

LITIAZA MULTIPLĂ A GLANDELOR SALIVARE SUBMANDIBULARE

Dumitru Șcerbatiuc, Sofia Lehtman

Catedra Chirurgie Oro-Maxilo-Facială “Guțan Arsenie”,
Universitatea de Stat de Medicină și Farmacie „Nicolae Testemițanu”,
Centrul Național Științifico-Practic de Medicină Urgentă, Chișinău

Summary

Multiple sialoliths in submandibular gland

Multiple calculi in a submandibular gland duct are an uncommon occurrence. The authors describe the incidence, particularity of diagnosis and treatment modalities of multiple submandibular sialoliths. According to the present study, multiple calculi in a submandibular gland duct are predominantly observed in male patients, localized in the proximal part of Wharton's duct and gland parenchyma. Resection of submandibular gland remains the standard treatment option for this condition.

Rezumat

Sialolitiaza submandibulară multiplă este rară. Autorii descriu incidența, particularitățile de diagnostic și tratament al sialolitiizei submandibulare multiple. Conform rezultatelor prezentului studiu, calculii multipli ai glandelor submandibulare sunt predominant diagnosticați la bărbați, au localizare în porțiunea proximală a ductului Wharton și parenchimul glandular. Rezeecția glandei submandibulare este metoda standard de tratament al acestei patologii.

Actualitatea

Litiaza glandelor salivare sau sialolitiaza este cea mai frecventă afacțiune a glandelor salivare fiind diagnosticată în 12 cazuri la 1000 în populația adultă. În majoritatea cazurilor sunt afectate glandele salivare submandibulare (80-90%), glandele parotide fiind cel mai rar afectate (5-20%), iar litiaza glandelor salivare mici este considerată cazuistică [10].

În structura generală a sialolitiizei calculii solitari sunt observați în 70-80% cazuri, câte doi calculi – în circa 20% iar trei și mai mulți calculi – în 5% cazuri. În literatura de specialitate sporadic sunt descrise cazuri unice de sialolitiiază multiplă cu localizare în glandele submandibulare [2, 6, 8, 13, 14, 20], parotide [7, 16, 21] și sublinguale [1, 5]. La momentul actual nu este definitivată metoda optimală de tratament a sialolitiizei multiple a glandelor submandibulare. În acest context, luând în considerație lipsa unui consens referitor la metodele de diagnostic și tratament al sialolitiizei multiple, cercetare în această direcție este actuală.

Obiectivele lucrării – de a determina frecvența, manifestările clinice și particularitățile diagnostice în sialolitiiază multiplă a glandelor submandibulare, precum și de a aprecia rezultatele tratamentului chirurgical al acestei patologii.

Material și metode

A fost efectuată analiza retrospectivă a 106 pacienți diagnosticați cu sialolitiiază a glandelor submandibulare operați în secția chirurgie oro-maxilo-facială a IMSP CNȘPMU în perioada ianuarie 2005 – aprilie 2011. Criteriul de includere în lotul cu sialolitiiază multiplă au fost cazurile cu număr de calculi ≥ 2 depistați intraoperator.

Pentru diagnosticarea sialolitiizei au fost utilizate metodele imagistice: radiologic (ortopantograma), ultrasonografia și tomografia computerizată.

Examenul ultrasonografic al glandelor salivare a fost efectuat cu aparat Philips EnVisor HD7XE (Germany) cu transductor liniar cu frecvența de lucru 7-12 MHz. Au fost apreciate dimensiunile glandei (mm), caracterul conturului glandei, ecogenitatea și structura parenchimului glandular, diametrul ductului Wharton (mm), prezența sau lipsa dereglării pasajului pe duct, dimensiunea maximală și minimală a calculilor și localizarea acestora, aprecierea gradului procesului inflamator în parenchimul glandular, prezența sau lipsa formațiunilor chistice intraglandulare, dimensiunile (mm) și volumul (ml) acestora.

A fost calculată media aritmetică (M), eroarea mediei aritmetice (m). Rezultatele obținute au fost prelucrate cu ajutorul IBM/PC și softului statistic (Statistical Package for the Social Sciences) SPSS for Windows 14.0 (SPSS, Chicago, IL, USA).

