular

 $Recebido:\ 26/12/2022\ |\ Revisado:\ 05/01/2023\ |\ Aceitado:\ 07/01/2023\ |\ Publicado:\ 10/01/2023\ |\ Aceitado:\ 07/01/2023\ |\ Publicado:\ 10/01/2023\ |\ Publicado:\ 10/01/2023\$

Érica Bugone

ORCID: https://orcid.org/0000-0002-6680-367X Universidade Federal do Rio Grande do Sul, Brasil E-mail: ericabugone_@hotmail.com

Raissa Nsensele Nyarwaya

ORCID: https://orcid.org/0000-0002-1938-4185 Universidade Federal do Rio Grande do Sul, Brasil E-mail: raissansensele@gmail.com

Nadine Barbosa Ferreira

ORCID: https://orcid.org/0000-0001-7526-8050 Universidade Federal do Rio Grande do Sul, Brasil E-mail: nadinebferreira@gmail.com

Angelo Luiz Freddo

ORCID: https://orcid.org/0000-0001-6361-6572 Universidade Federal do Rio Grande do Sul, Brasil E-mail: angelofreddo@gmail.com

Adriana Corsetti

ORCID: https://orcid.org/0000-0002-0136-1321 Universidade Federal do Rio Grande do Sul, Brasil E-mail: adri.corsetti@gmail.com

Resumo

Introdução: A Sialolitíase é uma alteração que afeta as glândulas salivares e se caracteriza pela obstrução da glândula ou de seu ducto excretor devido a formações calcificadas chamadas de sialolitos. Objetivo e relato de caso: O objetivo desse artigo é relatar um caso raro de sialolito de grandes proporções e realizar uma discussão sobre diagnóstico e tratamento da sialolitíase. Paciente de 65 anos, sexo masculino, com queixas de aumento de volume em região submandibular à esquerda, relatando piora do quadro após as refeições, com evolução de 12 anos. No exame de tomografia computadorizada observou-se área hiperdensa de 4,0x2,0cm em suas maiores proporções. O tratamento de escolha foi a remoção do sialolito via intrabucal por técnica conservadora com preservação do ducto de Warthon através de seu cateterismo. Considerações finais: Embora a sialolitíase seja uma patologia bucal comum, a presença de sialolitos de grandes dimensões é um evento raro que demanda conhecimento e preparo para o adequado tratamento. A combinação de métodos diagnósticos adequados com intervenção minuciosa e conservadora leva a um bom prognóstico em termos de recuperação dos pacientes.

Palavras-chave: Patologia bucal; Cálculos das glândulas salivares; Glândulas salivares.

Abstract

Introduction: Sialolithiasis is an alteration that affects the salivary glands and is characterized by obstruction of the gland or its excretory duct due to calcified formations called sialoliths. Objective and case report: To report a rare case of large sialolith and conduct a discussion of the diagnosis and treatment of sialolithiasis. A 65-year-old male patient complained of swelling in the left submandibular region, reporting a worsening of the condition after meals, with an evolution of 12 years. In the computed tomography exam, a hyperdense area of 4.0x2.0cm in its largest proportions wasobserved. The treatment of choice was intraoral removal of the sialolith using a conservative technique with preservation of Warthon's duct through catheterization. Final considerations: Although sialolithiasis is a common oral pathology, the presence of large sialoliths is a rare event that requires knowledge and preparation for proper treatment. The combination of adequate diagnostic methods with thorough and conservative intervention leads to a good prognosis in terms of patient recovery.

Keywords: Salivary gland calculi; Salivary glands; Case reports.

Resumen

Introducción: La sialolitiasis es una alteración que afecta a las glándulas salivales y se caracteriza por la obstrucción de la glándula o de su vía excretora por formaciones calcificadas denominadas sialolitos. Objetivo y reporte de caso: Reportar un caso raro de sialolito grande y realizar una discusión sobre el diagnóstico y tratamiento de la sialolitiasis.

