

Sialolito gigante em ducto de Wharton: um caso distinto e revisão da literatura

Giant sialolith in Wharton's duct: case report and literature review

Pedro Everton Marques Goes^I | Valthierre Nunes de Lima^{II} | Francisco Samuel Rodrigues Carvalho^{III} | Sormani Bento Fernandes de Queiroz^{IV} | Igor Batista Camargo^V

RESUMO

A sialolitíase é uma condição clínica relativamente comum, caracterizada pela obstrução da glândula salivar ou de seu ducto excretor por um cálculo, o qual recebe a denominação de sialolito. Pode ocorrer em qualquer faixa etária, apresentando leve predileção pelo gênero masculino e afeta, principalmente, a glândula submandibular. O diagnóstico é realizado pela correlação entre achados clínicos e radiográficos, sendo as radiografias oclusal e panorâmica as mais adequadas para este fim. Os sialolitos geralmente apresentam tamanho menor que 1 cm, mas raramente podem medir mais que 1,5 cm, os quais são denominados de sialolitos gigantes. O presente artigo relata um caso raro de sialolito gigante situado na região anterior do ducto de Wharton, o qual foi removido cirurgicamente por via intraoral, através de incisão no soalho bucal. O tratamento instituído mostrou-se adequado visto que após 8 meses de acompanhamento, o paciente evoluiu de maneira satisfatória.

Descritores: Sialolitíase, Cálculos das glândulas salivares, Sialodenite

ABSTRACT

The sialolithiasis is a relatively common clinical condition characterized by obstruction of the salivary gland or its excretory duct by a calculus, which receives the name of sialolith. It can occur in any age group, with a slight predilection for masculine gender and affects mainly the submandibular gland. The diagnosis is made by the correlation between clinical and radiographic findings, and occlusal and panoramic radiographs are the most suitable for this purpose. The sialoliths usually feature size less than 1 cm, but can rarely measure more than 1.5 cm, which are called giant sialoliths. This article reports a rare case of giant sialolith located in the anterior region of Wharton's duct, which was removed surgically by intraoral via through of incision in the mouth floor. The treatment was adequate because after 8 months' follow up, the patient progressed satisfactorily.

Descriptors: Sialolithiasis, Salivary Gland Calculi, Sialadenitis

I. Graduado em Odontologia pela UFC-CE

II. Residente em Cirurgia e Traumatologia Buco-maxilo-facial pela UNIPÊ-PB

III. Residente em Cirurgia e Traumatologia Buco-maxilo-facial pela UFC-CE

IV. Mestre em Patologia Oral pela UFRN-RN, Cirurgião Buco-maxilo-facial pela UNESP- Araraquara/SP

V. Doutorando em CTBMF pela FOP/UPE, Capitão-Dentista Cirurgião BMF do Exército Brasileiro em Recife (HMAR) e no Hospital de Emergência e Trauma Senador Humberto Lucena em João Pessoa (HETSHL)

INTRODUÇÃO

A litíase salivar é uma condição relativamente comum caracterizada pela obstrução da glândula salivar ou de seu ducto excretor por um cálculo, o qual recebe a denominação de sialólito. Na maioria dos casos, essa condição está associada com edema, dor e infecção da glândula afetada, resultando em ectasia salivar e posterior dilatamento glandular.¹

Do ponto de vista epidemiológico, a sialolitíase pode ocorrer em qualquer idade, mas raramente afeta crianças, apresenta ainda ligeira predileção pelo gênero masculino. O sítio mais frequentemente afetado é a glândula submandibular, seguida da glândula parótida, a glândula sublingual e as glândulas salivares menores representam localizações mais raras, pouquíssimos casos ocorrem com manifestação bilateral (Tabela 1).