Rezultate

Din lotul total de pacienți în 31/106 (29.2%) au fost diagnosticați cu litiază multiplă a glandelor salivare. Repartizarea pe sexe (B vs. F) în lotul general de pacienți a fost 20 (64.5%) vs. 11 (35.5%) respectiv ($p < 0.05$). Vârsta medie a constituit 48.5 ± 2.6 (de la 16 la 76) ani. Repartizarea pacienților cu sialolitiază multiplă conform sexului și vârstei este prezentată în tabelul 1.

Durata medie a semnelor clinice a constituit – 279.8 ± 68.1 zile (de la 1 zi la 4 ani). Manifestările clinice au inclus următoarele simptome: durere permanentă și edem în proiecția glandei în 100% cazuri, edemațierea glandei în timpul alimentării – 27(87.1%).

Tabelul №1. Repartizarea pacienților cu sialolitiază multiplă conform sexului și vârstei

Sex \ Vârsta (ani)		< 21	21-30	31-40	41-50	51-60	61-70	>70	Total
Bărbați		1	2	3	7	3	1	3	20
Femei		-	-	2	4	4	-	1	11
Total	N	1	2	5	11	7	1	4	31
	%	3.2	6.4	16.1	35.6	22.6	3.2	12.9	100%

Sialolitiază multiplă a glandelor submandibulare a fost mai frecvent diagnosticată pe dreapta comparativ cu stânga 17 (54.8%) vs. 14 (45.2%) respectiv, însă diferența este statistic ne semnificativă ($p > 0.05$).

Sialolitiază primară a fost diagnosticată în 25 (80.6%) cazuri, recidivantă – 5 (16.2%) și reziduală – 1 (3.2%). Recidiva sialolitiazăi a fost observată în cazurile de înlăturare transorală a calculilor.

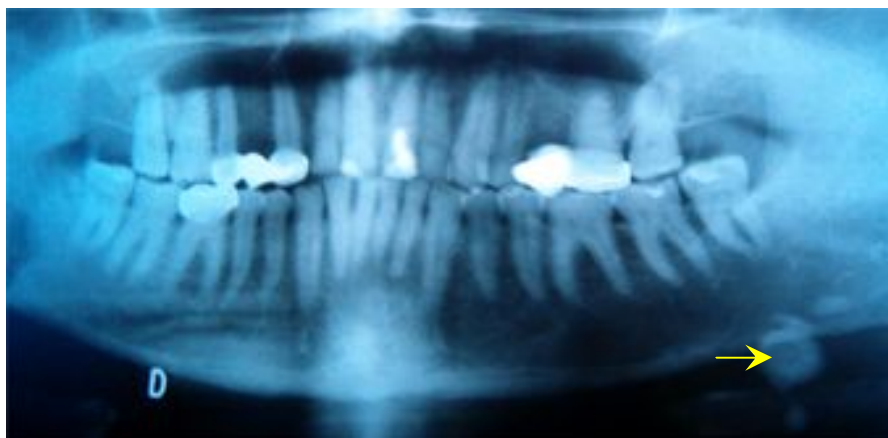


Fig.1. Ortopantogramă: trei concremenți radio-opaci în proiecția glandei submandibulare stângi (→).

În cazul examenului radiologic calculii sau vizualizat în 25 (80.6%) cazuri (**Fig.1**), însă compararea rezultatelor examenului radiologic cu datele intraoperatorii a demonstrat neconcordanță referitor la numărul calculilor în 56% cazuri.

Luând în considerație rezultatele proprii și datele literaturii referitor la informativitatea diagnostică a examenului radiologic, am suplimentat algoritmul diagnostic al sialolitiazii prin utilizarea mai frecventă a ultrasonografiei glandelor submandibulare. Rezultatele primare de utilizare a ultrasonografiei în diagnosticul sialolitiazii au demonstrat informativitate înaltă a acestei metode, care a permis nu numai aprecierea numărului și dimensiunilor concremenților (în toate cazurile rezultatele au coincis cu datele intraoperatorii), ci și diagnosticarea dilatării ductului Wharton (4.3 ± 0.3 mm), dereglarea pasajului salivar prin acesta (100%), precum și modificarea structurii glandei (100%) și prezența limfadenopatiei satelite (75%) (**Fig.2**).