Paciente varón de 65 años de edad, consulta por tumefacción en región submandibular izquierda, refiriendo empeoramiento del cuadro después de las comidas, con evolución de 12 años. En el examen de tomografía computarizada se observó un área hiperdensa de 4.0x2.0cm en sus mayores proporciones. El tratamiento de elección fue la extracción intraoral del sialolito mediante técnica conservadora con preservación del conducto de Warthon mediante cateterismo. Consideraciones finales: Si bien la sialolitiasis es una patología oral frecuente, la presencia de sialolitos de gran tamaño es un evento raro que requiere conocimiento y preparación para un tratamiento adecuado. La combinación de métodos diagnósticos adecuados con una intervención cuidadosa y conservadora conduce a un buen pronóstico en cuanto a la recuperación del paciente.

Palabras clave: Patología bucal; Cálculos de las glándulas salivales; Diagnóstico.

1. Introdução

Os sialolitos, também chamados de cálculos, são estruturas calcificadas compostos por um núcleo mineralizado amorfo cercado por camadas de substâncias orgânicas e inorgânicas, que podem se formar no interior das glândulas salivares ou de seus ductos excretores causando a sialolitíase (Thong *et al.*, 2021).

A sialolitíase é um processo onde ocorrer a interrupção ou diminuição do fluxo salivar, gerando acúmulo de saliva, aumento de volume e dor na região afetada causadas pela pressão intra glandular. Estes episódios geralmente ocorrem próximo as refeições persistindo por algumas horas, seguidos por longos episódios de remissão. Em alguns casos ocorre a obstrução incompleta do ducto, a saliva infiltrar-se através ou ao redor da sialolito, e o paciente apresentar-se assintomático, tornando o sialolito um achado radiográfico (Kraaij *et al.*, 2014).

Em alguns casos de sialolitíase pode ocorrer a contaminação retrógrada da glândula por bactérias levando a um quadro de sialoadenite, inflamação da glândula salivar, que geralmente se apresenta edemaciada e com drenagem de secreção purulenta (Adhikari & Soni, 2022).

A sialolitíase é a doença mais comum das glândulas salivares e apresenta-se com maior frequência na terceira a sexta década de vida, sendo os homens mais afetados (Capaccio *et al.*, 2007). A glândula submandibular é a localização mais comum, sendo acometidaem cerca de 85% dos casos, seguida pela glândula parótida em 15%, sublingual e menores em 5% dos casos (Hammett & Walker, 2019).

Diversos fatores colaboram para esta maior incidência, as glândulas submandibulares produzem saliva com maior teor mucoso, resultando em um fluxo mais estagnado de secreções, mais alcalina, que predispõe a precipitação de cálcio e fósforo, além disso, seu ducto é mais longo e apresenta um fluxo anti-gravidade (Aiyekomogbon *et al.*, 2018).

Os fatores etiológicos desta patologia ainda não são claros, hipóteses incluem questões anatômicas, que afetam a formação ou o fluxo salivar, e fatores composicionais, como aumento do teor de cálcio e funções enzimáticas alteradas, infecção, inflamação, trauma físico do ducto ou da glândula (Hammett & Walker, 2019). Alguns hábitos também podem ser relacionados a sialolitíase como a diminuição da ingestão de líquidos, medicamentos que reduzem o fluxo salivar e o tabaco (Jin et al., 2020; Ungari et al., 2022).

Clínicamente, os cálculos podem apresentar-se em formato arredondado ou ovalado, macios ou consistentes, geralmente de coloração amarelada. Geralmente os sialolitos são palpáveis nas porções periféricas dos ductos salivares e quando possuem tamanhos menores comumente são expelidos, de forma espontânea, por meio da pressão exercida pela saliva retida. Sialolitos de tamanhos maiores exigem abordagens mais radicais (Santana *et al.*, 2021).

Este trabalho tem como objetivo relatar um caso raro de sialolito de grandes proporções e realizar uma discussão acertado diagnóstico e tratamento da sialolitíase.