O tamanho do cálculo apresenta ampla variação podendo ocorrer tamanhos inferiores a 1 mm até alguns centímetros de comprimento.¹⁰ A grande maioria dos sialólitos apresenta dimensões inferiores a 10 mm, comprimentos superiores a 15 mm são raros, e quando tal condição é vista, denomina-se sialólito gigante.¹¹

Diversas hipóteses e fatores etiológicos têm sido relatados acerca de sua gênese, como fatores mecânicos, inflamatórios, químicos, neurogênicos, infecciosos, etc. De qualquer forma, parece que

a combinação dessa variedade de fatores leva a precipitação de fosfato tricálcico amorfo, que uma vez cristalizado e transformado em hidroxiapatita, resulta no foco inicial.¹²

Sialólitos localizados nos dois terços anteriores do ducto de Wharton são facilmente palpados intraoralmente e, frequentemente, em um exame radiográfico complementar poderá ser confirmado o diagnóstico.¹ No entanto, outros exames de imagem podem ser utilizados de forma complementar, como a ultrassonografia, ressonância magnética e tomografia computadorizada.¹³

O tratamento padrão consiste da remoção do cálculo por acesso intraoral quando o mesmo estiver localizado no sistema ductal ou extirpação da glândula quando da localização intraglandular.¹³ Todavia, existem uma série de tratamentos alternativos que têm dado resolutividade a essas alterações, dentre os quais podemos citar: litotripsia por ondas de choque intra ou extracorporal, remoção com sialoendoscopia, intervenção com aparato radiológico e remoção cirúrgica conservadora.¹⁴

Desta forma, o presente artigo tem por objetivo relatar um caso de um sialólito gigante situado na região anterior do ducto de Wharton, procurando discutir os diversos aspectos do diagnóstico e tratamento.

Tabela 1 - Séries de casos.

Autor (ano)	N de casos	M (%)	F (%)	Sm (%)	Par (%)	SI (%)	D (%)	E (%)	Bilateral (%)
Levy (1962) ²	180	58,9	41,1	80	19	1	48,9	48,9	2,2
Defabians (1969) ³	78	58,7	41,3	79,5	14,1	6,4	48,7	51,3	0
Antognini (1971) ⁴	396	69,2	30,8	91,4	8,3	0,3	51,4	48,6	0
Yoel (1975) ⁵	481	54,9	45,1	87	12	1	50,9	47,2	1,9
Pizzirani (1985) ⁶	102	66,7	33,3	92,2	7,8	0	39,2	59,8	1,1
Mela (1986) ⁷	215	64	36	100	0	0	47,4	52,1	0,5
Lustman (1990) ⁸	245	49,4	50,6	94,3	4,5	0,4	50,2	47,7	1,2
Kevin (2011) ⁹	153	49	51	125	28	0	54,8	43,1	2,1

RELATO DE CASO

Paciente do sexo masculino, feoderma, 60 anos de idade, apresentou-se ao serviço de Prótese do CEO Regional do município de Russas-CE, buscando reabilitação oral. A anamnese permitiu identificar doença de chagas e hipertensão como comorbidades, e ainda o uso corrente dos medicamentos Losartana de Potássio, Anlodipino e Hidroclorotiazida.

O exame inicial realizado pelo protesista revelou glândula submandibular direita palpável e endurecida, logo o paciente foi encaminhado ao Setor de Cirurgia Oral. O exame físico extraoral não apresentou alterações dignas de nota, no entanto, ao exame intraoral, observou-se a presença de aumento de volume no soalho de boca, do lado direito, na região do ducto da glândula submandibular, com diminuição da salivação em manobra de ordenha, porém, sem a presença de secreção purulenta. (figura 1) O exame de palpação revelou a presença de nódulo duro, móvel, situado na região anterior do soalho bucal. Realizou-se então exame radiográfico, panorâmico, no qual revelou uma massa radiopaca, de formato cilíndrico, medindo aproximadamente 27,7 mm de comprimento por 15,6 mm de largura. (Figura 1) A correlação dos achados clínico-radiográficos levou ao diagnóstico de sialólito gigante no ducto de Wharton. Após avaliação médica relativa às suas doenças de base, o paciente foi submetido a procedimento cirúrgico, sob anestesia local, para remoção do cálculo. Fez-se incisão no soalho bucal, seguida de dissecação romba, a qual possibilitou a visualização direta do espécime que foi prontamente removido por pinçamento. Após remoção observou-se que o sialólito tinha o comprimento semelhante a lâmina de bisturi número 15 (Figura 2). Seguiu-se então procedimento de síntese através de sutura com pontos interrompidos utilizando fio de seda 3.0. Fez-se prescrição de anti-inflamatório e analgésico para controle da posoperatória. O paciente foi avaliado

07 dias após a cirurgia. (Figura 3) Atualmente, o paciente encontra-se com 08 meses de acompanhamento clínico, e apresenta quadro estável.



