

PRESENTACIÓN DE CASO

Sialadenitis submandibular supurativa aguda neonatal

Acute neonatal suppurative submandibular sialadenitis

Dra. Bárbara Acosta Batista, Dr. Félix Rodolfo Pérez Córdova, Dr. Manuel Díaz Álvarez

Hospital Pediátrico Universitario "Juan Manuel Márquez". La Habana, Cuba.

RESUMEN

En la literatura cubana no existen reportes de pacientes neonatales con sialadenitis submandibular supurativa aguda. Con el objetivo de presentar y describir las características clínicas de un recién nacido con sialadenitis submandibular supurativa aguda, se expone el caso de un neonato con diagnóstico de sialadenitis submandibular supurativa aguda, quien ingresó en el servicio de Neonatología del Hospital Pediátrico Universitario "Juan Manuel Márquez", y es el único que se ha presentado en 22 años (desde 1992 hasta 2013) en esta institución, con esa entidad. La sialadenitis submandibular supurativa aguda neonatal es de presentación rara, no es común en el recién nacido a término como nuestro caso, se distingue fácilmente por los signos inflamatorios focales, además de secreción purulenta en la boca a través del conducto de Wharton, y es el *Staphylococcus aureus* el microorganismo causal habitual de esta infección.

Palabras clave: sialadenitis submandibular supurativa, recién nacido, *Staphylococcus aureus*, infecciones neonatales.

ABSTRACT

There is not a single report in the Cuban scientific literature on neonates with acute suppurative submandibular sialadenitis. With the objective of presenting and describing the clinical characteristics of a newborn with this disease, this report presented the case of a newborn diagnosed with acute suppurative submandibular sialadenitis, which was admitted to the neonatology service of "Juan Manuel Marquez" university pediatric hospital and is the only one seen at this institution in

22 years (1992 through 2013). Acute neonatal suppurative submandibular sialadenitis is rare in term newborn as it occurred here; it can be easily recognized by focal inflammatory signs in addition to purulent secretion in the mouth through Wharton's duct. *Staphylococcus aureus* is the regular causative agent of this infection.

Keywords: suppurative submandibular sialadenitis, newborn, *Staphylococcus aureus*, neonatal infections.

INTRODUCCIÓN

La infección bacteriana de las glándulas salivales en el período neonatal es poco frecuente y resulta principalmente afectada la glándula parótida, que puede ser unilateral o bilateral, y a veces complicada con afectación de la glándula submandibular; sin embargo, la infección exclusiva de la glándula submandibular es poco común, por lo que la sialadenitis submandibular supurativa aguda neonatal, no coincidente con parotiditis, se considera una entidad de rara presentación.^{1,2} Se asocia comúnmente con prematuridad y con alimentación por sonda naso-gástrica u oro-gástrica.³⁻⁹

En la literatura cubana no existen reportes de pacientes neonatales con sialadenitis submandibular supurativa aguda. En nuestro servicio de Neonatología del Hospital Pediátrico Universitario "Juan Manuel Márquez", solo se ha atendido un recién nacido (RN) con esta entidad, por lo que este es el primer caso con el diagnóstico de sialadenitis submandibular supurativa aguda, no solo en la literatura cubana, sino también en la bibliografía de Latinoamérica revisada.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente femenina, con antecedentes perinatales de ser hijo de madre con diabetes gestacional, pero sin historia de manifestaciones de infección perinatal. Nace de un parto eutóxico, a las 39 semanas, Apgar 9-9, peso al nacer de 3 750 g, y alimentación al pecho materno. Sin otro evento remarcable, es traída a los 12 días de edad por su madre al Cuerpo de Guardia con fiebre de 38 °C, de pocas horas de evolución y rechazo al pecho. Al ingreso pesaba 3 875 g. Se mantuvo desde su ingreso con fiebre persistente de hasta 38,5 °C e irritabilidad, y se le detectó a las pocas horas sialorrea purulenta y algo sanguinolenta, con aumento de volumen de la región submentoniana, más acentuada hacia el lado derecho, con eritema de la piel de esa zona, y edema periférico que abarcaba la cara de ese lado (Fig. 1). Al examen de la boca se constatan muy enrojecidos los bordes del orificio de desembocadura de la glándula submandibular del lado afectado, que se extendía a todo el suelo de la boca y salida de pus por ese orificio del conducto de Wharton, lo cual era distinguible a simple vista y sin evidencia de secreciones purulentas en otras áreas de la boca (Fig. 2).

