

Kathleen Jarmendia-Costa^{1,2}
Michel Calil Abrão Neto^{3,4}
Ana Paula Candido dos Santos^{5,6}
Gustavo Santos Teixeira⁴
Gustavo Davi Rabelo^{1,2,3}

¹Departamento de Odontologia, Universidade Federal de Santa Catarina, Brasil.

²Liga Acadêmica de Estomatologia, Universidade Federal de Santa Catarina, Brasil.

³Faculdade de Odontologia, Universidade Federal de Juiz de Fora, Brasil.

⁴Graduação de Odontologia, Centro Universitário Presidente Tancredo de Almeida Neves, Brasil.

⁵Prefeitura Municipal de São Paulo, Brasil.

⁶Associação Paulista para o Desenvolvimento da Medicina, Brasil.

✉ **Gustavo Davi Rabelo**

Departamento de Odontologia, UFSC, R. Defino Conti, 1240, Trindade, Florianópolis, Santa Catarina, Brasil
CEP: 88140-900
✉ gustavo.rabelo@ufsc.br

RESUMO

Introdução: A presença de cálculos relacionados às glândulas salivares maiores é relativamente comum, no entanto, alguns destes sialólitos podem aumentar consideravelmente de tamanho e serem categorizados como cálculos gigantes. **Objetivo:** O objetivo deste estudo é relatar dois casos clínicos de sialólitos gigantes em glândula submandibular e complementar a análise por meio da mensuração de área destes cálculos. **Relato de Caso:** Dois pacientes adultos apresentaram sinais e sintomas sugestivos de sialolitíase. Foram realizados exames de imagem complementares que permitiram delinear o diagnóstico clínico. Foram realizadas abordagens cirúrgicas para tratamento dos sialólitos gigantes, sob anestesia local e em ambiente ambulatorial. Os cálculos foram fotografados, medidos e classificados como gigantes por terem a maior medida de extensão que 15 mm, e por terem uma área total expressiva. Os dois casos tiveram resolução satisfatória, sem história de recidiva. **Conclusão:** Os sialólitos gigantes são achados incomuns. Faz-se necessário um consenso na comunidade científica quanto a classificação dos cálculos salivares quanto ao seu tamanho para fins de categorização. Os dois casos aqui relatados exemplificam bem o uso do cálculo da área total de superfície dos sialólitos como manobra complementar na classificação de cálculos gigantes.

Palavras-chave: Cálculos das Glândulas Salivares; Cálculos dos Ductos Salivares; Sialolitíase Ductal.

ABSTRACT

Introduction: The presence of calculi in Salivary Glands is considered a quite common phenomenon, however, some of these sialoliths could reach bigger sizes, and then be considered as giant calculus. **Objective:** The aim of the study was to report two cases of giant calculi in the submandibular salivary gland, also, to improve their analysis by means of their surface area measurement. **Case Report:** Two adult patients were diagnosed with signs and symptoms suggestive of sialolithiasis. Imaging exams were conducted, with the final diagnosis of Salivary Gland Calculi. Both calculi were surgically removed, under local anesthesia at the dentist's office. The giant calculi were photographed, measured, and classified as giant calculi because both showed more than 15 mm in the highest axis, also, by having a significant surface area. Both cases resolved after surgery, with no history of recurrence. **Conclusion:** Giant sialoliths are uncommon. It is necessary to discuss this phenomenon aiming for a consensus among the scientific community regarding the classification of the salivary gland calculi. The two cases reported in this article exemplify the complimentary use of the calculation of the calculi surface area on clinical images, which should be considered as an adjuvant maneuver in the classification of salivary sialoliths.

Key-words: Salivary Gland Calculi; Salivary Duct Calculi; Sialolithiasis.y.

