



Reporte de Caso/Case Report

Caracterización de litiasis en glándulas salivales menores: reporte de casos y revisión de un fenómeno poco frecuente

Characterization of lithiasis in minor salivary glands: cases report and revision of a rare phenomenon

Romero Panico, Juan Cruz^{*1}; Martín, Rocío¹; Panico, René¹; Gilligan, Gerardo¹.

¹Cátedra de Estomatología "A", Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba

*Correspondencia a/Corresponding to:

Od. Juan Cruz Romero Panico

Cátedra "A" de Estomatología

Departamento de Patología Bucal.

Facultad de Odontología. Universidad Nacional de Córdoba.

Pabellón Argentina, Ciudad Universitaria, 5000 Córdoba, Argentina.

Correo electrónico/e-mail: juancruzromeropanico@unc.edu.ar

DOI: 10.25014/revfacodont271.2023.33.3.33

<https://revistas.unc.edu.ar/index.php/RevFacOdonto>

Received 16 January 2023; Received in revised form 16 March 2023 Accepted 30 June 2023

Citation: Romero Panico JC; Martín R; Panico R; Gilligan G. Caracterización de litiasis en glándulas salivales menores: reporte de casos y revisión de un fenómeno poco frecuente. Rev Fac Odont (UNC). 2023; 33(2):44-49.

Abstract

Sialolithiasis is a relatively common condition, affecting the major salivary gland ducts with a higher incidence. The finding of sialoliths in minor salivary glands is extremely rare. Some of the reasons that would indicate the limited scientific evidence surrounding the diagnosis of minor salivary gland sialolithiasis could be associated with an underdiagnosis of the pathology, and the absence of histopathological diagnosis after surgical excision. Objective: two cases are presented, in adult patients, with clinical and histopathological diagnosis of sialolithiasis in minor salivary glands, who attended the Outpatient Clinic of the Chair of Stomatology A, of the Faculty of Dentistry, of the National University of Córdoba, in the period 2021-2022. Additionally, a narrative review of some of the possible etiological aspects of this phenomenon is provided. It is important to report these cases to generate greater scientific evidence about this entity and, in this way, achieve a better understanding of it, expand the range of differential diagnoses and therapeutic options for this pathology.

Key words: sialolithiasis, report case, diagnosis

Resumen

La sialolitiasis es una condición relativamente frecuente, afectando con mayor incidencia a los ductos de glándulas salivales mayores. El hallazgo de sialolitos en glándulas salivales menores es sumamente infrecuente. Algunos de los motivos que indicarían la escasa evidencia científica en torno al diagnóstico de sialolitiasis de glándulas salivales menores podría estar asociado a un subdiagnóstico de la patología, y a la ausencia de diagnóstico histopatológico posterior a la escisión quirúrgica. Objetivo: se presentan dos casos, en pacientes adultos, con diagnóstico clínico e histopatológico de sialolitiasis en glándulas

salivales menores, que concurrieron al Consultorio Externo de la Cátedra de Estomatología A, de la Facultad de Odontología, de la Universidad Nacional de Córdoba, en el periodo 2021-2022. Además, se brinda una revisión narrativa de algunos de los posibles aspectos etiológicos de este fenómeno. Es importante el reporte de estos casos para generar mayor evidencia científica sobre esta entidad y, de esta manera, lograr un mejor entendimiento de la misma, ampliar el abanico de diagnósticos diferenciales y las opciones terapéuticas de esta patología.

Palabras clave: sialolitiasis, reporte de caso, diagnostico

Introducción

La sialolitiasis de glándulas salivales es una condición bucal que se presenta con relativa frecuencia en la clínica estomatológica. Los cálculos salivales o sialolitos se desarrollan preferentemente en los ductos de glándulas salivales mayores, siendo las Sialolitiasis de Glándulas Salivales Menores (SGSM) hallazgos infrecuentes en la consulta estomatológica^{1,2}. Sin embargo, algunos reportes indican que es una entidad subdiagnosticada o subestimada y que su incidencia sería mayor a la realmente reportada en la literatura científica. Algunos de los motivos son la confusión diagnóstica con otras entidades y la ausencia de diagnóstico histopatológico posterior a la escisión quirúrgica³.

Clínicamente, la SGSM se presenta en áreas donde anatómicamente existen glándulas salivales menores, más frecuentemente en mucosa labial superior, inferior y mucosa yugal. Las lesiones se presentan como un nódulo solitario, firme, que eleva la mucosa sin modificar su color y con mayor incidencia en pacientes de mediana edad. A veces suelen ser confundidos con quistes mucoides, sialoadenitis y tumores benignos de glándulas salivales^{4,5}, entidades que representan los principales diagnósticos diferenciales.

