

# Cálculo gigante de la glándula submandibular de 20 años de evolución: reporte de caso

Alejandro Aulis González\*

## Resumen

*La sialolitiasis es una enfermedad común de las glándulas salivales, pero el desarrollo de cálculos gigantes (mayores de 15 mm) se considera raro. Se reporta el caso de un cálculo gigante de la glándula submandibular izquierda en un paciente de 53 años de edad, que inició con una infección glandular. Se encontró un lito en el conducto de Wharton. Se trató la infección (sialoadenitis obstructiva) y se hizo una litotomía transoral, que arrojó buenos resultados.*

## Abstract

*Sialolitiasis is a common disease of the salivary glands, but the development of a giant calculus (> 15 mm) is considered rare. It is reported the case of a giant stone of the left submandibular salivary gland in a 53 year-old male patient. He began with a gland infection (obstructive sialadenitis); a stone was found in the Warthon duct. The infection was treated and it was performed a transoral sialolithotomy with good results. There are only 22 cases reported in the literature since 1942.*

### Palabras clave:

cálculo gigante, sialolitiasis submandibular

### Key words:

giant calculus, submandibular sialolitiasis.

## Introducción

El crecimiento de los cálculos depende principalmente de la reacción del conducto obstruido. El primer signo de la aparición de un cálculo es la inflamación, seguida por el dolor y por la infección de la glándula, la cual requiere tratamiento médico. Si el conducto adyacente a la glándula es distensible y existe una secreción normal de ésta, el cálculo puede aumentar considerablemente de tamaño.<sup>1,2</sup>

La sialolitiasis afecta sobre todo a la glándula submandibular (80 a 95%), menos a la parótida (5 a 20%) y a la sublingual, y raramente a las salivales menores (1 a 2%). Puede ocurrir a cualquier edad, en especial entre la tercera y la sexta décadas de la vida, aunque es poco común en los niños.<sup>1-3</sup> Es la principal causa de inflamación difusa unilateral de las glándulas parótida y

submaxilar, así como de infecciones agudas y crónicas.<sup>2,4</sup>

El rango de tamaño de los litos es de 2 mm a 2 cm, con una media de 3.2 y 4.9 mm para la glándula parótida y la submandibular, respectivamente. Se estima que el porcentaje de crecimiento anual de las piedras es de 1 mm.<sup>4</sup>

Se desconoce la patogénesis exacta de la sialolitiasis, aunque se han propuesto varias hipótesis. La primera teoría se basa en la existencia de microcálculos intracelulares que se excretan en el canal, formando nidos para futuras calcificaciones. La segunda teoría sugiere que se crean tapones mucosos en el sistema ductal y que éste es un nido de inicio orgánico que progresivamente crece por los depósitos de capas inorgánicas y sustancias orgánicas. Otra posible hipótesis es que los alimentos, sustancias o bacterias existentes en la cavidad oral

migran en los conductos salivales y se anidan para formar las calcificaciones posteriores.<sup>5,6</sup>

Se ha observado que la sialolitiasis es concomitante con el hiperparatiroidismo secundario a insuficiencia renal crónica, pero no con el primario. La formación de piedras salivales es instigada por la combinación de los efectos de la hipercalcemia y la estimulación secretora, la cual se manifiesta con un exceso de calcio fosfatado y con las variaciones del pH salival, que ocasionan que se precipite.<sup>7</sup>

El sialolito está compuesto de sustancias orgánicas e inorgánicas en porcentajes variables. Las sustancias orgánicas son glicoproteínas, mucopolisacáridos y detritus celulares, y las inorgánicas son principalmente carbonato, iones y fosfato de calcio, y magnesio, que se encuentran en 20 a 25% de la masa.<sup>6</sup>

\* Médico adscrito al servicio de otorrinolaringología, Hospital General de Zona número 76, IMSS.

Correspondencia: Dr. Alejandro Aulis González. Catamarca 1102, colonia San Pedro Zacatenco, México, DF, CP 07360. Tel: 5586-3839, 5586-7950. E-mail: aaulis@hotmail.com

Se sospecha la existencia de este padecimiento cuando hay inflamaciones glandulares recurrentes, en especial durante las comidas, y procesos inflamatorios difusos de la glándula salival. Los estudios radiológicos permiten valorar el estado de la glándula y la existencia y número de litos salivales, así como su ubicación exacta en el conducto; esto posibilita formular un plan quirúrgico adecuado.