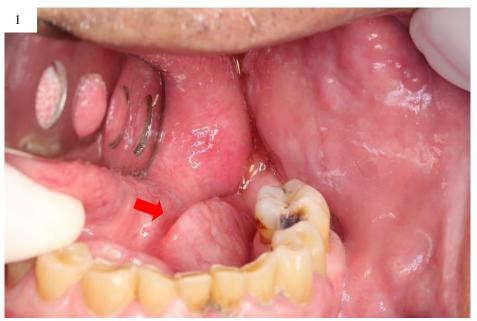
2. Metodologia

Trata-se de estudo retrospectivo, descritivo e observacional no formado de Relato de Caso Clínico (Estrela, 2018) de um paciente que apresentando um sialolito de grandes proporções em glândula submandibular que foi tratado cirurgicamente em ambiente hospitalar. Os dados descritivos foram coletados através de acesso ao prontuário eletrônico, após autorização do paciente, mediante assinatura do Termo de Consentimento Livre e Esclarecido. O relato de caso foi submetido e aprovado (nº 5.799.408) no Comitê de Pesquisa do Hospital de Clínicas de Porto Alegre e Comissão Nacional de Ética em Pesquisa. Foram feitas buscas na literatura utilizando o MeSH Database através da padronização das palavraschave. A discussão foi baseada nas publicações anteriores acerca do tema.

3. Relato de Caso

Paciente do sexo masculino, 65 anos, branco, apresentou-se ao Serviço de Cirurgia Buco-Maxilo-Facial do Hospital de Clínicas de Porto Alegre com queixa de aumento de volume em assolho de boca com evolução de 12 anos, relatando piora do quadro em períodos prévios às refeições. Paciente negou comorbidades e uso de medicamentos, referiu ser extabagista, parou de fumar há dois anos. Ao exame clínico observou-se aumento de volume endurecido em região de assoalho de boca do lado esquerdo (Figura 1), paciente apresentava dor a palpação. Após descartado sinais de quadro infeccioso de origem dentária foi solicitado Tomografia Computadorizada para investigação.

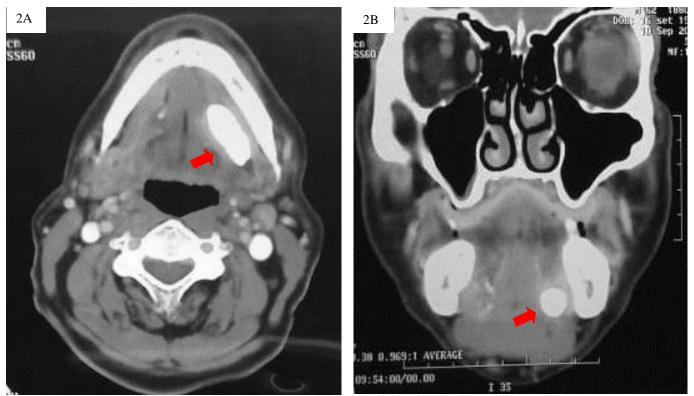
Figura 1 - Aspecto clínico intrabucal pré operatório. É possível observar o aumento de volume em região de assoalho de boca do lado esquerdo (seta vermelha).



Fonte: Autores.

No exame de Tomografia Computadorizada, observa-se uma área hiperdensa de 4,0x2,0cm em suas áreas de maior proporção localizada na porção medial do corpo mandibular (Figura 2A e 2B).

Figura 2 - Exame de tomografia pré operatório. **Figura 2A**: No corte axial podemos observar a imagem hiperdensa, ovalada, localizado no espaço submandibular do lado esquerdo (seta vermelha). **Figura 2B**: Corte coronal mostrando posicionamento do sialolito na porção medial do corpo mandibular (seta vermelha).



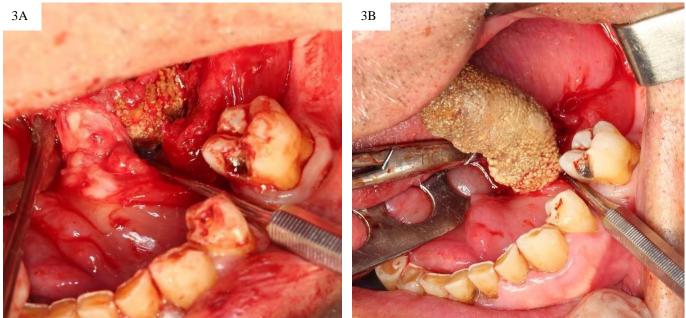
Fonte: Autores.