Debido a la escasa descripción clínica de esta entidad, es importante que exista más evidencia científica sobre SGSM para mejorar el entendimiento de la entidad y ampliar las opciones terapéuticas, aunque no tenga implicancias relevantes en la salud general de los pacientes. El objetivo de este trabajo es reportar dos casos clínicos de SGSM en pacientes que concurrieron durante el período 2021-2022 en el Consultorio Externo de la Cátedra de Estomatología "A" de la Facultad de Odontología de la Universidad Nacional de Córdoba, Argentina. Todos los pacientes firmaron el consentimiento informado y todos los estudios clínicos y maniobras realizadas para el diagnóstico fueron realizados respetando

declaraciones internacionales de ética en Salud y Declaración de Helsinki.

Caso 1

Se presentó a la consulta un paciente de género masculino de 74 años de edad con múltiples lesiones nodulares ubicadas en semimucosa labial superior, mucosa yugal y fibromucosa palatina. La lesión más relevante se encontraba en la semimucosa labial superior, la cual tenía 30 años de evolución y, según la anamnesis, se registró el vínculo directo con un traumatismo generado durante una práctica deportiva. El paciente era hipertenso controlado y estaba transitando un profundo cuadro depresivo, controlado con ansiolíticos. Los antecedentes heredofamiliares no eran de relevancia clínica, así como también negó ser tabaquista o enolista. A la inspección clínica, se observó una lesión nodular que elevaba la mucosa sin modificar su textura, ubicada en la región paramedial del labio superior, de consistencia firme, móvil y dolorosa durante las maniobras palpatorias. Superficialmente, se podía evidenciar telangiectasias en la región de interfase entre semimucosa y mucosa labial superior. La solicitud de una ortopantomografía permitió observar una masa sólida, radiopaca, circular compatible con un sialolito. El diagnóstico clínico presuntivo fue de una SGSM.

El perfil bioquímico del paciente no arrojó datos de relevancia, con rangos normales de los análisis de laboratorio. Bajo anestesia local, se realizó una incisión lineal sobre el nódulo labial y posteriormente divulsión roma, permitiendo así, la apreciación de una masa calcificada de color amarillento, autónoma de los planos musculares del labio, la cual fue fácilmente extirpada. Se realizó síntesis cruenta de la lesión. El paciente evolucionó favorablemente.

El estudio histopatológico permitió la observación de capas concéntricas de tejido

calcificado, con áreas de inflamación crónica y colonias bacterianas, confirmando la sospecha clínica de SGSM. La Fig. 1 muestra los aspectos clínicos e histomorfológicos de la lesión descrita.

El cuadro de supuración glandular intraoral fue diagnosticado como Estomatitis Glandularis Supurativa, tratado con esquema de antibioticoterapia (Amoxicilina con Ácido Clavulánico + Metronidazol) y escisión quirúrgica de las lesiones que fueron refractarias al tratamiento antiinfeccioso. El paciente no mostró recurrencia luego de su tratamiento.



Figura 1 Caso 1. A. Lesión nodular única, firme ubicada en región paramedial izquierdo de la semimucosa labial superior. A la palpación, se evidenció una lesión pétreo a la consistencia fácilmente desplazable sobre los tejidos profundos. Indolora B. Biopsia por escisión, nótese el desprendimiento completo del lito durante las maniobras quirúrgicas C. Microfotografía histológica. H/E10X. Se observan capas concéntricas de tejido hialino calcificado con áreas de inflamación crónica y colonias bacterianas.

Caso 2

Se presentó a la consulta un paciente de género masculino de 66 años de edad con una lesión nodular única ubicada en semimucosa labial superior, con una evolución estimada de 30 años. El paciente no asoció la aparición de la misma a ningún evento traumático. A nivel general el paciente presentaba Hipertensión, sin antecedentes heredofamiliares de relevancia ni hábitos como consumo de tabaco y alcohol. En la inspección clínica se observó un aumento de tamaño, de color ligeramente violáceo, fluctuante, ubicado en la semimucosa del labio superior, paramedial hacia el lado derecho del

paciente; evidenciándose una lesión nodular única de consistencia firme. La misma era asintomática a la palpación y móvil, deslizándose por debajo de los planos superficiales del labio.

