

SIALOLITÍASE EM GLÂNDULA SALIVAR MENOR: RELATO DE CASO E REVISÃO DE LITERATURA

SIALOLITHIASIS IN MINOR SALIVARY GLAND: CASE REPORT AND LITERATURE REVIEW

Amanda Araújo **LUZ**¹
Ingrid da Silva **SANTOS**²
Saygo **TOMO**³
Renata Calestini **FELIPINI**⁴
Kellen Cristine **TJIOE**⁵
Daniel Galera **BERNABÉ**⁶
Éder Ricardo **BIASOLI**⁷
Glauco Issamu **MIYAHARA**⁸

RESUMO

A sialolitíase é uma afecção que se caracteriza pela obstrução da glândula salivar ou de seu ducto devido à formação de estruturas calcificadas acometendo predominantemente as glândulas submandibulares e muito raramente as glândulas salivares menores. O objetivo deste trabalho é realizar um relato de caso sobre sialolitíase em glândula salivar menor. Paciente do sexo masculino, leucoderma, 54 anos, se apresentou com queixa principal de “tumor na boca”. O exame físico intrabucal revelou um nódulo localizado na mucosa labial do lado superior direito, próximo a comissura, único, medindo aproximadamente 2 centímetros no seu maior diâmetro. A ultrassonografia da região do lábio superior evidenciou a hipótese diagnóstica de corpo estranho. O diagnóstico diferencial e o clínico incluíram reação a corpo estranho. Foi realizada a biópsia excisional e durante o ato cirúrgico, foi encontrado um material endurecido, de aproximadamente 3 mm, de cor amarelada, que foi enviado para análise histopatológica, a qual revelou fragmento mineralizado compatível com sialolito. Com base nos achados clínicos e imaginológicos o diagnóstico foi de sialolitíase. Após três meses de acompanhamento, o paciente se apresentou sem evidência da doença. Esta revisão de literatura e o presente relato permitiram concluir que um exame clínico criterioso associado a exames imaginológicos adequados são essenciais para a obtenção de um diagnóstico clínico correto.

UNITERMS: Cálculos das glândulas salivares; Glândulas salivares menores; Diagnóstico bucal.

INTRODUÇÃO

A sialolitíase é uma afecção que acomete as glândulas salivares e se caracteriza pela obstrução destas ou de seus ductos devido à formação de estruturas calcificadas¹. Os sialolitos são compostos por proporções variáveis de substâncias orgânicas, tais como as glicoproteínas, mucopolissacarídeos e

detritos celulares, e também por substâncias inorgânicas, sendo predominantemente formados por carbonatos de cálcio e fosfatos de cálcio². O processo de formação dos sialolitos ainda não é bem claro, porém têm sido sugerido que vários fatores podem influenciar neste processo, sendo alguns deles a anormalidade no metabolismo do cálcio, a alteração no pH da saliva e o fluxo salivar reduzido³.

1-Cirurgiã-Dentista, Universidade Estadual Paulista (UNESP), Faculdade de Odontologia, Araçatuba.

2-Mestre em Estomatologia, Centro de Oncologia Bucal, Universidade Estadual Paulista (UNESP), Faculdade de Odontologia, Araçatuba.

3-Aluno de Mestrado em Estomatologia, Centro de Oncologia Bucal, Universidade Estadual Paulista (UNESP), Faculdade de Odontologia, Araçatuba.

4-Professora Assistente Doutora da Disciplina de Patologia Bucal, Departamento de Patologia e Propedêutica Clínica, Universidade Estadual Paulista (UNESP), Faculdade de Odontologia, Araçatuba.

5-Professora Doutora, Programa de Pós-Graduação em Odontologia, Área de Estomatologia, Universidade Estadual Paulista (UNESP), Faculdade de Odontologia, Araçatuba.

6-Professor Adjunto da Disciplina de Estomatologia, Centro de Oncologia Bucal, Universidade Estadual Paulista (UNESP), Faculdade de Odontologia, Araçatuba.

7-Professor Assistente Doutor da Disciplina de Estomatologia, Centro de Oncologia Bucal, Universidade Estadual Paulista (UNESP), Faculdade de Odontologia, Araçatuba.

8-Professor Titular da Disciplina de Estomatologia, Centro de Oncologia Bucal, Universidade Estadual Paulista (UNESP), Faculdade de Odontologia, Araçatuba.