Figura 1 - Aspecto Clínico e radiográfico. Observar tamanho e localização do cálculo.



Figura 2 - Remoção cirúrgica.



Figura 3 - Pósoperatório de 07 dias.

DISCUSSÃO

A sialolitíase representa a maior causa das doenças obstrutivas das glândulas salivares, estando envolvida em, aproximadamente, dois terços dos casos.¹⁴ Os sinais e sintomas relacionados costumam ser a dor, edema, xerostomia e, devido ao processo obstrutivo, sialoadenite de cunho infeccioso.

A glândula submandibular representa o sítio de ocorrência mais comum, isso não ocorre por acaso, existem pelo menos cinco fatores que interligados explicam essa alta frequência: o ducto de Wharton apresenta trajeto longo e sinuoso; a drenagem de saliva na glândula submandibular ocorre contra a gravidade; a secreção salivar apresenta pH mais alcalino que a produzida na parótida; trata-se de uma glândula com secreção predominantemente mucosa e as taxas de fosfato e cálcio da saliva submandibular são maiores que nas outras glândulas.¹⁵

Apesar de a sialolitíase ser uma doença relativamente comum, sialólitos gigantes são de ocorrência rara. Em revisão literária considerando publicações entre os anos de 1942 e 2007, foram relatados apenas 16 casos, sendo que um deles apresentava um sialólito de 70 mm de comprimento, o qual mostrava forma semelhante a um ovo de galinha.¹ Os sialólitos gigantes são mais prevalentes no gênero feminino e localizam-se principalmente no sistema ductal (Tabela 2). Sialólitos de grande extensão geralmente estão associados a dor e possível sialodenite infecciosa.²² No presente caso, o cálculo apresentava 27,7 mm, porém mostrava-se assintomático. O que explica essa ausência de queixa álgica é que durante a manobra de ordenha observou-se diminuição o fluxo salivar e não completa interrupção, visto que a dor está associada

aos casos de obstruções completas que acabam evoluindo para um processo infeccioso com consequente drenagem de material purulento.

A exata etiopatogênese do cálculo salivar permanece incerta, embora a literatura apresente uma ampla variedade de hipóteses. Sabe-se que sua ocorrência resulta de deposição de sais de cálcio ao redor de complexo orgânico inicial que consiste de mucinas salivares alteradas, bactérias e células epiteliais descamadas. Na formação do cálculo, a estase intermitente produz uma troca dos elementos mucoides da saliva, que forma um gel. Este gel reproduz um ambiente ideal para deposição de sais e substâncias orgânicas, criando o sialólito. Teorias tradicionais sugerem que o processo ocorre em duas fases: a formação de um núcleo central e depois a gênese das camadas periféricas. O núcleo central é formado por sais precipitados, os quais são unidos por certas substâncias orgânicas, e, uma vez formado, servirá como base para deposição de material orgânico e inorgânico que, compactados, formarão as camadas periféricas.²³

Assim como ocorre no diagnóstico da maioria das afecções, para a sialolitíase a clínica é soberana. Portanto, um exame clínico criterioso e uma anamnese descritiva são importantíssimos para a identificação e planejamento do tratamento. Durante a inspeção intraoral o aspecto mais frequente é

Tabela 2 - Relatos de Sialólitos Gigantes.

Autor (ano)	Gênero	Idade	Glândula	Localização	Tamanho (mm)
Isacsson (1982) ¹⁵	Masculino	48	Sm	Ducto	36
Tinsley (1989) ¹⁶	Masculino	48	Sm	Parênquima	50
Hubar (1990) ¹⁷	Masculino	65	Sm	Ducto	52
Akin (1991) ¹⁸	Masculino	45	Sm	Parênquima	45
Paul (1995) ¹⁹	Masculino	45	Sm	Ducto	45
Bodner (2002) ¹²	Masculino	50	Sm	Ducto	50
Raveenthiran (2004) ²⁰	Feminino	10	Sm	Ducto	35
Ledesmma (2007) ¹	Masculino	34	Sm	Ducto	36
Rai (2009) ²¹	Masculino	60	Sm	Ducto	72
Serrano (2009) ²²	Masculino	69	Sm	Ducto	20

de um aumento de volume em regiões que alojam glândulas salivares ou seu sistema ductal, a mucosa sobre esse aumento de volume apresenta-se com cor e textura dentro dos padrões de normalidade, embora em alguns casos possa ser visto áreas de hiperemia.²⁴ É necessário que seja feito um diagnóstico diferencial desse aumento de volume, visto que essa alteração é também característica do diabetes, síndrome de Sjögren, e nos casos em que há grande atrofia mandibular, pois a glândula submandibular pode tornar-se superficializada mostrando aumento de volume relativo facilmente confundido com patologias.