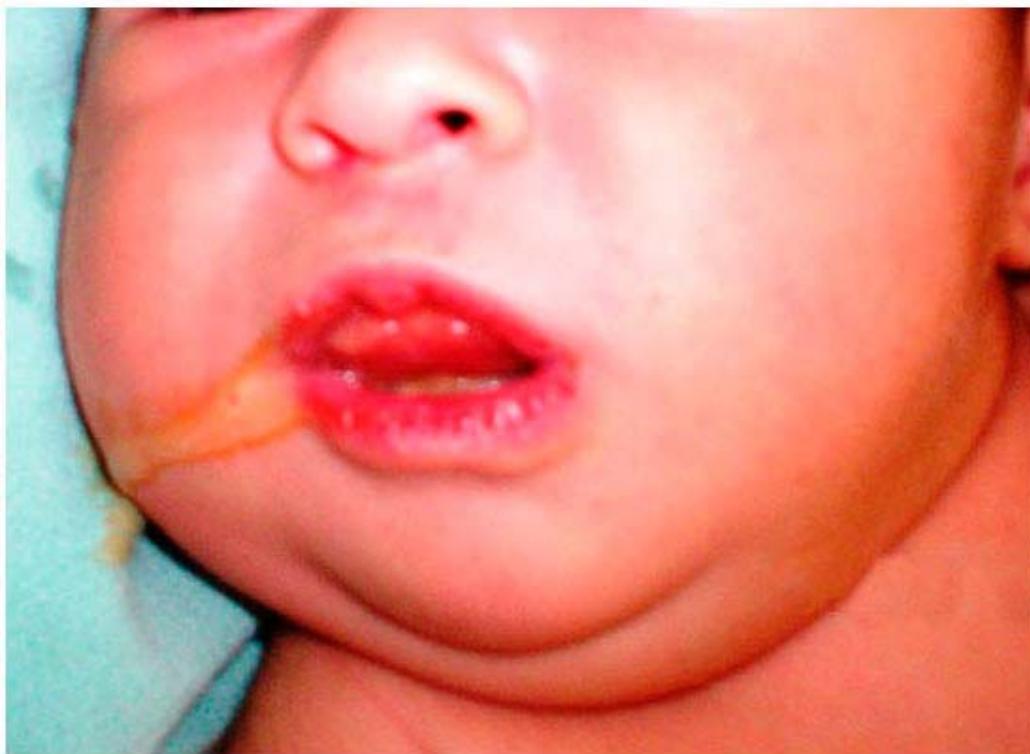


Fig. 1. Sialorrhea purulenta y algo sanguinolenta, con aumento de volumen de la región submentoniana, más acentuada hacia el lado derecho, con eritema de la piel de esa zona, y edema periférico que abarcaba la cara de ese lado.

En exámenes complementarios se encuentra leucocitos sanguíneos $15,3 \times 10^9/L$ (polimorfonucleares 80 %), velocidad de sedimentación globular 22 mm/h, proteína C reactiva cualitativa negativa, examen citoquímico del líquido cefalorraquídeo y cituria negativos. Se impone tratamiento empírico inicial con penicilina, gentamicina y vancomicina. Se obtiene en cultivo de secreción purulenta de la glándula submandibular: *Staphylococcus aureus* y *Klebsiella pneumoniae*, por lo que se suspende penicilina. La evolución fue satisfactoria, y se decide el alta al 8vo. día de estadía totalmente recuperada, con el diagnóstico de sialadenitis submandibular supurativa aguda.



Fig. 2. Enrojecimiento de los bordes del orificio de desembocadura del conducto de Wharton de la glándula submandibular del lado afectado, con extensión a todo el suelo de la boca, y salida de pus por dicho orificio al presionar la glándula submandibular.

DISCUSIÓN

Al revisar la literatura, en la que se presentan casos esporádicos, o series de casos con sialadenitis neonatal, se puede reconocer que la afectación de la glándula parótida es más común que la glándula submandibular, aunque a veces esta última puede ser una complicación de la primera; así *White*¹⁰ citaba la publicación con la mayor casuística de sialadenitis en RNs y lactantes pequeños realizada por *Plewka* en 1921, en la cual, de 51 casos de sialadenitis, 41 fueron infección de la glándula parótida, para una razón parotiditis/otras sialadenitis de 4:1.