Se procedió a tomar una radiografía periapical digital del labio, observando una lesión sólida de radiopacidad variable pero marcada, forma ligeramente arriñonada, con una pequeña protuberancia de menor radiopacidad adherida a su polo medial. La imagen fue compatible con un sialolito y el diagnóstico clínico presuntivo fue de una SGSM.

El perfil bioquímico del paciente no arrojó datos relevantes, por lo que se procedió, bajo anestesia local, a la biopsia escisional de la lesión. Se realizó una incisión lineal sobre la masa nodular, divulsión roma, aflorando hacia el exterior una masa solida de color amarillento, que fue extirpada junto a una cápsula de tejido conectivo. Se realizó síntesis cruenta de la lesión y el paciente evolucionó favorablemente.

El estudio histopatológico de hematoxilina – eosina demostró la presencia de una lesión calcificada constituida por múltiples capas concéntricas de variable grosor y un área de acinos glandulares con infiltración periductal. El paciente tuvo un excelente postoperatorio sin complicaciones ni recurrencia de la lesión. La Figura 2 muestra los aspectos clínicos, radiográficos, macroscópicos e histomorfológicos de la lesión descrita.

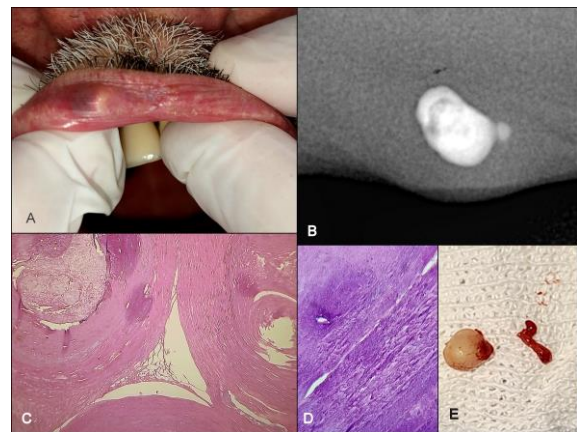


Figura 2 Caso 2. A. Lesión nodular en labio superior ubicada paramedial hacia el lado derecho del paciente. B. Radiografía Periapical Digital, lesión radiopaca con forma arriñonada sumada a una pequeña protuberancia adherida a su polo medial. C. Microfotografía histológica. H/E 10X Se observan capas concéntricas de tejido calcificado, rodeado de acinos glandulares e inflamación periductal. D. Microfotografía histológica H/E 40X y zoom digital. Mayor aumento de las áreas calcificadas en el núcleo central del

sialolito. **E:** Pieza quirúrgica. Se observa el lito y un tejido fibroso que lo rodeaba, y estaba adherido parcialmente a él (cápsula fibrosa).

Discusión

Las sialolitiasis son más frecuentes en glándulas salivales mayores, siendo la glándula submaxilar la más afectada⁶⁻⁸. Algunos de los factores que afectan esta frecuencia de sialolitiasis de glándulas submaxilar en relación a la glándula parótida y la glándula sublingual son condicionantes anatómicos y fisiológicos. En primer lugar, la saliva submaxilar o submandibular es rica en proteínas y más viscosa que la saliva parotídea. En segundo lugar, la dirección del conducto submandibular o de Wharton facilita la acumulación de sales cálcicas y depósitos de minerales salivales que promueven la formación de litos. Este conducto se dirige de abajo hacia arriba, desde la parte posterior del piso de la boca y su curso y disposición es largo y sinuoso⁷. Aunque existe vasta literatura en relación a la patología en cuestión, los fenómenos de formación de sialolitos y en consecuencia su fisiopatogenia no es clara. Las SGSM son más infrecuentes y no hay descripción hasta el momento si los fenómenos de formación de litos salivales difieren en cuanto al involucramiento de una glándula salival mayor o menor.

A pesar de que la etiología precisa de la formación de los sialolitos es desconocida, ha sido hipotetizado un modelo etiológico bifásico. En la primera fase se induce una ectasia salival y contracción espasmódica de los ductos debido a factores irritantes (como cambios químicos en la saliva, acumulación de saliva, cuerpos extraños, infección bacteriana), inflamación, y la formación de microlitos en la glándula salival, así como acidosis salival e hipoptialismo. Durante la segunda fase, se produce el depósito de sales cálcicas llevando a la formación del cálculo. Todo esto se ve condicionado por procesos regresivos de las glándulas salivales y atrofia acinar; características de cambios glandulares en pacientes adultos⁹. Un artículo reciente, propone que las sialolitiasis, en general se producirían por un triple mecanismo que actuaría sinérgicamente, donde se destaca el rol de la microbiota, el biofilm y la dinámica salival en la formación arquitectural de la mineralización sialolítica que ocurre además, en forma cíclica. Estos autores proponen a la

infección por *Actynomices* como un fenómeno que podría asociarse con la etiopatogenia de las sialolitiasis¹⁰.