O exame de palpação bimanual do assoalho bucal representa uma manobra importante no diagnóstico.¹⁰ O que se espera encontrar é um nódulo, de consistência endurecida, que apresenta certo grau de mobilidade. No momento deste ato, pode ser realizada a manobra de ordenha da glândula para avaliar o nível de obstrução do fluxo salivar.

Por se tratar de uma alteração calcificada, o estudo radiográfico é imprescindível para a conclusão diagnóstica. O exame radiográfico convencional é o método mais simples e mais utilizado. A radiografia panorâmica e, principalmente, a radiografia transoral oclusal fornecem as melhores imagens para a identificação. Nos casos de sialólitos radiotransparentes pode ser usada a sialografia, que consiste de uma tomada radiográfica convencional realizada após injeção de contraste na área a ser investigada.¹⁰

A ultrassonografia tem sido usada com sucesso na detecção de sialólitos. A capacidade de detecção é maior nas localizações intraglandulares do que para os cálculos que se encontram nos ductos salivares, principalmente os de menores dimensões. Em estudo clínico realizado com 19 pacientes que apresentavam cálculo salivar (12 na glândula submandibular e 7 na parótida), esse exame mostrou grau de acurácia maior que 90%. A imagem sialográfica por ressonância magnética é um método

diagnóstico não invasivo, relativamente novo, quem tem sido usado na detecção de cálculos. A imagem é obtida após a injeção de contraste sem utilizar radiação ionizante. Uma importante vantagem desta técnica é apresentação da anatomia estrutural correta da glândula permitindo a localização exata do cálculo.¹³

O tratamento de escolha é a remoção cirúrgica do cálculo ou da glândula afetada (cálculo intraglandular) por acesso intraoral, e, na maioria das vezes, sob anestesia local. A técnica consiste de incisão no assoalho seguida de dissecação romba para acesso direto. Uma manobra que facilita a remoção dos cálculos ductais e deve ser realizada antes da incisão é a utilização de um ponto de reparo posteriormente ao sialólito, isso impedirá que durante a manipulação cirúrgica o mesmo venha deslocar-se acidentalmente para o interior da glândula, o que implicaria em tratamento mais agressivo. Após a remoção o ducto deve ser suturado a mucosa, mas de forma não oclusiva, para que a drenagem salivar não seja interrompida.

Nos casos de sialólitos pequenos o paciente pode ser aconselhado a fazer uso de dieta estimulante da salivação, como alimentos cítricos, associada com massagens periódicas, as quais podem gerar a saída espontânea do cálculo.

Algumas técnicas menos agressivas têm sido citadas no tratamento da sialolítase, como litotripsia por ondas de choque intra ou extracorporal, remoção com sialoendoscopia, intervenção com aparato radiológico e remoção cirúrgica conservadora. A mais utilizada é a litotripsia por ondas de choque. A técnica consiste na aplicação de ondas de choque intra ou extracorporalmente para que ocorra uma partição do cálculo em fragmentos menores que serão expelidos de forma conservadora. Na técnica extracorpórea as ondas são geradas de modo piezoelétrico ou eletromagnético. Já na técnica intracorpórea são utilizados instrumentos eletro-hidráulicos, pneumáticos ou laser endoscópico.

Uma dieta rica em proteína e líquidos e, principalmente, alimentos e bebidas ácidas têm sido indicados na prevenção da formação dos cálculos.

CONSIDERAÇÕES FINAIS

A pesquisa literária realizada demonstra que a sialolitíase é uma afecção comum, de patogênese incerta, que tem os achados clínico-radiográficos como determinantes para o diagnóstico e apresenta tratamentos variados, dentre os quais o mais utilizado é a remoção cirúrgica por acesso intraoral.

Os sialólitos gigantes são de ocorrência rara, e devido aos aspectos inerentes a sua forma não podem ser tratados de modo conservador, sendo a remoção cirúrgica o tratamento de escolha.