En presencia de otras lesiones, entre ellas las anomalías congénitas, puede que se incremente la incidencia de presentación de sialadenitis, principalmente facilitado por el mecanismo de obstrucción al flujo de saliva. Todavía en la actualidad esta razón se mantiene, si nos atenemos a los reportes de una y otra infección, aunque por supuesto, con esporádica presentación para ambas, por lo infrecuente que ocurre.

Algunos autores que han hecho reportes de esta entidad, reconocen que el primero en describir la sialadenitis submandibular supurativa aguda neonatal fue *Wells*, en 1975,^{1,2,11} aunque *Shulman*, en 1950, describió un neonato con esta infección de la glándula submandibular derecha, sin afectación de las glándulas parótidas.¹² Otros, recientemente, sí dan el crédito de ser el primero a *Shulman*.^{6,13}

El paciente que se presenta es el único que hemos tenido con el diagnóstico de sialadenitis submandibular supurativa aguda, sin afectación concomitante de la glándula parótida, en el transcurso de 22 años de trabajo en el servicio de Neonatología del Hospital Pediátrico Universitario "Juan Manuel Márquez". En el período de estudio (años 1992 a 2013) se realizaron 10 131 ingresos, lo cual representa que aproximadamente por cada 10 000 pacientes que ingresan por distintos motivos, 1 es un neonato con sialadenitis submandibular supurativa aguda. Esto denota la rareza de esta entidad, como también han afirmado otros autores.^{3,4,11}

Aunque las glándulas salivares parótidas y las submandibulares desembocan por sus conductos respectivos en la boca, mientras que las glándulas sublinguales yacen en un plano submucoso en la parte inferior del piso de la boca y se abren a través de numerosos conductos (de Rivicus) hacia la cavidad bucal detrás del orificio del conducto de Wharton, se señala, que desde el punto de vista patogénico, la calidad de las secreciones de estas difieren, y así en las glándulas parótidas los acinos son primariamente serosos, mientras que en las submandibulares y sublinguales hay acinos serosos y mucinosos.⁹ Las secreciones mucinosas producen contienen mayor cantidad de IgA y otras enzimas protectoras, que tienden a proteger estas glándulas submandibulares de la infección, en contraste con las glándulas parótidas, y puede ser la razón para que estas últimas sean más comúnmente afectadas.⁹

Como aspecto llamativo de nuestro paciente es que se trata de un RN a término, sin factores de riesgo aparentes de los que han sido señalados en la literatura revisada, tales como, prematuridad, deshidratación, alimentación por sonda naso-gástrica u oro-gástrica, y anomalías del suelo de la boca.^{3,5-9} La prematuridad es una condición inequívoca de mayor probabilidad de infección en el período neonatal, incluso hasta para los primeros meses de vida, de lo cual no escapa esta localización;⁷ pero influye esta condición también en la necesidad frecuente de acudir a la alimentación por sonda naso-gástrica u oro-gástrica de los neonatos prematuros. La alimentación por sonda, a largo plazo, puede disminuir la secreción de saliva, al eludir la estimulación de los alimentos en la cavidad orofaríngea, y provocar un enlentecimiento u obstrucción ductal funcional al aclaramiento de saliva, y por estasis, se facilita la colonización bacteriana y subsecuente infección de la glándula.^{7,14}

La deshidratación, de manera similar, puede disminuir la secreción de saliva, por espesamiento y enlentecimiento del flujo de saliva por el conducto de Wharton, y posibilitar, igualmente, lo anteriormente planteado.¹⁴ Otros reportes también exponen casos de RN a término con sialadenitis submandibular supurativa aguda neonatal,^{15,16} pero la mayoría de las publicaciones aluden predominantemente a pacientes prematuros.^{5,6,8,13,17-19} Nuestro paciente no exhibió signos de deshidratación, se alimentaba normalmente y no se observaron anomalías del suelo de la boca, que son factores ya mencionados que facilitan la ocurrencia de infección, pero que no necesariamente siempre están presentes, tal como se presentó en este caso.