Como tratamento foi optado por técnica conservadora com preservação do ducto de Warthon através de seu cateterismo. O paciente foi submetido a anestesia geral, com intubação nasotraqueal, após aposição dos campos estéreis e colocação do tampão orofaríngeo foi realizado o cateterismo do ducto de Wharthon com fio de sutura de nylon, que permaneceu em posição por por 07 dias, para preservar o lúmen do ducto e a drenagem de salivar.

Após foi realizada a incisão em assoalho bucal na região do sialolito, divulsão dos tecidos com tesoura romba (Figura 3A e 3B) e remoção do cálculo que mediu cerca de 4,0 x 2,0 cm (Figura 3C). Realizou-se os cuidados com a ferida operatórias e sutura com pontos simples com fio de poliglactina absorvível 4.0.

O paciente seguiu em acompanhamento ambulatorial no pós operatório, sem queixas e não apresentou sinais de xerostomia ou quadros infecciosos. Não houve recidivas da lesão ou complicações no acompanhamento pós operatório.

Figura 3 - Aspecto transoperatório. **Figura 3 A**: Acesso realizado em assoalho bucal. **Figura 3B:** Remoção do sialolito de grandes proporções que encontrava-se alojado na glândula submandibular. **Figura 3C:** Sialolito removido mediu certa de 4,0 cm x 2,0 cm.



Fonte: Autores



Fonte: Autores.

4. Discussão

Apesar de a sialolitíase ser uma doença comum, sialólitos de grandes proporções são raros. Aproximadamente 59% das pedras têm diâmetro entre 2,1 e 10mm e 7,6% são maiores que 15mm na seção. As pedras salivares são classificadas como "pedras salivares gigantes" quando o diâmetro é de 15mm ou mais em qualquer direção (Kraaij *et al.*, 2014). O sialólito apresentado neste relato de caso mediu cerca de 4,0cm x2,0cm sendo considerado um caso raro.

Um estudo realizado por Avishai et al. (2020) mostrou que diagnóstico e tratamento precoce podem diminuir a

morbidade pós operatória. O diagnóstico de sialolitíase é feito com base em sua apresentação clínica e exames de imagem que são utilizados para completar o diagnóstico. A radiografia oclusal de mandíbula é muito utilizada para visualização das pedras que se apresentam radiopacas em mais de 80% dos casos (Thong et al., 2021). Quando os sialólitos são radiolúcidos ou estão localizados dentro das glândulas salivares podem ser investigados utilizando a sialografia, mas este exame é doloroso durante a inserção do contraste eé contraindicado nos casos de alergia ao contraste ou infecção (Rzymska-Grala *et al.*, 2010).

A ultrassonografia fornece um método não invasivo de diagnóstico sendo que o aparecimento usual de sialolitos no ultrassom é um foco hiperecóico com sombra posterior. Os benefícios da ultrassonografia incluem a não exposição à radiação, interpretação de imagem em tempo real e o fácil acesso (Hammett & Walker, 2019). O diagnóstico através de ultrassonografia continua sendo um excelente método primário para a detecção de sialolitos, no entanto, cálculos que medem menos de 3mm podem não ser identificados (Al-Abri & Marchal, 2010).

A tomografia computadorizada (TC) é uma modalidade amplamente utilizada para a avaliação da sialólitos. É uma ferramenta válida para diagnosticar sialólitos quando estes são grandes o suficiente ou quando as fatias radiográficas são feitas a cada milímetro. A TC foi o exame de escolha neste caso ajudando a identificar o tamanho do sialólito e localização auxiliandono planejamento cirúrgico (Hammett & Walker, 2019). No entanto, as desvantagens incluem exposição à radiação, custo relativamente alto, e má visualização de estenoses. Devido a essas razões, a TC é reservada para casos em que a ultrassonografia não está prontamente disponível ou não é diagnóstica (Quiz & Gillespie, 2021).

Ainda dentre as opções não invasivas para diagnóstico está a sialografia por ressonância magnética (RM). Essa técnica possibilita que seja realizada uma varredura dos ductos salivares por opacificação da via salivar natural sem a necessidade de administração de meio de contraste e sem expor o paciente à irradiação ionizante. É diferente da sialografia clássica pois não hánecessidade de canulação do ducto para injeção de contraste endoluminal. Por sua não invasividade e acurácia é indicada para quadros agudos de sialoadenite em que os outros métodos diagnósticos não tenham sido efetivos (Anicin & Urbancic, 2021; Al-Abri & Marchal, 2010).