No presente caso, o plano de tratamento mostrou-se adequado considerando que o paciente apresenta acompanhamento clínico de 8 meses e durante esse período evoluiu de maneira satisfatória.

REFERÊNCIAS

1. Ledesma-Montes C, Garcés-Ortiz M, Salcido-García JF, et al. Giant sialolith : case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 2007; 65: 128-30.
2. Levi DM, Remine WH, Devine KD. Salivary gland calculi. *JAMA* 1962; 181:1115-9.
3. Defabianis E, Rocca GM. Considerazioni clinico-statistiche su 78 casi di calcolosisalivate. *Minerva Stomatol* 1969; 18:682-93.
4. Antognini F, Giuliani R, Magagnoli PP, Romagnoli D. Clinical Statistical Study of sialolithiasis *Mondo Odontostomatol* 1985; 27:41-51.
5. Yoel J. Pathology and surgery of the salivary glands. Springfield IL: Charles C. Thomas, 1975; 364-83, 854-901, 1148.
6. Pizzirani C, Capuano A, Gemesio B, Simondi R. Considerazioni clinico-statistiche su 102 casi di calcolosi salivare. *Mondo Odontostomatol* 1985; 27: 41-51.
7. Mela F, Berrone , Giordano M. Considerazioni clinicostatistiche sulla sialolitiasi sottomandibolare. *Minerva Stomatol* 1986; 35: 571-3.
8. Lustmann J, Regev E, Melamed. Sialolithiasis. A survey on 245 patients and a review of the literature. *Int. J. Oral Maxillofac. Surg* 1990; v. 19; 135-138
9. Kevin C, David WE. Etiologic Factors in Sialolithiasis *Head and Neck Surgery* 2011; 145(6): 935-939
10. Giacomo O, Rosa MP, Marco C. Giant Salivary Gland Calculi (GSGC): Report Of Two Cases *Op Dentistry J* 2011; 5: 90-95
11. Paolo B, Cesare G. Surgical Treatment of a Giant Sialolith of the Wharton Duct *J Craniofac Surg* 2010; 21: 134-135
12. Bodner L. Parotid sialolithiasis. *J Laryngol Otol* 1999; 113: 266-67.
13. Andretta M, Tregnaghi A, Prosenikliev V, Staffieri A. Current opinions in sialolithiasis diagnosis and treatment *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2005 ;25: 145-149
14. Capaccio P, Torretta S, Ottaviani F, Sambataro G, Pignataro L. Modern management of obstructive salivary Diseases *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2007; 27: 161-172
15. Isacsson G, Nils-Erik P. The gigantiform salivary calculus. *Int J Oral Surg* 1982; 11; 135
16. Tinsley G. An extraordinarily large asymptomatic submandibular salivary calculus. *Br Dent J* 1989; 166: 199

17. Hubar JS, Guggenheimer J, Evan M. Megalith. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1990;70:245
18. Akin I, Esmer M: A submandibular sialolith of unusual size. *J Otolaryngol* 1991;20:123
19. Paul D, Chauhan MS: Salivary megalith with a sialo-cutaneous and sialo-oral fistula: A case report. *J Laryngol Otol* 1995;109:767-41-51.1971: 14: 38-55.
20. Raveenthiran V, Rao PV. Giant calculus in the submandibular salivary duct: report of the first prepubertal patient *Pediatr Surg Int* 2004; 20: 163–164.
21. Manjunath R, Richi BD. Giant Submandibular Sialolith of Remarkable Size in the Comma Area of Wharton's Duct: A Case Report *J Oral Maxillofac Surg* 2009 67:1329-1332.
22. Carlos MRS, Barry MS. Bilateral giant submandibular sialoliths and the role for salivary endoscopy *Am J Otolaryngol* 2011;32:85-87
23. Ali I, Anup KG, Subodh SN, Atul KG. Unusually large sialolith of Wharton's duct *An Maxillofac Surg* 2012;2:70-73.
24. Metin G, Muhammed SY, Umit Y. Giant sublingual sialolith leading to dysphagia 2010;39:129-130.

ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA:

Igor Batista Camargo

Rua General Salgado, 95, Apto 103

Boa Viagem – Recife – PE

CEP 51130-320

e-mail: igorbcamargo@gmail.com

