

Brazilian Journal of
OTORHINOLARYNGOLOGY

www.bjorl.org.br



RELATO DE CASO

Giant sialolith of submandibular gland duct treated by excision and ductal repair: a case report ☆,☆☆

Sialolito gigante de ducto da glândula submandibular tratado por excisão e reparo ductal: relato de caso

Thiago de Paula Oliveira^a, Isaac Nilton Fernandes Oliveira^a,
Eduardo Carvalho Paes Pinheiro^a, Renata Caroline Ferreira Gomes^a, Pietro Mainenti^{b,c,*}

^a Faculdade de Medicina de Juiz de Fora, Universidade Presidente Antônio Carlos, Juiz de Fora, MG, Brasil

^b Departamento de Patologia, Faculdade de Medicina de Juiz de Fora, Universidade Presidente Antônio Carlos, Juiz de Fora, MG, Brasil

^c Departamento de Cirurgia Oral e Maxilofacial, Centro Médico Rio Branco, Juiz de Fora, MG, Brasil

Recebido em 11 de março de 2015; aceito em 27 de março de 2015

Introdução

Sialolitíase é uma das doenças mais comuns de glândulas salivares.^{1,2} Trata-se de uma condição caracterizada por um fenômeno obstrutivo causado por um cálculo em uma glândula salivar ou em seu ducto excretório.¹ Em geral, a apresentação clínica se caracteriza por edema e dor locais, infecção da área afetada e dilatação do ducto salivar.¹ Normalmente, a sialolitíase afeta adultos entre a terceira e quarta décadas de vida, com uma frequência de 12:1000.³ O número de casos em pacientes do sexo masculino é cerca de duas vezes maior do que em pacientes do sexo feminino.³

Estima-se que 80-90% dos casos ocorram na glândula submandibular, enquanto que 10-20% ocorrem na glândula parótida.³ O tamanho dos cálculos varia, desde menos de um milímetro até alguns centímetros. Embora a frequência da sialolitíase seja relativamente alta, é rara a ocorrência de sialolitos gigantes medindo mais de 1,5 cm em qualquer dos seus diâmetros. Por essa razão, são poucos os estudos publicados na literatura médica pertinente.^{1,4}

O presente artigo descreve um caso de um sialolito gigante em um homem de 42 anos de idade, abordando os aspectos clínicos, diagnósticos e a cirurgia do reparo do ducto realizada para a restauração do fluxo salivar.

DOI se refere ao artigo: <http://dx.doi.org/10.1016/j.bjorl.2015.03.013>

* Como citar este artigo: Oliveira TP, Oliveira INF, Pinheiro ECP, Gomes RCF, Mainenti P. Giant sialolith of submandibular gland duct treated by excision and ductal repair: case report. Braz J Otorhinolaryngol. 2016;82:120-3.

** Instituição: Faculdade de Medicina de Juiz de Fora, Universidade Presidente Antônio Carlos, Juiz de Fora, MG, Brasil.

* Autor para correspondência.

E-mail: pietromainenti@terra.com.br (P. Mainenti).

Relato de caso

O paciente, um homem negro com 42 anos, compareceu a uma consulta odontológica em março de 2014. Após exame radiográfico de rotina, foi encaminhado para consulta com um cirurgião e traumatologista bucomaxilofacial, em abril do mesmo ano. Durante a anamnese, o paciente negou história de qualquer doença. Informou apenas uma cirurgia na perna direita, sem maiores intercorrências. O exame físico revelou anquiloglossia e, durante a palpação, um endurecimento na glândula salivar submandibular direita. Para um aprofundamento da investigação, foram solicitados exames de imagem (fig. 1A). A hipótese diagnóstica estabelecida foi a de sialolitíase no ducto da glândula submandibular direita.

Tendo em vista que o sialolito exibia dimensões exuberantes, foi proposta excisão cirúrgica, seguida de reconstrução do ducto da glândula submandibular. Foram solicitados exames de sangue e de risco cirúrgico para o paciente.

No dia 21 de maio de 2014, o procedimento foi realizado por uma abordagem intrabucal. O sialolito foi removido por curetagem, após incisão direta do ducto. A presença de mineralização parcial favoreceu a fragmentação da parte distal do cálculo. Um verdadeiro cisto de glândula salivar foi removido, juntamente com os cálculos (fig. 2).

Para o tratamento da anquiloglossia, foi realizada uma frenulectomia da língua e, para a restauração do fluxo salivar, uma sonda uretral número 8 foi inserida no coto ductal residual. A mucosa foi suturada em torno da sonda com fio de sutura Vicryl 3-0, para reparar o ducto da glândula submandibular.

Os outros tecidos foram suturados em planos anatômicos e não houve complicações durante o procedimento cirúrgico.

Dois dias após a cirurgia, uma ultrassonografia demonstrou que a sonda se encontrava no interior do ducto da glândula submandibular (fig. 3). À ordenha da glândula, observou-se presença de um líquido cristalino fluindo do interior do tubo (fig. 4). Oito dias após a cirurgia, o paciente informou aumento no volume salivar e ocorrência de contrações na região da glândula submandibular.