Submetido: 29/01/2021

Aceito: 06/05/2021



INTRODUÇÃO

Sialolitíase é a alteração mais comum das glândulas salivares e caracteriza-se pela formação de cálculos (depósitos mineralizados) no interior do sistema ductal e/ou parênquima das glândulas, geralmente acompanhada de tumefação na região da glândula afetada. Outros sintomas também relatados são dor e incômodo, estes por vezes relacionados com a elevação do assoalho bucal, podendo também interferir na deglutição.^{1,2} Acomete principalmente a glândula submandibular (80%-90% dos casos), e em menor frequência a glândula parótida (5%-20% dos casos), enquanto a glândula sublingual e as glândulas salivares menores são raramente afetadas.^{1,3}

Acredita-se que a formação de um cálculo, também chamado de sialólito, seja dada através da precipitação de sais de cálcio sobre um nicho orgânico central, sendo este possivelmente composto por mucina, células epiteliais descamadas, bactérias ou corpos estranhos. Este nicho central é então envolvido progressivamente pela deposição de camadas de material orgânico e inorgânico, organizadas de maneira concêntrica ou irregular, com variáveis graus de mineralização.^{3,4} Tretiakow et al³ avaliaram os sialólitos por Espectroscopia Raman e identificaram que a hidroxiapatita não é o principal constituinte dos cálculos, sendo a maioria deles constituídos com outras apatitas, dentre elas o fosfato de cálcio carbonatado amorfo e apatita carbonatada, além de um fosfato tricálcio contendo magnésio denominado *whitlockite*.

O tamanho dos cálculos varia desde pequenas estruturas milimétricas, podendo atingir até alguns centímetros em seu maior diâmetro. A maioria das pedras medem cerca de 5 mm, e a classificação como sialólito de tamanho não usual ou incomum são aqueles cálculos que excedem o tamanho de 10 mm. Apenas 7,6% dos sialólitos ultrapassam medidas superiores a 15 mm, podendo estes serem classificados como sialólitos gigantes.^{5,6} Outros autores reservam esta denominação apenas aos cálculos maiores que 2-3 centímetros.¹ Não existe um consenso na literatura sobre a classificação dos sialólitos em relação ao seu tamanho e sua área total.

Neste sentido, este trabalho tem como objetivo relatar dois casos de sialolitíase em glândula submandibular, contendo cálculos gigantes, além de introduzir um método para o cálculo da área superficial dos sialólitos por meio de fotografias, a fim de proporcionar mais subsídio para classificação dos sialólitos como cálculos gigantes.