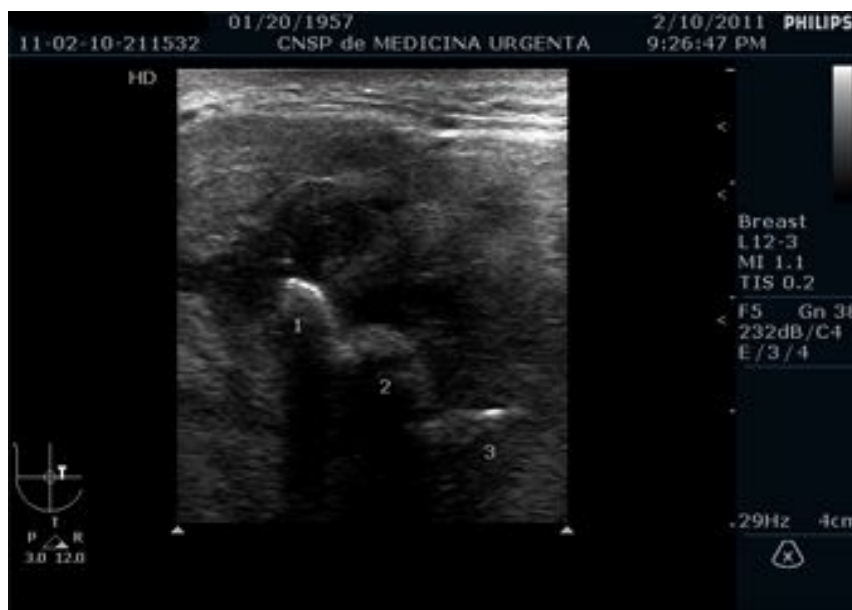


Fig. 2. USG glandei submandibulare stângi – sialolitiază multiplă.

Localizarea topografică a concremenților în caz de sialolitiază multiplă și frecvența prezenței acestora este prezentată în tabelul 2.

Tabelul №2. Localizarea anatomică a calculilor în caz de sialolitiază multiplă a glandelor submandibulare

Numărul calculilor glandelor salivare	Porțiunea distală a ductului Wharton	Porțiunea proximală a ductului Wharton și parenchimul glandular	Cota parte în structura sialolitiazii multiple n (%)
2 calculi	n=5	n=10	15 (48.4%)
3 calculi	n=1	n=12	13 (41.9%)
4 calculi	-	n=2	2 (6.5%)
5 calculi	n=1	-	1 (3.2%)
Total	7 (22.5%)	24 (77.5%)	31 (100%)

În rezultatul analizării 106 cazuri de sialolitiază submandibulară a fost stabilită că în structura generală a acestei patologii calculii solitari au fost prezenți în 75 (70.8%) cazuri, 2

calculi – 15 (14.1%), 3 calculi – 13 (12.3%), 4 calculi – 2 (3.8%) și 5 calculi în doar un caz (0.9%).

Conform datelor prezentate în tabelul 2, în caz de sialolitiiază multiplă concremenții sunt statistic semnificativ mai frecvent ($p < 0.001$) localizați în parenchimul glandular și porțiunea proximală a ductului Wharton comparativ cu porțiunea distală a acestuia.

Localizarea concremenților în caz de sialolitiiază multiplă a glandelor submandibulare a influențat în bună parte volumul intervenției chirurgicale, astfel intervențiile organo-menajante (înlăturarea trans-orală a calculilor) au fost posibile în 9 (29.1%) cazuri, iar sialolitadenectomia a fost efectuată la 22 (70.9%) pacienți ($p < 0.001$). În lotul pacienților care au beneficiat de intervenții organo-menajante în 2 cazuri a fost efectuată sialolitadenectomia electivă din cauza persistenței semnelor clinice de sialoadenită cronică.

Examenul macro- și microscopic al pieselor operatorii în majoritatea cazurilor a demonstrat transformarea chistică a sistemului ductal glandular – sialoectazia (**Fig.3**).



Fig.3. Glanda submandibulară (secțiune): sialolitiiază cronică și trei calculi intraparenchimatoși (→).

Numărul mediu al calculilor în caz de sialolitiiază multiplă a glandelor submandibulare a fost de 2.65 ± 0.3 (de la 2 la 5), repartizarea cazurilor conform numărului și localizării calculilor este prezentat în tabelul 2.

A fost observat că dimensiunea media a concremenților în caz de sialolitiiază multiplă a constituit 4.2 ± 0.2 mm (de la 1 la 11 mm), iar în cazul calculilor solitari acesta a constituit – 8.1 ± 0.5 mm (de la 2 la 25 mm), diferențele fiind statistic semnificative ($p < 0.001$).