Todos los cálculos gigantes son radioopacos, en contraste con los pequeños, que son radiolúcidos en 20 a 30%. La placa simple oclusal es muy efectiva para detectar piedras ductales; sin embargo, es posible que no se aprecien las piedras intraglandulares pequeñas.

Con la tomografía computada se puede definir la relación del cálculo con la glándula submaxilar, al observar una imagen redondeada con densidad ósea independiente del hueso mandibular.

La ultrasonografía es un método no invasor ampliamente usado, con sensibilidad de 81% y especificidad de 94% en la detección de sialolitiasis, aunque depende de la habilidad del operador y el cirujano tiene que apoyarse en la exploración del paciente.<sup>2,4</sup>

El viejo estándar de oro es la sialografía, la cual proporciona una imagen clara de la piedra y de la estructura morfológica del conducto; su desventaja es que es un procedimiento doloroso que puede perforar el conducto y producir infección y choque anafiláctico.

Existen nuevos métodos diagnósticos, como la resonancia magnética con sialografía, que no es invasora y es de corta duración, si bien se requieren 45 minutos para la reconstrucción. No tiene las desventajas de la sialografía tradicional, pero su costo y disponibilidad no la hacen un método viable.

Otro estudio es la sialoendoscopia diagnóstica, con la que se puede hacer una buena exploración del sistema ductal en los ramos primarios, secundarios y hasta terciarios, detectando posibles

afecciones en los mismos y reduciendo la necesidad de investigación radiológica, por lo que puede ser intervencionista con resolución del problema. La desventaja es que se requiere adquirir tecnología endoscópica, además de adiestrar al personal en su manejo.

Los lineamientos del tratamiento clásico de la sialolitiasis son la combinación de antibióticos y agentes antiinflamatorios, y esperar que la piedra salga espontáneamente a través de la papila.<sup>4</sup>

Casi 90% de las piedras submandibulares están situadas en la porción distal del conducto de Wharton o en el hilum, y se tratan con una marsupialización (sialodocoplastia) y remoción.<sup>2,4</sup>

Hace aproximadamente 10 ó 15 años se introdujeron nuevas técnicas de invasión mínima en el tratamiento de la sialolitiasis. La litotripsi extracorpórea o la intracanalicular fueron muy populares, pero requerían varias sesiones. Las piedras eran excretadas espontáneamente y los detritus eran nidos para la formación de futuras piedras.<sup>4,8</sup> Se realizaron diversos estudios con grandes series de pacientes, tanto niños como adultos en riesgo, en los que se ensayó este método con buenos resultados, aunque no se ha extendido su uso debido a que se requiere poseer equipo especializado y personal capacitado.<sup>8-10</sup>

Un procedimiento mínimamente invasor para remover los cálculos es la utilización de canastas de Dormia y Segura, apoyándose con catéteres de balón; pero los riesgos pueden ser perforación del conducto y sangrado; además de que con él sólo se pueden extraer piedras de tamaño determinado.<sup>11</sup>

La sialoendoscopia es un nuevo método eficaz e inocuo para diagnosticar, remover y manejar posoperatoriamente la sialolitiasis y la sialadenitis. Es un procedimiento intervencionista cuyos resultados dependen directamente del tamaño de las piedras y del equipo utilizado. Hasta la fecha se han desarrollado cinco generaciones de endoscopios.<sup>4</sup>

Puede hacerse con anestesia local y causa pocas complicaciones, además de que previene cirugías mayores.

## Reporte de caso

Un hombre de 53 años de edad refirió haber sentido dolor en la región submandibular durante 20 años. También comentó que padecía sialorrea intermitente (cada uno o dos años) que desaparecía de manera espontánea. Un año antes del diagnóstico, notó aumento indoloro en la región sublingual izquierda y lento y gradual incremento de volumen en la región submaxilar, que le provocó disfagia, odinofagia, voz en papa caliente, malestar general y fiebre. A la exploración física se observó neoformación en la región sublingual izquierda de 2 x 1.5 cm, de bordes lisos, consistencia dura, dolorosa a la palpación, y aumento de volumen en la región submaxilar. El examen otorrinolaringológico no mostró anomalías.