RELATO DE CASO

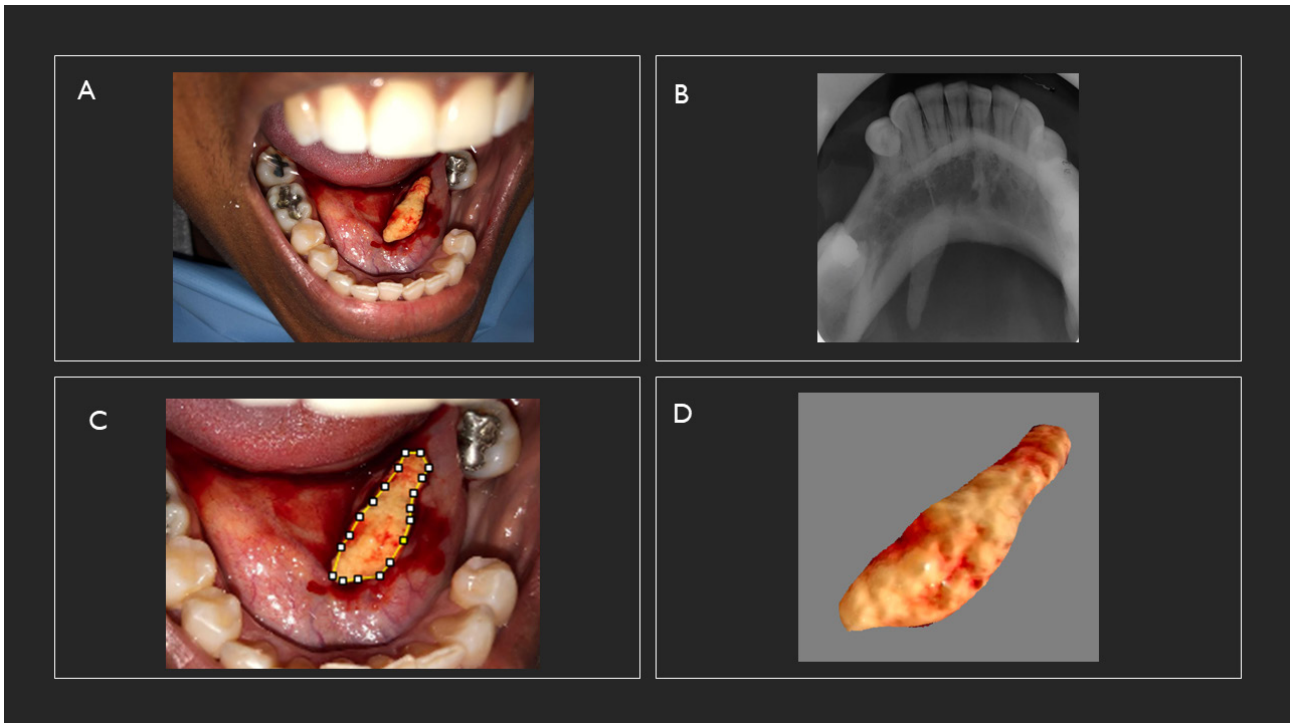
Caso 1

Paciente ECLR, sexo feminino, 44 anos, buscou

serviço da especialidade de Estomatologia no Centro de Especialidades Odontológicas (CEO) da Prefeitura Municipal de São Paulo se queixando de tumefação em região de assoalho bucal, na porção anterior, com caráter recorrente e sintomatologia dolorosa. A paciente relatava um histórico de evolução de aproximadamente 10 dias, com incômodo e dor, e que havia ocorrido episódio similar há aproximadamente 2 anos. A paciente se queixava de disgeusia em alguns momentos. A paciente nega qualquer tipo de alteração sistêmica, porém fazia uso rotineiro de cloridrato de fluoxetina para controle da ansiedade. Ao exame clínico intraoral, observou-se aumento de volume na região de assoalho bucal com edema importante na região do ducto salivar da glândula submandibular, apresentando coloração eritematosa e consistência flutuante à palpação. Foi realizado o exame radiográfico oclusal e foi possível observar presença de uma estrutura radiopaca na região ductal, com hipótese diagnóstica de cálculo salivar. Curiosamente, pelas características de radiopacidade, tamanho e formato, notou-se que as mesmas se assemelhavam a um dente supranumerário, no entanto essa hipótese não foi cogitada como diagnóstico diferencial pela estrutura identificada não ser intraóssea. Foi solicitada então uma radiografia panorâmica, e na ocasião do atendimento primário, foi prescrito antibioticoterapia com amoxicilina 500mg por 7 dias, pois havia secreção purulenta no local da lesão e uso de analgésico caso estivesse com sintomatologia dolorosa intensa. Um mês após o atendimento inicial, foi realizada a remoção do sialólito, por meio de cirurgia com acesso intraoral no assoalho bucal. Foi removido o sialólito sem complicações, e a estrutura apresentou um formato irregular, medindo 2,0x0,5x0,4 cm, com área total de superfície de 0,91 cm², coloração amarelada e consistência endurecida. Para o cálculo da área de superfície do cálculo, a imagem do sialólito foi inserida no *software* gratuito *ImageJ* (*ImageJ* 1.53c, Wayne Rasband, *National Institutes of Health, USA*, link: <https://imagej.net>), que foi calibrado para a medição da estrutura. A ferramenta *Polygon selection* foi utilizada, e o sialólito foi delimitado no esquema ponto-a-ponto, para o cálculo da área de superfície do cálculo, medido com a ferramenta *Measure*. Ainda, optou-se por utilizar a ferramenta *3D Surface Plot* no mesmo *software* para criar uma imagem tridimensional baseada nas características de superfície do sialólito, aprimorando a análise qualitativa do mesmo. Foi prescrito analgésico (dipirona sódica) para o período pós-operatório, e a paciente evoluiu bem, com um bom prognóstico e sem recidiva em um *follow-up* de 1 ano.

Caso 2

Paciente VLRf, sexo feminino, leucoderma, 67 anos de idade, compareceu ao serviço de Cirurgia Bucodentofacial com relato de queixa álgica, relatando

Figura 1: Caso 1.