Discuții

Datele literaturii referitor la frecvența sialolitiazei multiple a glandelor submandibulare sunt contradictorii, astfel conform unor autori această patologie este diagnosticată destul de rar [19], iar conform altor publicații, în caz de sialoscopie diagnostică frecvența sialolitiazei multiple constituie 29% [11], ceea ce corespunde datelor proprii. Este logic de presupus că sporirea numărului de silolitiiază multiplă este condiționat de utilizarea frecventă a metodelor imagistice

și endoscopice contemporane de diagnostic, precum și de abordul divers al definiției de „sialolitiă multiplă”.

Conform datelor literaturii este observată prevalență nesemnificativă a persoanelor de sex masculin în structura generală a sialolitiizei [8], totuși, conform datelor proprii raportul B:F a fost practic 2:1.

Conform datelor Shafi M, Jafferi S (2006), în caz de sialolitiă multiplă de regulă sunt depistați calculi cu dimensiuni mici (1-3 mm) [14]. Rezultatele obținute în cadrul prezentului studiu au demonstrat dimensiuni semnificativ mai mici a calculilor în caz de sialolitiă multiplă comparativ cu sialolitiiza solitară. Totuși, există date publicate referitor la prezența calculilor multipli cu dimensiuni mari [6, 8].

În prezentul studiu au fost observate doar cazuri de sialolitiă unilaterală, ceea ce corespunde datelor literaturii [1, 14], totuși există publicații referitor la localizarea bilaterală a concremenților [2, 7, 13].

În materialul prezentat numărul maxim de calculi a constituit 5, totuși există cazuri publicate de sialolitiă bilaterală cu număr de concremenți depistați în glanda submandibulară stângă de 30 aceștia având dimensiuni diferite [2].

Pentru diagnosticarea sialolitiizei multiple a fost utilizată ortopantograma [1, 8, 16], ultrasonografia [16], tomografia computerizată [1, 16], sialografia [4, 8] și sialoscopia [11]. Până la momentul actual nu există date publicate referitor la specificitatea și sensibilitatea acestor metode diagnostice pentru sialolitiiza multiplă.

În literatură există publicații unice referitor la asocierea sialolitiizei multiple și sindromului Sjögren (afecțiune autoimună cu afectarea preponderentă a glandelor exocrine) [7, 21]. Shimizu M. et al. (2005) a înaintat ipoteza conform căreia în caz de sindrom Sjögren pacientul este predispus la dezvoltarea microlitiizei multiple în glandele salivare mari [16]. Wickramasinghe A et al. (2005) a descris caz clinic de sialolitiă multiplă a glandelor parotide asociat cu limfom tip MALT [21].

Selectarea metodei de tratament în caz de sialolitiă multiplă este controversată. Există publicații unice referitor la utilizarea sialoscopiei în caz de sialolitiă multiplă submandibulară [3, 18]. Totuși, unii autori consideră sialolitiiza multiplă cauza principală de conversie la intervenții chirurgicale deschise [11, 18].

Nahlieli O. et al. (2007) a utilizat metoda de înlăturare transorală a concremenților cu marsupializarea ductului și glandei combinate cu sialoscopia în 26 cazuri de sialolitiă multiplă submandibulară cu localizarea calculilor în regiunea deschiderii ductului [12]. Extragerea cu succes a sialoliților a fost semnalată în 81% cazuri [12].

Susținem opinia Shashinder S et al. (2011) conform căreia în caz de concremenți multipli cu localizare în porțiunea proximală a ductului glandei submandibulare necesitatea efectuării sialolitudenectomiei este semnificativ mai mare comparativ cu pacienții cu sialolitiă solitară cu localizare intraductală [15]. Mai mult ca atât, în rezultatul examenului macro- și microscopic al pieselor operatorii am observat sialoectazii, fapt descris și de alți autori [20].

Astfel, conform rezultatelor prezentului studiu am reușit să stabilim frecvența sialolitiizei multiple, particularitățile de diagnostic și tratament al acestei afecțiuni, precum și modificările histologice specifice ale glandelor submandibulare în cazul acestei patologii.