A sialolitíase possui prevalência dominante no sexo masculino e pico de incidência na faixa etária entre 30 e 60 anos. Os sialolitos, em sua maioria, acometem a glândula submandibular, representando 80-95% dos casos, seguida pela glândula parótida, que é acometida em 5-20%. A ocorrência de sialolitos em glândula sublingual e glândulas salivares menores é rara, representando 1-2% dos casos⁴. Quanto às características clínicas, o tamanho dos sialolitos pode variar de menos 1 mm para alguns cm no seu maior diâmetro, sendo a maioria dos sialolitos menores que 10 mm. Na literatura, são considerados sialolitos gigantes aqueles que excedem 35 mm em qualquer dimensão⁵.

O quadro clínico de pacientes com sialolitíase é representado geralmente por sintomatologia dolorosa na glândula salivar envolvida e inchaço pós-prandial⁶. Radiograficamente, em torno de 80-90% dos sialolitos apresentam-se radiopacos. Porém, até 20% dos sialolitos podem não ser evidenciados pelo exame radiográfico⁷. Quanto as suas características histopatológicas, os sialolitos apresentam uma estrutura concêntrica laminada alternada por camadas de substâncias inorgânicas. Os ácinos adjacentes a um sialolito homogêneo na região intraglandular contém poucas células inflamatórias, enquanto aqueles que estão adjacentes a sialolitos heterogêneos possuem células inflamatórias em abundância. O epitélio do ducto pode constituir um nicho de formação do cálculo⁸.

A inspeção e a palpação são manobras semiotécnicas importantes para auxiliar na obtenção das informações necessárias para o estabelecimento do diagnóstico da sialolitíase⁹. Existe uma gama de opções que pode ser utilizada no diagnóstico por imagem dos sialolitos e entre algumas delas estão: a radiografia convencional, a ultrassonografia e a tomografia computadorizada⁷.

O tratamento da sialolitíase depende de alguns fatores como número, tamanho e localização. Diferentes modalidades de tratamento para esta condição podem ser utilizadas como o tratamento conservador que inclui algumas das seguintes medidas: massagem, sialogogos e ordenha da glândula salivar acometida ou o tratamento cirúrgico¹⁰. Contudo, a remoção cirúrgica do sialolito apresenta maior eficácia na sua eliminação em comparação aos tratamentos conservadores¹¹.

Este trabalho tem como objetivo realizar um relato de caso clínico sobre sialolitíase em glândulas salivares menores.

RELATO DE CASO

Paciente do sexo masculino, leucoderma, 54 anos de idade, compareceu a Clínica de Estomatologia da Faculdade de Odontologia de Araçatuba-UNESP, com queixa principal de "tumor na boca". Durante a anamnese, o paciente relatou evolução de aproximadamente um mês, com dor de

intensidade leve, espontânea, intermitente, e que cessava sem uso de medicação. Não havia história pregressa de trauma na região. A história médica revelou tratamento para gota há 8 anos com o uso crônico de anti-inflamatório.

Ao exame físico extrabucal verificou-se linfadenopatia cervical no lado direito, e o linfonodo apresentava-se móvel e indolor. Ao exame físico intrabucal foi observado um nódulo localizado na mucosa labial do lado superior direito, próximo a comissura, único, de forma ovalada, medindo aproximadamente 2 centímetros no seu maior diâmetro, de coloração arroxeada, com limites bem definidos, superfície íntegra, base sésil, endurecido à palpação. (Figura 1).



Figura 1: Exame Físico

Foi solicitada uma ultrassonografia da região do lábio superior que revelou imagem noduliforme hipo/aneicoica e contendo diminuta imagem hiperrefringente de 0,3 mm, visualizada no lábio superior direito. E que dentre as hipóteses diagnósticas, devia se considerar a de corpo estranho associado a reação fibrocapsular, com provável mínima coleção fluida de permeio. (Figura 2).



Figura 2: Ultrassonografia

O diagnóstico diferencial e o clínico incluíram reação a corpo estranho. Foram solicitados exames hematológicos pré-operatórios: hemograma e coagulograma, que não apresentaram alterações dignas de nota. O paciente apresentou exame de glicemia recente que também não mostrou alterações

relevantes. Portanto, foi realizada a biópsia excisional e durante o ato cirúrgico foi encontrado um material endurecido, de aproximadamente 3 mm, de cor amarelada, envolto por tecido nodular fibrosado (Figuras 3).