Dentre as técnicas minimamente invasivas que podem ser usadas para diagnóstico e tratamento de sialólitos com a preservação da glândula salivar e sua funções, está a sialoendoscopia. A sialoendoscopia utiliza técnicas que permitem a exploração óptica do sistema ductal salivar e a extração dos cálculos sob visão endoscópica (Al-Abri & Marchal, 2010). No diagnóstico, a sialendoscopia permite a visualização direta do ducto e seu revestimento. Com isso, é possível identificar obstruções que não seriam passíveis de identificação através de exames radiológicos, como os sialolitos radiolúcidos, esteanoses e tampões mucosos (Hills *et al.*, 2017; Al-Abri & Marchal, 2010). Segundo Abraham *et al.* (2021) a sialoendoscopia pode ser considerada um método de escolha em cálculos pequenos e médios e com uma alta taxa de sucesso e preservação da glândula.

A escolha do tratamento depende do local, tamanho, forma, número e qualidade das pedras (Gadve *et al.*, 2016) e passou por passou por diversas mudanças ao longo dos anos, partindo de técnicas mais invasivas como a ressecção de glândulas salivares chegando a métodos minimamente invasivos como a sialoendoscopia intervencionista. Além do advento da sialoendoscopia, o desenvolvimento de novos dispositivos, materiais e técnicas promoveu uma mudança geral no panorama do tratamento, saindo de uma taxa de ressecção glandular de 40 a 50% para 5%. Atualmente, ainda temos à disposição técnicas de litotripsia extra corpórea por ondas de choque, métodos de cirurgia do ducto transoral e ainda litotripsia intraductal por ondas de choque (Koch *et al.*, 2021).

Em casos de sialolitos de pequenas proporções como alternativa podem ser utilizadas terapias alternativas como ingestão de alimento azedos, bebidas com vitamina C, suco de limão, gomas de mascar, visando estimular o aumento da produção de saliva e expulsão do sialolito de maneira expontânea. Massagem da glândula afetada também pode ser indicada, sendo realizada várias vezes ao dia, seguindo o curso de excreção de saliva do ducto, sob pressão, buscando com

Research, Society and Development, v. 12, n. 1, e24212139705, 2023 (CC BY 4.0) | ISSN 2525-3409 | DOI: http://dx.doi.org/10.33448/rsd-v12i1.39705

que o cálculo se desloque. Se durante a massagem da glândula observar-se presença de secreção purulenta, pode haver um quadro de sialoadenite associada, neste caso terapia com antiinflamatórios e antibióticos é recomendada (Wolf *et al.*, 2019; Zengel, 2014).

Sempre que a pedra pode ser palpável intraoral, é melhor removê-la através de uma abordagem intraoral. Em casos de sialólitos gigantes indica-se a remoção de forma minimamente invasiva, através de acesso intrabucal. Em alguns casos, a excisão de toda a glândula ainda é necessária, podendo ser necessário a realização de acessos extrabucais. A remoção da glândula submandibular é indicada se a glândula foi danificada por infecção recorrente e fibrose, se há uma pedra de massa substancial dentro da própria glândula que não é cirurgicamente acessível intrabucal, há pequenas pedras presentes na porção vertical do duto de Wharton, o tamanho de uma pedra intra glandular atinge 12 mm ou mais (Gadve *et al.*, 2016).

No presente caso, a partir da determinação do tamanho e posição do extenso sialolito, o tratamento de escolha foi a cirurgia do ducto intrabucal por técnica conservadora com preservação do ducto de Warthon através de seu cateterismo prévio.

5. Considerações Finais

Embora a sialolitíase seja patologia bucal comum, a presença de sialólitos de grandes dimensões é um evento raro que demanda conhecimento e preparo para o adequado tratamento. A combinação de métodos diagnósticos adequados com intervenção minuciosa e conservadora leva a bom prognóstico em termos de recuperação dos pacientes.