As suturas e o dreno foram removidos 14 dias após a cirurgia. Uma manobra de ordenha da glândula demonstrou salivação copiosa, indicativa de que a técnica cirúrgica efetuada tinha sido bem-sucedida na reconstrução da estrutura ductal. As consultas de seguimento realizadas até dois meses após a cirurgia não revelaram complicações ou queixas.

Discussão

Sialolitíase é uma doença que pode afetar qualquer faixa etária, com maior prevalência em adultos do sexo masculino.^{2,5} A sialolitíase afeta principalmente a glândula submandibular.⁶ Apesar de ser uma doença comum na população, a presença de um cálculo gigante é extremamente rara; a maioria dos sialolitos não excede 1,5 cm.^{3,5} O cálculo, no presente caso, tinha dimensões de, aproximadamente, 3,0 × 1,0 cm e, portanto, foi considerado como um sialolito gigante.¹

Habitualmente, os sintomas relatados são dor e edema na área da glândula, que pioram às refeições (tabela 1).^{2-4,6,7} No



Figura 1 A, Tomografia computadorizada (axial) revelando tecido mineralizado com densidade heterogênea e dimensões aproximadas de 3,0 × 1,0 cm. B, Imagem tridimensional do sialolito e da mandíbula.

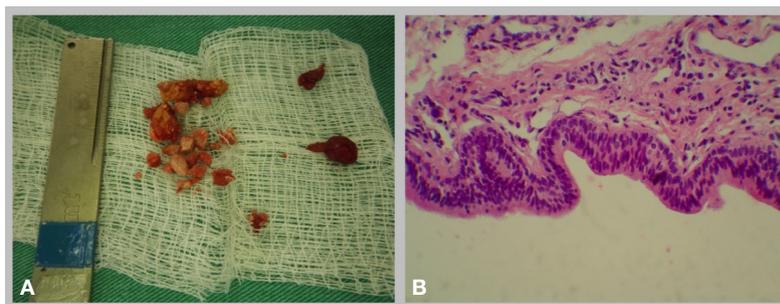


Figura 2 A, O cálculo fragmentado, visto à esquerda. À direita, tecido correspondente ao cisto salivar. B, Secção histológica do cisto revelando um epitélio oncocítico cístico compatível com epitélio ductal (HE. 400×).



Figura 3 A ultrassonografia mostra a sonda no interior do ducto da glândula salivar.

presente relato, o paciente se encontrava assintomático, apesar das dimensões exuberantes do cálculo.

De acordo com Jensen⁸ e Cawson et al.,⁷ os cálculos salivares podem estar associados à presença de cistos verdadeiros de glândula salivar. Essas lesões ocorrem em função da obstrução do fluxo salivar, seguida por proliferação do epité-

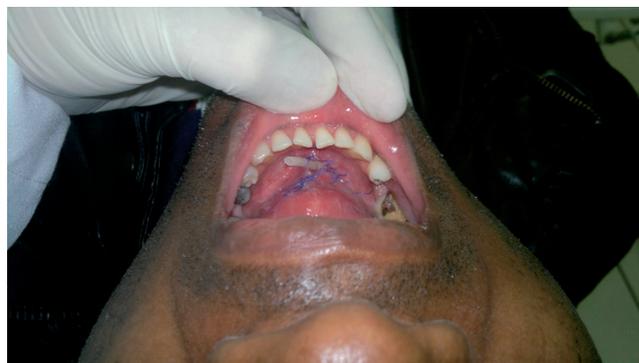


Figura 4 A sonda e as suturas se encontram em posição cirúrgica correta.

lio ductal que circunda o cálculo. Nosso espécime apresentava uma diferenciação escamosa e oncocítica em acordo com a literatura pertinente.⁸

A fisiopatologia da formação do cálculo ainda não foi devidamente elucidada.³ No entanto, acredita-se que o sialolito se forma em decorrência da deposição de sais de cálcio em torno de um “nicho” de material orgânico.⁷

Em 80% dos casos, a glândula afetada é a submandibular,⁷ devido a uma série de fatores sinérgicos, como: a) composição da saliva produzida pela glândula, que é mais alcalina e