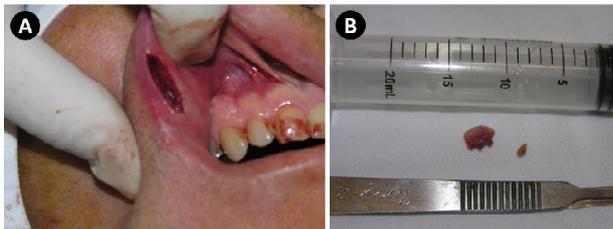


Figura 3: Biópsia

O exame histopatológico revelou fragmento de mucosa bucal com invaginação epitelial, e tentativa de encapsulamento do fragmento mineralizado compatível com sialolito associado a intensa reação inflamatória mista, na qual havia a presença de áreas com infiltrado inflamatório crônico e agudo, subjacente ao corpo estranho (Figuras 4).

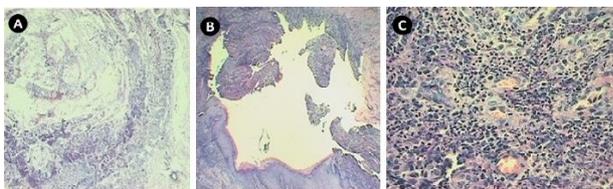


Figura 4: Exame histológico

Os achados clínicos e imaginológicos permitiram definir para o caso em estudo, o diagnóstico de sialolitíase. Após três meses de acompanhamento, o paciente se apresentou sem qualquer evidência da doença (Figura 5).



Figura 5: Acompanhamento clínico

DISCUSSÃO

A sialolitíase uma doença comum das glândulas salivares e é caracterizada pela presença de cálculos salivares, conhecidos como sialolitos, que se desenvolvem nos canais salivares ou na glândula salivar afetada⁵. A etiopatogenia da sialolitíase ainda não é clara, mas pode ser proveniente de uma série de fatores que incluem o fluxo salivar reduzido, alteração no pH, desidratação, anomalias do ducto da glândula salivar, e migração retrógrada de alimentos, bactérias ou corpos estranhos da cavidade bucal para o ducto, favorecendo a formação de sialolitos¹². Além dos fatores já mencionados, alguma anormalidade no metabolismo do cálcio também pode estar relacionada ao processo de formação dos sialolitos³. Embora para Parkar, Vora e Bhanushalid¹⁰ a etiologia da sialolitíase não esteja clara, ela também pode estar relacionada a certos medicamentos que reduzem a produção de saliva, tais como anti-histamínicos, anti-hipertensivos, antipsicóticos e antidepressivos. A diminuição do fluxo salivar pode também ser causada por várias condições, incluindo o envelhecimento, síndrome de Sjögren e radioterapia da região de cabeça e pescoço.

A sialolitíase acomete predominantemente o sexo masculino e ocorre na faixa etária dos 30 aos 60 anos¹³, e não se observa predileção por raça^{14,15}. No presente relato, o paciente possui 54 anos de idade, o que corrobora com os achados da literatura. Os sialolitos são pequenos variando em tamanho, sendo alguns deles menores que 1 mm podendo chegar até alguns cm de diâmetro, entretanto, geralmente possuem tamanho inferior a 10 mm⁵, semelhante ao caso apresentado, no qual, o sialolito apresenta dimensões de aproximadamente 3 mm no seu maior diâmetro. Na maior parte dos casos, os sialolitos se formam na glândula submandibular, seguido pela glândula parótida. Já a ocorrência de sialolitos em glândula sublingual e glândulas salivares menores é rara⁴. Alguns fatores predisponentes podem tornar a glândula submandibular mais susceptível à formação de sialolitos tais como o comprimento do ducto de Wharton, a velocidade do fluxo salivar que é mais lenta e também contra a gravidade, e ainda a composição química da saliva produzida na glândula submandibular que é mais alcalina e possui maior concentração de cálcio, fosfato e mucina^{13,16}. Porém, os sialolitos em glândulas salivares menores são mais propensos a se desenvolver na região do lábio superior e mucosa jugal, pois são susceptíveis a traumas mastigatórios¹⁷. A localização mais comum dos sialolitos em glândulas salivares menores corresponde a lábio superior (49,2%), mucosa jugal (37,3%), lábio inferior (5,5%), vestibulo (4,7%), palato e língua (1,6%)¹⁸. No caso clínico relatado, o sialolito encontrava-se localizado na mucosa labial superior, próximo à comissura labial do lado direito. Segundo Suh et al.¹⁷ o sialolito quando

presente em glândulas salivares menores é comumente descrito como um nódulo único, firme, assintomático e móvel. Lee e Wong⁸ descrevem esta condição de forma muito semelhante, relatando que o sialolito geralmente se apresenta como nódulo submucoso, único, pequeno, endurecido, firme a palpação e móvel no tecido circunjacente e estas características clínicas foram semelhantes às encontradas no caso clínico apresentado.