En cuanto a la histomorfología, se acepta que los sialolitos se formarían de un núcleo central inorgánico, el cual va creciendo a merced de la aposición de capas de sustancias orgánicas e inorgánicas, aunque esto va variando según el caso, por lo tanto, no es un fenómeno constante. Es interesante encontrar en la descripción de casos, que los sialolitos pueden estar constituidos por una masa homogénea de un material mineral, diferente a la estructura laminar exhibida en la mayoría de los casos¹¹. La mayoría de los estudios que abordan el examen macro y microscópico, así como también los aspectos arquitectónicos y conformacionales de los sialolitos, están basados en litos extraídos de glándulas salivales mayores. En nuestros casos, el aspecto laminar y la disposición de capas concéntricas calcificadas en SGSM es similar al descrito en la literatura, y por lo tanto se podría inferir que los fenómenos fisiopatogénicos de SGSM no difieren de los descritos en glándulas salivales mayores.

Riesco et al, demostró mediante estudios más complejos, la composición morfológica, química y analítica de SGSM en un paciente de 43 años. Mediante visualización microscópica estereoscópica, no se encontró ningún núcleo o láminas concéntricas en el lito. El mismo, presentaba una apariencia transparente como vidrio esmerilado. No se evidenció infección con microorganismos y además, se revelaron características estructurales diferenciales entre la región interna y externa (mediante microscopía electrónica de barrido). La difracción de rayos X indicó la ausencia de cristales inorgánicos, mientras que el microanálisis de rayos X de energía dispersiva reveló un alto contenido de azufre, calcio, silicio y sodio, con escaso fósforo. Estos autores concluyeron que podría tratarse de un cálculo salival joven con una cubierta incipiente en proceso de calcificación¹².

En una serie de 17 casos de SGSM, se evidenció que es una entidad que se presenta en pacientes añosos, con predilección del género masculino, como en nuestros casos¹³. En este último estudio, la localización más frecuente fue mucosa yugal (7; 41%) seguido por la localización en labio superior (5; 29%). Los otros sitios fueron mucosa labial inferior y área retromolar. Los autores destacan que solo un caso de los 17 tuvo como diagnóstico clínico presuntivo SGSM. En nuestros casos, previo a la realización de biopsia,

la SGSM, ayudado por el diagnóstico por imagen digital, fue la hipótesis clínica diagnóstica más fuerte. Existen otras entidades estomatológicas que pueden manifestarse como nódulos en zonas de glándulas salivales labiales, y de mayor frecuencia en labio superior como el adenoma canalicular¹⁴. La literatura indica que también existen tumores malignos de glándula salivales menores frecuentes en el labio superior como lo es el tumor mucoepidermoide y el adenocarcinoma de células basales^{15,16}. A nivel general, el diagnóstico diferencial de los litos salivales puede realizarse con nodos linfáticos calcificados (sobre todo de glándulas submaxilares), flebolitos, fibromas, adenomas pleomorfos, mixomas, malformaciones vasculares, sialoadenitis inespecíficas, etc^{13,17,18}. Particularmente, en nuestros casos, también se hizo diagnóstico diferencial con una miasis migrans interna, debido a la semejanza clínica con un peculiar hallazgo publicado anteriormente¹⁹.

Finalmente, debido al amplio abanico de enfermedades de la mucosa bucal, incluyendo las de origen neoplásico, es fundamental la indicación de biopsia y su posterior estudio anatómopatológico, para llegar al diagnóstico definitivo de las masas tumorales de labio superior. Si bien el diagnóstico de certeza se lo realiza en base a la histopatología, la presencia de un nódulo firme recubierto por una mucosa sana o levemente inflamada, móvil y autónomo de los planos profundos a la palpación y de larga evolución orientaría a presumir una SGSM. El diagnóstico por imágenes a partir de una simple radiografía periapical, también es un soporte importante para establecer un diagnóstico definitivo y encaminar al paciente hacia el tratamiento definitivo.