El diagnóstico de sialadenitis submandibular supurativa aguda pudo establecerse con prontitud en este RN, pues exhibía las manifestaciones clínicas características

de esta entidad, quiere decir, signos inflamatorios localizados a la región submandibular, lo cual puede extenderse algo más del área circunscrita de la localización glandular, a lo que se suma el edema periférico al proceso infeccioso, como se presentó en este paciente; junto con la evidencia de secreción purulenta por el orificio de desembocadura del conducto de Wharton en la base de la lengua, como el signo patognomónico de esta infección. La afectación es habitualmente unilateral. Este drenaje de material purulento se hace más ostensible al ejercer presión o masaje externo sobre la glándula.⁷ Otras manifestaciones generales pueden estar presentes como la irritabilidad, el dolor, el malestar, el rechazo al alimento, la fiebre,¹⁵⁻²⁰ hasta poder manifestarse en un RN con estado tóxico-infeccioso, según pueda acompañarse de una infección generalizada.

En adición a la clínica se señala por algunos autores la realización de estudios de radioimagen,^{1,6,7,15,19-21} como la ultrasonografía de la glándula, lo cual ayuda a confirmar el diagnóstico clínico; además, permite discernir la inflamación de la glándula de una celulitis focal, adenitis, y también identificar la formación de abscesos. Por otro lado, se menciona la tomografía computarizada, pero no consideramos deba indicarse de manera habitual, aunque ofrece también confirmación del diagnóstico clínico y para establecer diagnóstico diferencial con otras afecciones. El caso presentado no necesitó de exámenes de radioimagen, y fue suficiente la clínica para el diagnóstico.

El aislamiento de un microorganismo bacteriano del material purulento que drena por el conducto de Wharton, confirma el diagnóstico de sialadenitis submandibular supurativa aguda. Con muy pocas excepciones en la literatura,^{2,13,22} el microorganismo causal preponderante es *Staphylococcus aureus*. No hay una explicación clara de por qué este microorganismo sea el agente causal casi universal, si *S. aureus* no es flora habitual de la boca en el RN, pues por lo general está constituida por *Streptococcus*, lactobacilos y anaerobios,²³ por lo que puede ser comprensible que la introducción de biberones o mala higiene de las mamas en la alimentación del neonato, la utilización de dispositivos oro y naso-gástricos, intubación endotraqueal, etc., puedan transportar este microorganismo a la cavidad oral del RN.

Con la utilización de una apropiada antibioticoterapia, el curso clínico debe ser a la resolución completa en alrededor de 5 a 7 días sin secuelas. Esta debe orientarse al espectro de microorganismos causales, principalmente a *S. aureus*, aunque algunos autores sugieren, de inicio, tomar cobertura también para bacterias gramnegativas, basados en algunos casos con aislamiento de estos microorganismos.^{2,6,15} Algunos pacientes pueden hacer absceso y requerir de cirugía con incisión para drenarlo.^{1,5,21} La compresión externa de la glándula para facilitar drenaje de pus, además de orientarnos en el diagnóstico, puede ayudar a la más rápida resolución de la infección, pero se advierte que debe hacerse con manipulación suave para prevenir diseminación hematogena de la infección.^{6,11,24}