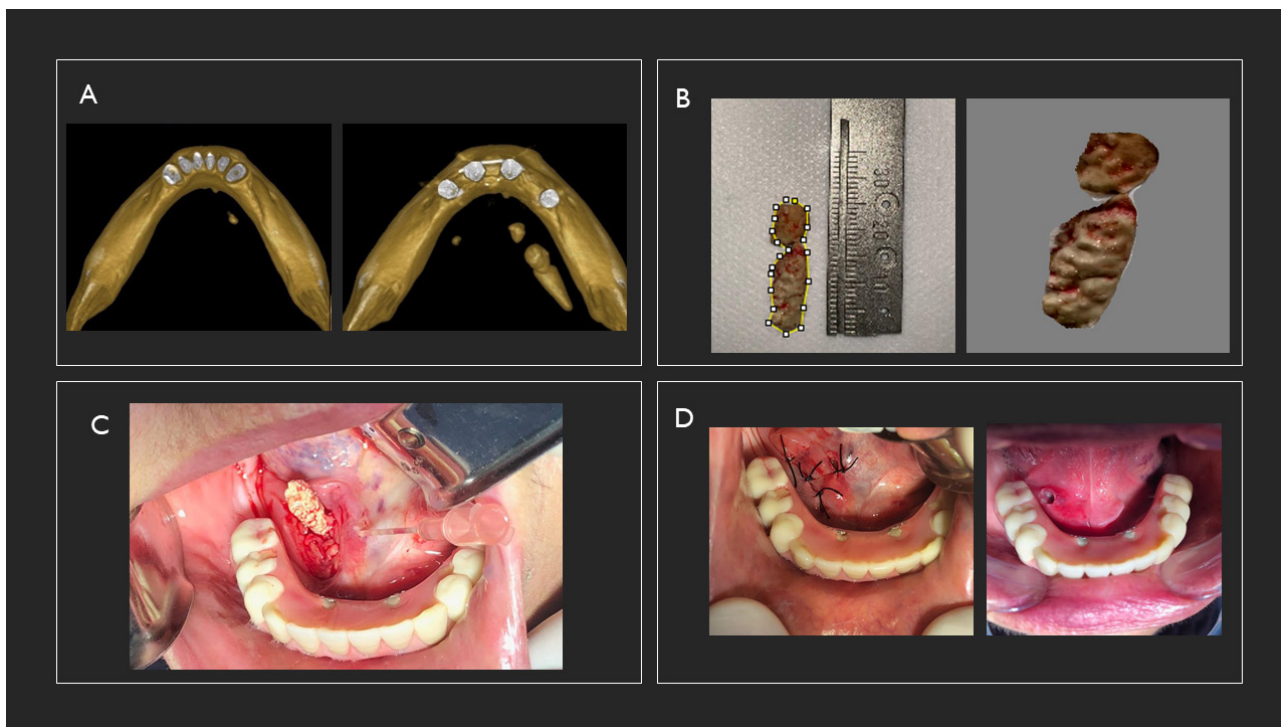
A) Fotografia clínica do paciente no momento trans-operatório, exibindo o sialólito no momento da sua remoção. B) Radiografia oclusal evidenciando o sialólito como uma estrutura radiopaca em região submandibular. C) Fotografia clínica utilizada para medir o sialólito no software *ImageJ*, com a demarcação do sialólito realizada manualmente no esquema ponto-a-ponto (representado em amarelo). D) Imagem tridimensional do sialólito evidenciando sua superfície corrugada.

estar associada com a região submandibular direita. A paciente relatou também alteração de paladar, com drenagem de secreção purulenta ao realizar movimento de auto ordenha. A paciente era portadora de hipertensão arterial controlada, em uso de Fluxocor Anlo® (olmesartana medoxomila e besilato de anlodipino, 40 mg). Ao exame clínico extrabucal observou-se presença de assimetria facial com aumento de volume na região submandibular direita, de consistência firme à palpação. Ao exame intraoral notou-se presença de uma fístula e drenagem de secreção purulenta no assoalho bucal direito, associado a um aumento de volume e eritema da região. O exame tomográfico revelou imagem hiperdensa sugestiva da presença de dois sialólitos no interior do ducto da glândula submandibular direita. Na reconstrução tridimensional era possível observar a formação de 3 estruturas mineralizadas, sendo as duas maiores na área da queixa e uma outra menor no lado contralateral. Curiosamente, a paciente relatou estar de posse de um exame tomográfico anterior, datado de aproximadamente 5 anos antes do atendimento corrente, e foi possível observar que já existia uma estrutura mineralizada na região da queixa, de menor diâmetro. Foi instituída a terapia medicamentosa com uso de antibiótico (amoxicilina 500 mg), AINES (nimesulida 100 mg) e analgésico (paracetamol 750 mg). Após três dias do início da terapia medicamentosa, houve uma melhora na sintomatologia e a paciente foi submetida