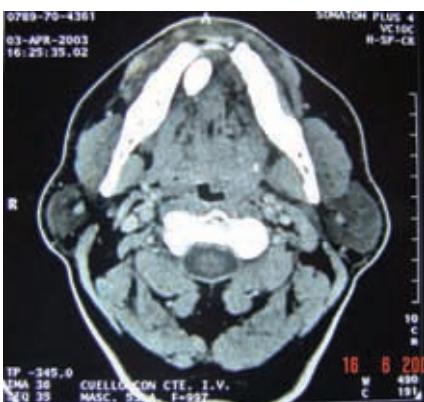
Se le tomó una placa simple de rayos X, anteroposterior y lateral del cráneo, en donde se apreció un lito submaxilar (figura 1).



**Figura 1.** Radiografía lateral del cráneo; obsérvese un lito gigante radioopaco (ver flecha).

El tratamiento elegido fue un doble esquema de antibióticos, el cual eliminó la infección. Mediante una tomografía simple se determinó la posición de la piedra, que se encontraba en la porción anterior del conducto de Wharton (figura 2).

Se programó una sialolitotomía transoral bajo anestesia local. Se localizó la papila del conducto de Wharton y se hizo



**Figura 2.** Corte axial de una tomografía computada del piso de la boca; nótese la posición del lito con respecto a los músculos geniogloso y milohioideo.

una incisión sobre el conducto, a 3 mm de la misma, que se amplió hasta lograr extraer el lito. Posteriormente, se suturó con vicril cuatro ceros. A los 10 y a los 30 días el paciente mantenía función glandular adecuada y se daba masajes glandulares y sialogogos. Después de 16 meses continúa asintomático.

La piedra que se extrajo era ovalada, de 2.1 cm x 1.3 cm (figura 3). El examen preoperatorio se realizó mediante radiografía lateral y tomografía computada.



**Figura 3.** Pieza extraída mediante abordaje transoral (sialotomía).

## Discusión

La formación de los cálculos salivales se da en dos fases: la del núcleo y la de una capa periférica. El núcleo se crea por la precipitación de sales con ciertas sustancias orgánicas. La siguiente fase consiste en el depósito de capas de material orgá-

nico e inorgánico, junto con otros factores, como el cambio de pH, la reducción de la secreción de saliva o el incremento en las concentraciones de calcio.

En la actualidad existen tres teorías sobre la fisiopatogénesis de la sialolitiasis: la de los microcálculos, la de nidos de moco y la teoría retrógrada.<sup>5</sup>

No hay que olvidar que en el hiperparatiroidismo también se forman sialolitos, aunque en menor frecuencia que las piedras urinarias. Esto se explica porque algunos iones en la saliva y la orina, como el citrato, inhiben el crecimiento en la precipitación de los cristales; y otros, como el calcio y el fosfato, lo aceleran: el equilibrio entre estas moléculas favorece la formación de las piedras urinarias, lo que no ocurre en la saliva.<sup>7</sup>

Bodner hizo una excelente revisión de 14 autores que reportaron litos gigantes desde 1942, y agregó los seis casos que observó.<sup>1</sup> Leung comunicó el caso de un lito gigante acompañado de varios pequeños y refirió dos más.<sup>12</sup> Yildirim, en el año 2004, mencionó otro caso.<sup>13</sup>

En el manejo de la sialolitiasis submaxilar se debe valorar la ubicación dentro del conducto de Wharton, por lo que es necesario que primero se tomen placas simples de cráneo en proyección anteroposterior y lateral, así como una oclusal y, de ser posible, una panorámica. La ultrasonografía permite delimitar con precisión su ubicación y definir si es piedra única, aunque debe ser guiada por la exploración clínica del cirujano. La tomografía ayuda a determinar el estado de la glándula, así como el tamaño y la localización de la piedra.<sup>1,3,4,6</sup>

En el tratamiento, es esencial restaurar la función secretora de la glándula,<sup>1</sup> pero en caso de que haya sialolitos intraglandulares será necesario efectuar una sialoadenectomía.<sup>1,2,4</sup>