Os principais sinais e sintomas relacionados ao quadro de sialolitíase são diminuição da secreção de saliva, dor, aumento do volume das glândulas envolvidas, com ou sem a presença de inflamação local e/ou processo infeccioso¹⁹. Episódios de dor e inchaço das glândulas envolvidas geralmente estão associados ao período das refeições²⁰. Os sialolitos podem ser assintomáticos, mas podem ocorrer ocasionalmente episódios de febre, edema difuso e hiperemia¹⁴. Alguns pacientes também podem apresentar linfadenopatia, otodinia e trismo²¹. A gravidade do quadro clínico dependerá do grau de obstrução, bem como o tamanho e localização do cálculo¹⁹. No presente caso, o paciente apresentou dor de intensidade leve, espontânea e intermitente.

Para o diagnóstico de doença em glândula salivar, como nos casos de sialolitíase, o exame físico do paciente permite a localização do processo após avaliação anatômica da área e dos elementos anexos da glândula salivar como nódulos linfáticos. A inspeção possibilita verificar o estado da pele ou mucosas, bem como a abertura dos ductos excretórios das glândulas salivares, e a palpação é o procedimento que permite a busca de informações quanto à extensão, delimitação, consistência e mobilidade da lesão glandular, além de resposta subjetiva do paciente⁹. Suh et al.¹⁷ relataram que as características clínicas da sialolitíase são semelhantes às de outras lesões, resultando em erros de diagnóstico frequentes. O diagnóstico diferencial de sialolitos em glândulas salivares menores inclui mucocele, corpo estranho, neoplasia salivar benigna e calcinose cutânea. No entanto, para Boyd²³, o diagnóstico diferencial pode incluir mucocele, tumor misto (siringoma condróide), cicatriz, tumores malignos ou benignos da glândula salivar, fibroma, flebólitos e diapneusia. O diagnóstico diferencial para o caso em estudo foi reação a corpo estranho.

Diversas ferramentas podem ser empregadas no diagnóstico por imagem dos sialolitos como: a radiografia convencional, ultrassonografia, tomografia computadorizada entre outras opções de acordo com a sua indicação adequada. Em sua maioria os cálculos salivares apresentam-se radiopacos no exame radiográfico⁷. Para Lee e Wong⁸, as radiografias simples desempenham função auxiliar no diagnóstico que pode ser feito com base nas lesões radiopacas incluindo linfonodos calcificados, tuberculose nos gânglios linfáticos e outras calcificações vasculares. Porém, quando os

sialolitos não são visíveis radiograficamente por serem radiotransparentes, pode-se utilizar os raios-X diminuindo o tempo de exposição e com uma menor dose de radiação a fim de possibilitar a visualização do cálculo nos tecidos moles^{8,18}. Segundo Lee e Wong⁸, alguns sialolitos pobremente calcificados podem não ser visíveis no exame radiográfico, e que nestas condições a ultrassonografia pode ser uma ferramenta útil para o diagnóstico por imagem, principalmente quando há alterações nos tecidos moles. Rzymyska-Grala et al.⁷ reportam que a ultrassonografia é considerada por alguns autores como método de escolha no diagnóstico por imagem dos sialolitos uma vez que possui sensibilidade de 80-96% para detecção de cálculos não radiopacos. Quanto a tomografia computadorizada, esta detecta calcificações com elevada sensibilidade, porém possui como desvantagens: pobre visualização de canais salivares e lesões no seu interior e é um exame de custo elevado⁷. Com base no exposto, estamos de acordo com relação à utilização da ultrassonografia como método de escolha, como no presente caso relatado.