Referências

Aiyekomogbon, J. O., Babatunde, L. B., & Salam, A. J. (2018). Submandibular sialolithiasis: The roles of radiology in its diagnosis and treatment. *Annals of African medicine*, 17(4), 221.

Abraham, Z. S., Mathias, M., Kahinga, A. A. (2021). Unusual giant calculus of the submandibular duct: Case report and literature review. *Int J Surg Case Rep.*, 84 (2021).

Adhikari, R., Soni, A.(2022). Submandibular Sialadenitis And Sialadenosis. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing.

Al-Abri, R., & Marchal, F. (2010). New era of endoscopic approach for sialolithiasis: Sialendoscopy. Sultan Qaboos University Medical Journal, 10(3), 382.

Anicin, A., & Urbancic, J. (2021). Sialendoscopy and CT navigation assistance in the surgery of sialolithiasis. Radiology and Oncology, 55(3), 284-291.

Capaccio, P., Torretta, S., Ottaviani, F., Sambataro, G., & Pignataro, L. (2007). Modern management of obstructive salivary diseases. Acta otorhinolaryngologica italica, 27(4), 161.

Estrela, C. (2018). Metodologia científica: Ciência, ensino e pesquisa. Arte Med.

Gadve, V., Mohite, A., Bang, K., & Shenoi, S. R. (2016). Unusual giant sialolith of Wharton's duct. Indian Journal of Dentistry, 7(3), 162.

Hammett, J. T., & Walker, C. (2019). Sialolithiasis. StatPearls.

Hills, A. J., Holden, A. M., & McGurk, M. (2017). Sialendoscopy-assisted transfacial removal of parotid calculi. *Acta Otorhinolaryngologica Italica*, 37(2), 128.

Jin, Y. J., Han, Y. E., & Choi, H. G. (2020). The association between sialolithiasis and smoking, alcohol drinking and obesity in Korea: a nested case-control study. *BMC Public Health*, 20(1), 1-8.

Koch, M., Mantsopoulos, K., Müller, S., Sievert, M., & Iro, H. (2021). Treatment of Sialolithiasis: What Has Changed? An Update of the Treatment Algorithms and a Review of the Literature. *Journal of Clinical Medicine*, 11(1), 231.

Kraaij, S., Karagozoglu, K. H., Forouzanfar, T., Veerman, E. C. I., & Brand, H. S. (2014). Salivary stones: symptoms, aetiology, biochemical composition and treatment. *British dental journal*, 217(11), E23-E23.

Quiz, J., Gillespie, M. B. (2021). Transoral Sialolithotomy Without Endoscopes: An Alternative Approach to Salivary Stones. *Otolaryngol Clin North Am.*, 54(3), 553-565

Rzymska-Grala, I., Stopa, Z., Grala, B., Gołębiowski, M., Wanyura, H., Zuchowska, A., Sawicka, M. & Zmorzyński, M. (2010). Salivary gland calculi–contemporary methods of imaging. *Polish journal of radiology*, 75(3), 25.

Santana, D. C. P., Garcia, J. J., Silva, J. M. A., Barboza, A. D. A., & de Azevedo, R. A. (2021). Tratamento cirúrgico de sialolito intraglandular: relato de

Research, Society and Development, v. 12, n. 1, e24212139705, 2023 (CC BY 4.0) | ISSN 2525-3409 | DOI: http://dx.doi.org/10.33448/rsd-v12i1.39705

 $caso.\ {\it Journal\ of\ Health\ \&\ Biological\ Sciences}, 9 (1),\, 1\text{--}4.$

Thong, H. K., Othman, I. A., Ramli, R., & Athar, P. P. S. H. (2021). Painless giant submandibular gland sialolith: a case report. Cureus, 13(11).

Ungari, C., Cicconetti, A., Cerbelli, E., Sulpasso, A., Filiaci, F. (2022). Giant submandibular sialolith: a case report. Clin Ter., 173(3), 217-221.

Wolf, G., Langer, C., Wittekindt, C. (2019). Sialolithiasis: aktuelle Diagnostik und Therapie. Laryngo-Rhino-Otologie, 98(11), 815-823.

Zengel, P. (2014). So werden Speichelsteine schonend entfernt. MMW - Fortschritte Der Medizin, 156(3), 42-45.