a procedimento cirúrgico para remoção do sialólito. A cirurgia foi realizada através do acesso cirúrgico intraoral no assoalho bucal por meio de anestesia local. Foram removidos dois sialólitos medindo 17 mm e 8 mm cada, em seu maior eixo. Os sialólitos foram medidos para o cálculo da sua área total da mesma forma como descrito no Caso 1, com resultados: 0,87 cm² e 0,45 cm² de área de superfície, respectivamente. Em conjunto, os dois cálculos tinham área total de superfície contabilizando 1,32 cm². Também neste caso, utilizou-se a imagem clínica do sialólito para criar uma imagem tridimensional e aprimorar a análise qualitativa. A sutura foi realizada por meio de fio de seda 4-0 e removida sete dias após o procedimento. Não houve qualquer tipo de intercorrência trans ou pós-operatória, sem recidiva em um *follow-up* de 1 ano.

DISCUSSÃO

A sialolitíase é um achado comum das glândulas salivares maiores, sendo menos comuns nas glândulas salivares menores. Do ponto de vista epidemiológico, sua estimada frequência é de 1,2% na população adulta e a glândula mais afetada é a submandibular, com predileção pelo sexo masculino. Pode ocorrer em qualquer faixa etária, mas tem maior incidência entre a quarta e décima décadas de vida, raramente acometendo a população pediátrica.^{1,7} Em contrapartida à frequência

Figura 2: Caso 2.

A) Reconstrução 3D da tomografia computadorizada de feixe cônico (TCFC) em dois momentos: na imagem da esquerda nota-se um pequeno sialólito, e na imagem da direita, no exame tomográfico realizado 5 anos após a primeira TCFC, nota-se a evolução do caso com a presença de 3 sialólitos, sendo na região submandibular do lado direito evidenciada a presença do sialólito gigante. B) Fotografia do sialólito do lado esquerdo, e do lado direito a imagem tridimensional evidenciando a superfície corrugada do cálculo. C) Fotografia clínica do momento trans-cirúrgico evidenciando o sialólito gigante. D) Fotografias clínicas, do lado esquerdo evidenciando o pós-operatório imediato com a sutura em posição e do lado direito o aspecto inicial, evidenciando fístula com drenagem de secreção purulenta permeada por uma área eritematosa.

comum da sialolitíase, a presença de sialólitos gigantes é considerada de rara ocorrência.^{5,8} Nestes casos onde há a presença de cálculos de maior tamanho, são considerados de maior prevalência no sexo feminino e localizam-se principalmente no sistema ductal da glândula submandibular.^{4,9} Ambos os casos discutidos neste trabalho se encaixam nos padrões epidemiológicos para os sialólitos gigantes, além de virem acompanhados por sintomatologia dolorosa, levando os pacientes a buscarem por serviços especializados.

Os cálculos salivares em sua maioria (88%) são de tamanhos inferiores a 10 mm, todavia, apenas 7,6% são superiores a 15 mm.⁵ Ledesma-Montes et al⁷ relataram apenas 16 casos de sialolitíase gigante em um estudo do tipo revisão da literatura, considerando publicações entre os anos de 1942 e 2007, sendo o maior dos cálculos atingindo proporções equivalentes à 70 mm. Depois disto, poucos relatos esporádicos individuais foram evidenciados. Ainda, ressalta-se que os autores consideraram sialólitos gigantes apenas aqueles que excediam medidas de 35 mm.⁷ Neste artigo em específico, os dois casos relatados foram classificados como sialólitos gigantes, não apenas pelo maior diâmetro, mas considerando o cálculo da área e toda a repercussão clínica. O cálculo da área por meio de

imagens e utilização de um software de domínio público facilita na obtenção de dados extras que auxiliaram na decisão de considerar as pedras retiradas como sialólitos gigantes.