Quanto aos aspectos histopatológicos, os sialolitos apresentam laminações concêntricas, que podem circundar um nicho de restos orgânicos amorfos. Se o ducto associado também for removido, frequentemente mostrará metaplasia de células escamosas, oncocíticas e mucosas. Também é evidente uma inflamação periductal²². Os achados histológicos do caso em estudo revelaram fragmento de mucosa bucal com invaginação epitelial e tentativa de encapsulamento de fragmento mineralizado compatível com sialolito que apresentava formações concêntricas. Verificou-se também a presença de restos celulares e matéria orgânica. Intensa reação inflamatória mista foi observada nos tecidos subjacentes ao sialolito posicionado no tecido conjuntivo dos planos profundos.

No tratamento da sialolitíase deve se levar em consideração os seguintes aspectos: número, tamanho e localização (se o cálculo salivar se encontra no ducto ou na glândula)⁷. Atualmente, há várias opções de tratamento para sialolitíase, como por exemplo, a Litotripsia Extra-Corpórea por Ondas de Choque (LEOC) e, ainda mais recentemente, o uso de Litotripsia Endoscópica Intra-Corpórea por Ondas de Choque (LEIOC), que se baseiam em ondas de choque dadas diretamente na superfície do cálculo que se encontra no ducto sem danificar o tecido adjacentes são alternativas a excisão cirúrgica convencional²⁴. Os tratamentos conservadores, consistem na hidratação do paciente, massagem na glândula, e a utilização de sialólogos, pois são medidas que podem estimular a saída do cálculo para fora do ducto, especialmente se for pequeno²⁵. Porém, segundo Andreatta et al.¹¹, o tratamento cirúrgico mostrou maior eficácia em comparação aos tratamentos conservadores. No caso clínico em

questão levando-se em consideração as características clínicas e a localização da lesão optou-se pela sua excisão cirúrgica.

Segundo Alves et al.¹⁴, na maioria dos casos de sialolitíase, a história clínica, o exame físico e o exame radiográfico são suficientes para se chegar ao diagnóstico, e que poucos são os estudos que realizam o exame histopatológico do sialólito. No caso em estudo, o exame clínico, o aspecto do material proveniente da biópsia excisional e a ultrassonografia permitiram a definição do diagnóstico clínico, e a análise histopatológica foi necessária para a sua confirmação.

CONCLUSÃO

Com base no presente relato de caso clínico concluímos que este se encontra dentro dos parâmetros da revisão de literatura. E que o exame clínico criterioso associado a exames imaginológicos adequados são essenciais para a obtenção de um diagnóstico clínico preciso, e a análise histopatológica é relevante para a confirmação do mesmo, sobretudo em afecções como a sialolitíase em glândulas salivares menores que surgem raramente no cotidiano do cirurgião-dentista, e que por este motivo requerem uma investigação minuciosa.

ABSTRACT

Sialolithiasis is a condition characterized by obstruction of salivary gland or its duct due to formation of calcified structure, predominantly affecting the submandibular glands or, rarely, the minor salivary glands. The main objective is to report a case of sialolithiasis in the minor salivary gland on a male patient, leucoderma, 54, and his main complaint was a "tumor in the mouth". Intraoral physical examination revealed a nodule located on labial mucosa of the upper right side of the mouth, near the commissure, single, and its diameter measuring approximately 2 cm. The ultrasound examination on the upper lip region resulted in a strange body. The differential and clinical diagnosis was included strange body. During the excision biopsy surgery, a hardened material, measuring about 3 mm and yellowish was removed and sent for histopathologic exams and the diagnosis was sialolithiasis. After three months' follow-up, the patient was free of the disease. This literature review and the present case concluded that a careful clinical examination associated with imaging and histopathology examinations are essential for obtaining a correct clinical diagnosis.

UNITERMS: Salivary gland calculi; Salivary glands; Oral examination.