Concluimos que la sialadenitis submandibular supurativa aguda neonatal es de presentación rara, más frecuente en el RN prematuro y con factores de riesgo relacionados con las características y atención de estos pacientes, pero también puede presentarse en el RN a término, sin otros factores de riesgo conocidos, como en nuestro caso. Se distingue fácilmente por la clínica, fundamentalmente por los signos inflamatorios focales con secreción de pus por el orificio de desembocadura del conducto de Wharton, y es *S. aureus* el microorganismo causal habitual de esta infección.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Bafaqeeh SA. Complicated neonatal submandibular suppurative sialadenitis. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 1998;44:267-71.
2. Ungkanont K, Kolatat T, Tantinikorn W. Neonatal suppurative submandibular sialadenitis: a rare clinical entity. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 1998;43:141-5.
3. Wells DH. Suppuration of the submandibular salivary gland in the neonate. *Amer J Dis Child.* 1975;129:628-30.
4. Takahashi R, Chikaoka S, Ito T, Yamada M, Matsutani S, Nakae S. Neonatal submandibular suppurative sialadenitis. *Eur J Pediatr.* 2000;159(11):868.
5. Davis TK, Pinheiro JM, Lepow M, Dangman B, Mouzakes J. Submandibular Sialadenitis and Lymphadenitis in Neonates: Epidemiology and Relation of Secular Trends in the Incidence of *Staphylococcus aureus* Sepsis. *Webmed Central PAEDIATRICS [serie en Internet].* 2011 [citado 23 de septiembre de 2014];2(4). Disponible en: http://www.webmedcentral.com/article_view/1873
6. Tapisiz A, Belet N, Çiftçi E, Fitöz S, İnce E, Doğru Ü. Neonatal suppurative submandibular sialadenitis. *Turk J Pediatr.* 2009;51:180-2.
7. Garavello W, Romagnoli M, Somigliana E, Zorloni C, Sordo L, Gaini RM. The intriguing association between prematurity and neonatal isolated submandibular suppurative sialadenitis. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2002;62:41-4.
8. Tho L, Rao S, Shipman P, Vijayasekaran S, Strunk T. Suppurative submandibular mass in a preterm infant (letter). *Pediatr Infect Dis J.* 2013;32(5):578-9.
9. Francis CL, Larsen CG. Pediatric sialadenitis. *Otolaryngol Clin N Amer.* 2014;47:763-78.
10. White RHR. Acute suppurative parotitis in the newborn. *BMJ.* 1952;1(4770):1232.
11. Banks WW, Handler SD, Glade GB, Turner HD. Neonatal submandibular sialadenitis. *Am J Otolaryngol.* 1980;1(3):261-3.
12. Shulman BH. Acute suppurative infections of the salivary glands in the newborn. *Am J Dis Child.* 1950;80:413-6.
13. Pereira E, Lapa P, Basto L, Afonso E. Isolated suppurative submandibular sialadenitis in a preterm neonate. *BMJ Case Report [serie en Internet].* 14 Apr 2014-20 Apr 2014 [citado 25 de septiembre de 2014]. Disponible en: <http://casereports.bmj.com/content/2014/bcr-2013-202783.full.pdf>
14. Lindgren C, Balihodzic-Lucovic V. Aseptic sialadenitis in preterm infants associated with long-term oro-gastric tub feeding. *Eur J Pediatr.* 1998;157:1014-6.
15. Weibel L, Goetschel P, Meier R, Radivojevic V, Berger C. Neonatal suppurative submandibular sialadenitis. *Pediatr Infect Dis Child.* 2005;24(4):379-81.

16. Mukhopadhyay C, Vandana KE, Munim F, Lewis LE. Suppurative sialadenitis in a neonate by methicillin-resistant *Staphylococcus aureus*: Do we need search and kill superbug strategy? (Letter). Indian J Med Microbiol. 2012;30:113.
17. Singh SA, Singhal N. Suppurative submandibular sialadenitis in a preterm infant. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2004;68:593-5.
18. Edwards MS. Submandibular mass in a premature infant. Sem Pediatr Infect Dis. 2003;14(2):182-3.
19. de Haan TR, Grooters E, Frijns JHM, Walther FJ. Unilateral submandibular suppurative sialadenitis in a premature infant. Acta Pediatr. 2003;92:1491-3.
20. Salaria M, Poddar B, Chawla K, Singh D. Suppurative submandibular sialadenitis in a neonate. Indian Pediatr. 2001;8:87-9.
21. Bova R, Walker P. Neonatal submandibular sialadenitis progressing to submandibular abscess. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2000;53(9):73-5.
22. Brook I. Suppurative sialadenitis associated with anaerobic bacteria in newborns (letter). Pediatr Infect Dis J. 2006;25(3):1.
23. Patil S, Rao RS, Amrutha N, Sanketh DS. Oral microbial flora in health. World J Dent. 2013;4(4):262-6.
24. Pathak M, Yadav L, Bansal LK. Suppurative submandibular sialadenitis in a term neonate: Is there any alternative to incision and drainage? (Abstract). Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2013;77(12):2008.

Recibido: 3 de noviembre de 2014.

Aprobado: 2 de febrero de 2015.

Bárbara Acosta Batista. Hospital Pediátrico Universitario "Juan Manuel Márquez".
Ave. 31 y 76, municipio Marianao. La Habana, Cuba.
Correo electrónico: mfdiaz@infomed.sld.cu