Há um contrassenso na literatura atual a respeito da classificação de sialólitos quanto ao tamanho. Segundo Martorelli et al¹⁰ são classificados como pequenos os cálculos que medem até 1 mm, normais aqueles de dimensões de 1 mm a 15 mm ou gigantes as pedras maiores que 15 mm em seu maior diâmetro, também em concordância com outros trabalhos encontrados na literatura.^{4-6,11-13} Jaeger et al⁹ consideraram os sialólitos maiores do que 10 mm como gigantes. Lustmann et al¹ reservam este título apenas para àqueles com tamanho entre 2 e 3 cm, enquanto que outros estudiosos utilizam dimensões maiores de 35 mm para essa mesma classificação.^{7,14} Com uma classificação não padronizada, fica a dúvida qual corrente seguir e como classificar os casos. Não que haveria alguma mudança no curso clínico ou de tratamento, mas que, para fins epidemiológicos seria importante entender se os casos se encaixam na versão mais incomum da doença. Dessa forma, fica aqui proposto, além do relato de caso, o uso do auxílio do cálculo da área, que daria uma melhor "visão" da amplitude dos casos e se deveriam ou não

serem alocados na categoria de sialólitos gigantes.

Para dar um subsídio complementar às informações relatadas neste artigo, uma rápida revisão não exaustiva da literatura foi realizada utilizando os termos "sialolito gigante" e o correspondente na língua inglesa "giant sialolith", tanto na base de dados do PubMed quanto na base de dados do SCIELO, e foram identificados 18 artigos relatando 27 casos de sialólitos gigantes, nenhum deles reportando o cálculo da área do sialolito. Além desta informação reportada aqui para os dois casos relatados, pode-se ter também uma visão mais crítica sobre o tema e questionar se o fato da sialolitíase apresentar pedras gigantes devesse ser mesmo classificado como um fenômeno raro. Com uma revisão mais exaustiva da literatura, do tipo revisão sistemática por exemplo, poderia se chegar à resultados mais concretos da não caracterização como um fenômeno raro, mas apenas incomum. Ainda, deve-se também pensar na subnotificação dos casos, pois mesmo apresentando alta prevalência e incidência, poucas revistas aceitam publicações destes casos isolados por serem considerados mais simples.

Ainda importante, deve-se discutir sobre as repercussões relacionadas ao aparecimento de um sialólito gigante. Para um cálculo se tornar gigante depende principalmente da reação do ducto afetado. A presença de um crescente elemento no interior de um ducto pode levar à obstrução do fluxo salivar e consequentemente inchaço, dor e infecção. Entretanto se o ducto relacionado à pedra apresentar capacidade de dilatação, permitindo normais volumes de secreção, o quadro pode evoluir de maneira assintomática por um longo período, possibilitando o contínuo desenvolvimento do cálculo salivar sem que haja nenhuma intervenção odontológica para remoção do mesmo, e desta forma eventualmente um sialolito gigante é criado.⁴ Acredita-se que um cálculo possa aumentar seu tamanho numa taxa de 1 a 1,5 mm por ano.¹⁴ Fica demonstrado então mais um motivo para que a classificação seja padronizada e uma tentativa de entender melhor o desenvolvimento destas pedras seja elucidado. Ainda, como é sugerido que um cálculo poderia aumentar seu tamanho em uma taxa de 1 a 1,5 mm por ano, e analisando a evolução do segundo caso relatado, tendo em vista a presença de uma tomografia da mesma região datada de 05 anos previamente à abordagem, identificamos uma taxa de evolução de 3,5 mm por ano. Esse achado representa uma informação de extrema relevância para a análise e cálculo do tempo de evolução dos sialólitos.

A conduta terapêutica é primariamente cirúrgica, mas é importante considerar que o estágio de desenvolvimento do sialolito e outros fatores influenciam em técnicas mais ou menos invasivas, reservando as mais invasivas para os sialólitos gigantes. Bandeira et al¹⁵ trazem um caso onde foi removido do ducto de Wharton de uma paciente que apresentou uma pedra medindo 55 mm em seu maior comprimento e apenas

0,5 mm de largura, apresentando formato cilíndrico, comprido e fino, fatos que poderiam sugerir pouca dilatação do ducto. Em contrapartida, Bodner et al⁵ relata em seu trabalho um cálculo de proporções de 32 mmX16 mm, mais arredondado e robusto em largura e espessura, onde provavelmente houve maior dilatação do ducto para que permitisse que pedra chegasse a tais proporções.