REFERÊNCIAS

1. Shahoon H, Farhadi S, Hamed R. Giant sialoliths of Wharton duct: Report of two rare cases and review of literature. *Dent Res J* 2015;12(5):494-497.
2. Marchal F, Dulguerov P. Sialolithiasis management: the state of the art. *Arch Otolaryngol-Head Neck Surg* 2003;129(9):951-956.
3. Ying X, Kang J, Zhang F, Dong H. Recurrent sialoliths after excision of the bilateral submandibular glands for sialolithiasis treatment: A case report. *Exper Therap Med* 2016;11(1):335-337.
4. Arunkumar KV, Garg N, Kumar V. Oversized submandibular gland sialolith: a report of two cases. *J Maxillofac Oral Sur* 2015;14(1):116-119.
5. Omezli MM, Ayranci F, Sadik E, Polat ME. Case report of giant sialolith (megalith) of the Wharton's duct. *Nigerian J Clin Pract* 2016;19(3):414-417.
6. Wilson KF, Meier JD, Ward PD. Salivary gland disorders. *American Fam Physic* 2014;89(11):882-888.
7. Rzymska-Grala I, Stopa Z, Grala B, Gołębowski M, Wanyura H, Zuchowska A, et al. Salivary gland calculi—contemporary methods of imaging. *Pol J Radiol* 2010;75(3):25-37.
8. Lee LT, Wong YKD. Pathogenesis and diverse histologic findings of sialolithiasis in minor salivary glands. *J Oral Maxillofac Surg* 2010;68(2):465-470.
9. CASTRO, A. L. Glândulas salivares. In: Castro. A.L. *Estomatologia*. 3ª ed. São Paulo: Santos, 2000. p. 140-159.
10. Parkar MI, Vora MM, Bhanushali DH. A large sialolith perforating the Wharton's duct: review of literature and a case report. *J Maxillofac Oral Surg* 2012;11(4):477-482.
11. Andretta M, Tregnaghi A, Prosenikliev V, Staffieri A. Current opinions in sialolithiasis diagnosis and treatment. *Acta Otorhinolaryngol Italica* 2005;25(3):145-149.
12. Bhullar RS, Dhawan A, Bhullar K, Malhotra S. Giant submandibular gland duct sialolith mimicking an impacted canine tooth. *Nat J Maxillofac Surg* 2015;6(1):89-92.
13. Kim DH, Song WS, Kim YJ, Kim WD. Parotid sialolithiasis in a two-year-old boy. *Kor J Pediatrics* 2013;56(10):451-455.
14. Alves NS, Soares GG, Azevedo RDS, Camisasca DR. Sialólito de grandes dimensões no ducto da glândula submandibular. *Rev Assoc Paulista Cir Dent* 2014;68(1):49-53.
15. Silveira RL, Machado R, Borges H, Oliveira R. Múltiplos sialólitos em glândula submandibular direita: relato de caso. *Rev Fac Odontol Lins* 2005;17(1):39-42.

16. Fowell C, MacBean A. Giant salivary calculi of the submandibular gland. *J Surg Case Rep* 2012;(9):6-6.
17. Suh DW, Lee EJ, Lew BL, Sim WY. Minor salivary gland sialolithiasis of the upper lip. *Ann Dermatol* 2013;25(4):502-504.
18. Lagha NB, Alantar A, Samson J, Chapireau D, Maman L. Lithiasis of minor salivary glands: current data. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endodontology* 2005;100(3):345-348.
19. Bernardes-Filho F, Martins G, Alves AO, Costa JRVD, Azulay DR, Azulay-Abulafia L. Rigid swelling of sublingual caruncle area due to the salivary gland duct obstruction by a sialolith. *Anais Bras Dermatol* 2014;89(6):977-979.
20. Gupta A, Rattan D, Gupta R. Giant sialoliths of submandibular gland duct: Report of two cases with unusual shape. *Contemp Clin Dent* 2013;4(1):78-80.
21. Starling CR, Silva DT, Falcão AFP. Sialolitíase em glândula sublingual: relato de caso clínico. *Rev Ci Med Biol* 2012;11(3):346-50.
22. NEVILLE, B. W. Patologia das glândulas salivares. In: NEVILLE, B. W.; DAMM, D. D.; ALLEN, C. M.; BOUQUOT, J. E. Patologia oral e Maxilofacial. 2ª edição traduzida. Guanabara Koogan. 2009. p. 375-412.
23. Boyd AS. Sialolith of a minor salivary gland. *J Cut Pathol* 2013;40(8):696-698.
24. Iqbal A, Gupta AK, Natu SS, Gupta AK. Unusually large sialolith of Wharton's duct. *Ann Maxillofac Surg* 2012;2(1):70-73.
25. Sunder VS, Chakravarthy C, Mikkilinine R, Mahoorkar S. Multiple bilateral submandibular gland sialolithiasis. *Nig J Clin Pract* 2014;17(1):115-118.

Endereço para Correspondência:

Prof. Tit. Glauco Issamu Miyahara,

miyahara@foa.unesp.br

Centro de Oncologia Bucal,
Universidade Estadual Paulista – UNESP,
Faculdade de Odontologia de Araçatuba,
Rua José Bonifácio, 1193, Vila Mendonça,
16015-050 - Araçatuba, SP.