Conclusión

La formación de cálculos salivales en glándulas salivales menores es un fenómeno raro, poco descrito en la literatura, que puede llegar a presentarse en la consulta estomatológica. El examen clínico minucioso de una lesión nodular firme de larga data sumado a la evidencia de una masa radiopaca mediante un estudio radiográfico puede orientar al diagnóstico definitivo. Sin embargo, la biopsia escisional con anestesia local y el posterior estudio histopatológico es de rigor debido a que, existen tumores benignos y

malignos de glándulas salivales que se presentan con una clínica similar.

Conflicto de intereses/Conflict of interest

Todos los autores declaran que no existen conflictos potenciales de interés con respecto a la autoría y / o publicación de este artículo.

All authors declare no potential conflicts of interest with respect to the authorship and/or publication of this article.

Referencias

1. Pullon, P. A. & Miller, A. S. Sialolithiasis of accessory salivary glands: review of 55 cases. *J Oral Surg* 30, 832–834 (1972).
2. van der Waal, I. Sialolithiasis of minor salivary glands: how rare? Report of two cases. *J Oral Surg* 29, 815–816 (1971).
3. Matiakis, A. & Tzermpos, F. Sialolithiasis of minor salivary gland: a challenging diagnostic dilemma. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 47, 145–148 (2021).
4. Ben Lagha, N., Alantar, A., Samson, J., Chapireau, D. & Maman, L. Lithiasis of minor salivary glands: current data. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 100, 345–348 (2005).
5. Alcure, M. L., Della Coletta, R., Graner, E., Di Hipolito, O. & Lopes, M. A. Sialolithiasis of minor salivary glands: a clinical and histopathological study. *Gen Dent* 53, 278–281 (2005).
6. Stanley, M. W., Bardales, R. H., Beneke, J., Korourian, S. & Stern, S. J. Sialolithiasis. Differential diagnostic problems in fine-needle aspiration cytology. *Am J Clin Pathol* 106, 229–233 (1996).
7. Takeda, Y., Oikawa, Y., Satoh, M. & Nakamura, S. Sialolith of the submandibular gland with bone formation. *Pathol Int* 53, 309–312 (2003).
8. Seifert, G., Miehike, A., Haubrich, J., Chilla, R. & Stuttgart, G. Diseases of the Salivary Glands, Pathology – Diagnosis – Treatment. (1986).
9. Anneroth, G. & Hansen, L. S. Minor salivary gland calculi. A clinical and histopathological study of 49 cases. *Int J Oral Surg* 12, 80–89 (1983).
10. Pinheiro, T. N. et al. Giant sialolith associated with Actinomyces infection, suggesting a new etiopathogenic correlation: a case report. *Gen Dent* 69, 29–33 (2021).
11. Anneroth, G., Eneroth, C. M. & Isacson, G. Morphology of salivary calculi. The distribution of the inorganic component. *J Oral Pathol* 4, 257–265 (1975).
12. Riesco, J. M. et al. Crystalloid architecture of a sialolith in a minor salivary gland. *Journal of Oral Pathology & Medicine* 28, 451–455 (1999).

13. Wang, W.-C. et al. Sialolithiasis of minor salivary glands: A review of 17 cases. *J Dent Sci* 11, 152–155 (2016).
14. Pettas, E. et al. Canalicular adenoma with unicystic morphology. A rare entity. *J Clin Exp Dent* 13, e88–e94 (2021).
15. Touati, M. M. & Lakouichmi, M. About a rare tumor of the upper lip: the mucoepidermoid carcinoma. *Pan Afr Med J* 22, 39 (2015).
16. Prakash, A. J., Christina, S. S., Lakshmi, M. V. & Polishetty, N. Basal cell adenocarcinoma of the minor salivary gland - A rare case report involving the upper lip. *J Cancer Res Ther* 18, 765–769 (2022).
17. Lee, L.-T. & Wong, Y. K. D. Pathogenesis and diverse histologic findings of sialolithiasis in minor salivary glands. *J Oral Maxillofac Surg* 68, 465–470 (2010).
18. Abe, A., Kurita, K., Hayashi, H. & Minagawa, M. A case of minor salivary gland sialolithiasis of the upper lip. *Oral Maxillofac Surg* 23, 91–94 (2019).
19. Panico, R., Panico, I., Leonardi, N., Garola, F. & Gilligan, G. An unexpected finding in a labial swelling. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 133, 259–263 (2022).



Publisher's Note: This article is an open access article distributed under the terms and conditions of the Creative Commons Attribution(CC BY) license (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>)