CONCLUSÃO

Conclui-se que apesar da sialolitíase das glândulas salivares ser um fenômeno relativamente comum, a ocorrência de sialólitos gigantes são achados incomuns. Ainda, faz-se necessário um consenso entre a comunidade científica quanto a classificação dos cálculos salivares quanto ao seu tamanho para fins de categorização. Os dois casos aqui relatados exemplificam bem o uso complementar do cálculo da área de superfície dos sialólitos como análise complementar, que pode ser incorporada na padronização para classificação dos cálculos gigantes.

CONFLITO DE INTERESSES

Todos os autores declaram não haver conflito de interesse de nenhum tipo.

REFERÊNCIAS

1. Lustmann J, Regev E, Melamed Y. Sialolithiasis: a survey on 245 patients and a review of the literature. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 1990; 19(3):135-8. doi:10.1016/S0901-5027(05)80127-4
2. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Chi AC. Salivary gland pathology. In: *Color atlas of oral and maxillofacial diseases.* 2019. doi:10.1016/b978-0-323-55225-7.00011-7
3. Tretiakow D, Skorek A, Ryl J, Wysocka J, Darowicki K. Ultrastructural analysis of the submandibular sialoliths: raman spectroscopy and electron back-scatter studies. *Ultrastruct Pathol.* 2020; 44(2):219-26. doi:10.1080/01913123.2020.1744784
4. Nirola A, Grover S, Batra P, Gambhir RS. Submandibular duct sialoliths of unusual sizes: two case reports. 2020; 5-8. doi:10.15406/jdhodt.2020.11.00515
5. Bodner L. Giant salivary gland calculi: diagnostic imaging and surgical management. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2002; 94(3):320-3. doi:10.1067/moe.2002.123863
6. Pachisia S, Mandal G, Sahu S, Ghosh S. Submandibular sialolithiasis: a series of three case reports with review of literature. *Clin Pract.* 2019; 9(1). doi:10.4081/cp.2019.1119

7. Ledesma-Montes C, Garcés-Ortíz M, Salcido-García JF, Hernández-Flores F, Hernández-Guerrero JC. Giant sialolith: case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 2007; 65(1):128-30. doi:10.1016/j.joms.2005.10.053
8. Oliveira T P, Oliveira INF, Pinheiro ECP, Gomes RCF, Mainenti P. Giant sialolith of submandibular gland duct treated by excision and ductal repair: a case report. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2016. doi:10.1016/j.bjorl.2015.03.013
9. Jaeger F, Andrade R, López Alvarenga R, Fernandes Galizes B, Figueiredo Amaral MB. Sialolito gigante no ducto da glândula submandibular. *Rev Port Estomatol Med Dent e Cir Maxilofac.* 2013. doi:10.1016/j.rpemd.2012.10.003
10. Martorelli SBF, Andrade FBM, Moura RPPS, Medeiros EC, Marechal BB. Giant sialolith in submandibular gland: case report. *Rev ABO Nac.* 2012; XX(1).
11. Sakthivel P, Yogal R, Singh S, Sharma P, Singh CA. Giant sialolith of submandibular duct. *J Nepal Med Assoc.* 2017; 56(206):262-4. doi:10.31729/jnma.3114
12. Souza DD, Araújo B. Sialolito de grandes dimensões em ducto de glândula submandibular : relato de caso. 1808; 5210:33-6.
13. Fowell C, MacBean A. Giant salivary calculi of the submandibular gland. *J Surg Case Reports.* 2012. doi:10.1093/jscr/2012.9.6
14. Iqbal A, Natu S, Gupta A, Gupta A. Unusually large sialolith of Wharton's duct. *Ann Maxillofac Surg.* 2012; 2(1):70. doi:10.4103/2231-0746.95327
15. Bandeira CM, Anbinder AL, Carvalho YR, Prado F. Sialolitíase gigante de glândula submandibular. *Relatos de Casos Cirúrgicos.* 2017; (1):1-5.