Concluzii

1. Sialolitiiza submandibulară multiplă este statistic semnificativ mai frecvent diagnosticată la pacienții de sex masculin.
2. Calculii multipli ai glandelor submandibulare sunt statistic semnificativ mai frecvent localizați în parenchimul și porțiunea proximală a ductului Wharton.
3. Luând în considerație particularitățile localizării concremenților multipli ai glandelor submandibulare, sialolitudenectomia este metoda de elecție în tratamentul acestei patologii.

Bibliografie

1. Choi J, Kim IK, Oh NS. Multiple sialoliths in sublingual gland: report of a case. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2002;31(5):562-3.
2. Emir H, Kaptan ZK, Uzunkulaoglu H, Dogan S. A rare case of asymptomatic bilateral submandibular gland sialolithiasis: a giant, fistulized calculus on the right and multiple calculi on the left. *Ear Nose Throat J.* 2010;89(10):502-4.
3. Faure F, Querin S, Dulguerov P, Froehlich P, Disant F, Marchal F. Pediatric salivary gland obstructive swelling: sialendoscopic approach. *Laryngoscope.* 2007;117(8):1364-7.
4. Hasson O. Modern sialography for screening of salivary gland obstruction. *J Oral Maxillofac Surg.* 2010;68(2):276-80.
5. Hong KH, Yang YS. Sialolithiasis in the sublingual gland. *J Laryngol Otol.* 2003;117(11):905-7.
6. Huang TC, Dalton JB, Monsour FN, Savage NW. Multiple, large sialoliths of the submandibular gland duct: a case report. *Aust Dent J.* 2009;54(1):61-5.
7. Konstantinidis I, Paschaloudi S, Triaridis S, Fyrmpas G, Sechlidis S, Constantinidis J. Bilateral multiple sialolithiasis of the parotid gland in a patient with Sjögren's syndrome. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2007;27(1):41-4.
8. Leung AK, Choi MC, Wagner GA. Multiple sialoliths and a sialolith of unusual size in the submandibular duct: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1999;87(3):331-3.
9. Lindman JP, Woolley AL. Multiple intraparenchymal parotid calculi: a case report and review of the literature. *Ear Nose Throat J.* 2003;82(8):615-7.
10. 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.
11. Marchal F, Dulguerov P, Becker M, Barki G, Disant F, Lehmann W. Submandibular diagnostic and interventional sialendoscopy: new procedure for ductal disorders. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2002;111(1):27-35.
12. Nahlieli O, Shacham R, Zagury A, Bar T, Yoffe B. The ductal stretching technique: an endoscopic-assisted technique for removal of submandibular stones. *Laryngoscope.* 2007;117(6):1031-5.
13. Orlian AI, Schaefer M, Golub J. Multiple bilateral sialoliths of the submandibular ducts. *N Y State Dent J.* 1998;64(7):42-3.
14. Shafi M, Jafferi S. Submandibular duct sialolithiasis: an unusual presentation. *J Coll Physicians Surg Pak.* 2006;16(10):671-2.
15. Shashinder S, Morton RP, Ahmad Z. Outcome and relative cost of transoral removal of submandibular calculi. *J Laryngol Otol.* 2011;125(4):386-9.
16. Shimizu M, Yoshiura K, Nakayama E, Kanda S, Nakamura S, Ohyama Y, Nakamura N. Multiple sialolithiasis in the parotid gland with Sjögren's syndrome and its sonographic findings-report of 3 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2005;99(1):85-92.
17. Stenner M, Preuss SF, Hüttenbrink KB, Klusmann JP. Accessory parotid gland lesions: case report and review of literature. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2008;265(9):1135-8.
18. Su YX, Liao GQ, Zheng GS, Liu HC, Liang YJ, Ou DM. Sialoendoscopically assisted open sialolithectomy for removal of large submandibular hilar calculi. *J Oral Maxillofac Surg.* 2010;68(1):68-73.
19. Tapan MG, Rohiwal RL. Multiple salivary calculi in Wharton's duct. *J Laryngol Otol.* 1985;99(12):1313-4.
20. Uluç ME, Vidinli BD, Erdogan N, Gelal F. Giant cystic dilatation that includes multiple sialolithiasis of submandibular gland. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2006;134(3):533-4.
21. Wickramasinghe A, Howarth A, Drage NA. Multiple bilateral parotid sialoliths in a patient with mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma (MALT lymphoma) of the salivary glands. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2005;99(4):496-8.