Tabela 1 Tabela comparativa dos casos consultado

Autor	Dimensões do sialolito	Sintomas	Método de remoção	Idade (anos)	Gênero
Gupta et al. (Caso 1)	2,8 × 1,1 cm	Sensação intermitente de dorimento e edema na área submandibular esquerda durante as refeições	Remoção cirúrgica por abordagem intrabucal sob anestesia local e transposição da abertura ductal	48	Masculino
Gupta et al. (Caso 2)	1,9 × 5,0 cm	Edema na boca associado à dor no lado esquerdo da face durante a ingestão de alimentos	Remoção cirúrgica por abordagem intrabucal sob anestesia local e transposição da abertura ductal	45	Feminino
Iqbal et al.	3,5 × 3,0 cm	Assintomático	Cirurgia sob anestesia local, abordagem intrabucal com marsupialização	55	Masculino
Dalal et al.	1,8 × 6,0 cm	Drenagem de secreção purulenta e dor contínua do tipo picada, de natureza aguda, com irradiação até a língua; limitação dos movimentos da língua	Sialolitotomia via abordagem intrabucal sob anestesia local	40	Feminino
Fowell & MacBean	4,1 cm	Dor no assoalho direito da boca e região submandibular, exacerbada pela deglutição	Excisão da glândula submandibular direita e do cálculo por abordagem extrabucal de rotina	58	Masculino
Krishnan et al. (Caso 1)	3,4 cm	Dor e edema recorrentes ao longo de oito anos, com piora durante as refeições. Nos últimos dois anos, assintomática.	Sialolitotomia por abordagem intrabucal sob anestesia local. A ferida cicatrizou por segunda intenção	41	Masculino
Krishnan et al. (Caso 2)	2,5 cm	Vários episódios de dor e edema na porção inferior esquerda da mandíbula, durante os últimos 4-5 anos, especialmente às refeições	Remoção cirúrgica por abordagem transbucal, com dissecação com bisturi e sob anestesia local	32	Feminino

com importante concentração de cálcio⁶; b) o fluxo salivar que ocorre contra a gravidade^{2,9}; e c) anatomia longa e tortuosa do ducto da glândula submandibular.^{6,9} Todos esses fatores operam em conjunto na formação do cálculo na glândula submandibular.^{2,6,9} Na opinião dos autores, a ocorrência dos sialólitos apresentados na literatura consultada é coerente com o nosso entendimento.

Com relação ao tratamento, a opção por um procedimento menos invasivo é de grande importância, para que seja preservado o funcionamento da glândula.^{2,4,7,9} A literatura pertinente indicou alguns procedimentos cirúrgicos, como sialitotomia transoral, sialendoscopia, litotripsia por onda de choque extracorpórea e ressecção da glândula.^{2,3} Nos casos de pequenos sialólitos, também são possíveis tratamentos conservadores por meio de sialogogos e massagem da glândula.⁷ O presente caso descreveu o tratamento de um cálculo exuberante por meio de uma abordagem intrabucal, em associação com reparo ductal. Embora Fowell et al.² tenham concluído que a sialoplastia é um dos principais tratamentos para sialólitos gigantes, essa técnica não foi descrita ou utilizada pelos autores consultados. Esses estudiosos promoveram a remoção do sialólito com fechamento por segunda intenção.

Entre as possíveis complicações cirúrgicas, inclui-se a lesão do nervo mandibular.² A outra complicação é a estenose do ducto de Wharton.² Em nosso caso, não houve evidência de qualquer dessas complicações. O reparo ductal preservou o fluxo salivar entre a glândula e a cavidade bucal.

A remoção cirúrgica de sialólitos varia, dependendo do cirurgião. A abordagem preferida é principalmente realizada por meio de uma intervenção intrabucal (tabela 1).

Conclusão

O presente relato de caso teve como objetivo descrever a remoção de um sialólito gigante. De acordo com o conhe-

cimento dos autores, o caso descrito é singular, em função do reparo cirúrgico do ducto após excisão de um cálculo salivar.

Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

Referências

1. Gupta A, Rattan D, Gupta R. Giant sialoliths of submandibular gland duct: report of two cases with unusual shape. *Contemp Clin Dent.* 2013;4:78-80.
2. Fowell C, Macbean A. Giant salivary calculi of the submandibular gland. *J Surg Case Rep.* 2012;9:1-4.
3. Iqbal A, Gupta AK, Natu SS, Gupta AK. Unusually large sialolith of Wharton's duct. *Ann Maxillofac Surg.* 2012;2:70-3.
4. Dalal S, Jain S, Agarwal S, Vyas N. Surgical management of an unusually large sialolith of Wharton's duct: a case report. *King Saud Univ J Dent Sci.* 2013;4:33-5.
5. Filho MAO, Almeida LE, Pereira JA. Sialólito gigante associado à fístula cutânea. *Rev Cir Traumatol Buco-Maxilo-Fac.* 2008;8:35-8.
6. Branco BLC, Cardoso AB, Caubi AF, Pena GN. Sialolitíase: relato de um caso. *Rev Cir Traumatol Buco-Maxilo-Fac.* 2003;3:9-14.
7. Cawson RA, Odell EW, Porter SR. Neoplastic and non-neoplastic diseases of salivary glands. Em: *Cawson's essentials of oral pathology and oral medicine.* 7th ed. Edinburgh: Churchill Livingstone; 2002. p. 291-3.
8. Jensen JL. Idiopathic diseases. Em: *Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR, editores. Surgical pathology of the salivary glands.* Philadelphia: W.B. Saunders; 1991. p. 60-82.
9. Krishnan B, Gehani RE, Shehumi MI. Submandibular giant sialoliths – 2 case reports and review of the literature. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2009;61:55-8.