En el abordaje transoral, la técnica recomendada es incidir en el conducto a partir del ostium, con lo que se provee al cirujano de un límite y una guía para evitar lesiones al nervio lingual.<sup>2</sup>

El diámetro principal del conducto de Stenon oscila en un rango de 1.4 mm y 0.5 mm, y el del conducto de Wharton entre 1.5 mm y 0.5 mm, por lo que el tamaño máximo de los fragmentos para la litotripcia no debe exceder a 1.2 mm.<sup>12</sup> Éste es uno de los motivos por los que con la litotripcia puede haber recidiva en la formación de cálculos.<sup>12,14</sup>

Nahlieli reportó su experiencia de seis años en el uso de la sialoendoscopia para el diagnóstico, la extracción y el manejo posoperatorio de la sialolitiasis, la sialoadenitis y otras enfermedades obstructivas de la glándula, con la que obtuvo efectividad de 83%;<sup>15</sup> mencionó, sin embargo, que cuando las piedras son grandes se necesita fragmentarlas con el auxilio de un método externo, como la litotripcia, o uno interno, como el láser.<sup>4</sup>

El abordaje ante la sospecha de un lito glandular es iniciar el estudio con una radiografía oclusal y una panorámica, seguida por una sialografía que permita valorar el estado de la glándula, y un ultrasonido para localizar la piedra y definir el manejo quirúrgico, de acuerdo con la experiencia del cirujano. En el caso que aquí se reportó se utilizó la técnica transoral.

El tiempo que transcurrió desde el inicio de los síntomas hasta el diagnóstico de lito gigante fue de aproximadamente 20 años, lo que concuerda con el tamaño de la piedra y el crecimiento estimado por año.

## Referencias

1. Bodner L. Giant salivary gland calculi: diagnostic imagining and surgical management. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;94(3):320-3.
2. Zenk J, Constantinidis J, Al-Kadah B, Iro H. Transoral removal of submandibular stones. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2001;127:432-6.
3. Nahlieli O, Eliav E, Hasson O, Zagury A, Baruchin A. Pediatric sialolithiasis. *Oral Surg Oral Med*

- Oral Pathol Oral Radiol Endod 2000;90(6):709-12.
4. Marchal F, Dulguerov P. Sialolithiasis management: the state of the art. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 2003;129:951-6.
  5. Harrison JD, Epivatianos A, Bhatia SN. Role of microliths in the aetiology of chronic submandibular sialoadenitis: a clinicopathological investigation of 154 cases. Histopathology 1997;31(3):237-51.
  6. Marchal F, Kurt AM, Dulguerov P, Lehman W. Retrograde theory in sialolithiasis formation. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 2001;127:66-68.
  7. Paterson JR, Murphy MJ. Bones, grouns, moans... and salivary stones? J Clin Pathol 2001;54(5):412.
  8. Ottaviani F, Capaccio P, Campi M, Ottaviani A. Extracorporeal electromagnetic shock wave lithotripsy for salivary gland stones. Laryngoscope 1996;106(6):761-4.
  9. Escudier MP, Drage NA. The management of sialolithiasis in two children through use of extracorporeal shock wave lithotripsy; Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1999;88(1):44-49.
  10. Capaccio P, Monforte A, D'Arminio Moroni M, Ottaviani F. Salivary stone lithotripsy in the HIV patient. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2002;93(5):525-7.
  11. Kim RH, Strimling AM, Grosch T, et al. Nonoperative removal of sialoliths an sialodochoplasty of salivary duct strictures. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 1996;122(9):525-7.
  12. Leung AKC, Matthew CK, Wagner G. 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.
  13. Yildirim A. A case of giant sialolith of the submandibular salivary. Ear Nose Throat J 2004;83(5):360.
  14. Zenk J, Hosemann W, Iro H. Diameters of the main excretory ducts of the adult human submandibular and parotid gland: A histologic study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1998;85(5):576-80.
  15. Nahlieli O, Baruchin AM. Long-term experience with endoscopic diagnosis and treatment of salivary gland inflammatory diseases. Laryngoscope 2000;110(6):988-93.