

UNIVERSIDADE DE PASSO FUNDO
Faculdade de Odontologia
Disciplina de Trabalho de Conclusão de Curso (TCC)

Sialoadenite esclerosante crônica - relato de caso e revisão de literatura

Relatório Final

Apresentado à Faculdade de Odontologia da Universidade de Passo Fundo, como requisito da disciplina de Trabalho de Conclusão de Curso e para graduação no curso de Odontologia da Universidade de Passo Fundo.

Nome: Anna Carolina Ceolin Milani

Orientador: Prof. Dr. Mateus Ericson Flores

Co-orientador: Prof. Dr. João Paulo De Carli

Colaborador: Prof. Dr. Ferdinando de Conto

Passo Fundo, Setembro de 2021

Sumário

1. TÍTULO.....	3
2. EQUIPE EXECUTORA.....	3
2.1. Aluno.....	3
2.2. Orientador	3
2.3. Co-orientador	3
2.4. Colaborador.....	3
3. RESUMO.....	3
4. PROBLEMA DE PESQUISA.....	4
5. JUSTIFICATIVA	4
6. REVISÃO DE LITERATURA.....	5
6.1. Sialoadenite Esclerosante Crônica	5
6.2. Diagnósticos diferenciais.....	7
6.3. Tratamento	8
7. OBJETIVOS.....	9
7.1. Objetivos gerais.....	9
7.2. Objetivos específicos	9
8. RELATO DE CASO	9
9. DISCUSSÃO.....	13
10. CONCLUSÃO	14
11. REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS.....	15
12. AVALIAÇÃO DO DESEMPENHO DO ALUNO	17
13. ANEXOS.....	18

RELATÓRIO FINAL

1. TÍTULO

Sialoadenite esclerosante crônica - relato de caso e revisão de literatura.

2. EQUIPE EXECUTORA

2.1. Aluno

Nome: Anna Carolina Ceolin Milani

Matrícula: 167357

2.2. Orientador

Nome: Prof. Dr. Mateus Ericson Flores

Matrícula: 3034

2.3. Co-orientador

Nome: Prof. Dr. João Paulo De Carli

Matrícula: 6456

2.4. Colaborador

Nome: Prof. Dr. Ferdinando de Conto

Matrícula: 5011

3. RESUMO

A sialoadenite esclerosante crônica, também conhecida como tumor de Kuttner, representa uma inflamação crônica fibrosante incomum em glândulas salivares. Acomete uma ampla faixa etária desde a segunda até oitava década de vida, sem predileção por sexo e predominantemente unilateral em glândulas submandibulares. Caracterizado como uma patologia pouco conhecida, que clinicamente pode se assemelhar a uma neoplasia verdadeira, embora facilmente resolvida com a excisão cirúrgica da lesão, causa transtornos importantes ao paciente, como dor intensa, disfonia e disfagia. Os aspectos clínicos são aumento de volume difuso, de consistência endurecida, assintomático, na região glandular, podendo gerar episódios de supuração. O presente estudo abordou Kuttner, assim como as formas de diagnóstico, diagnósticos diferenciais, tratamento e

prognóstico. Além disso, foi relatado o caso clínico de um paciente tratado por meio de remoção cirúrgica do tumor e preservação da atividade da glândula salivar. O objetivo deste trabalho foi estudar a sialoadenite esclerosante crônica em sua integralidade, buscando expor ao cirurgião-dentista os melhores métodos de diagnóstico e tratamento para tal lesão.

Palavras-chave: Doenças da glândula submandibular, sialoadenite, saliva.

4. PROBLEMA DE PESQUISA

Diariamente na prática clínica odontológica, cirurgiões-dentistas do mundo inteiro deparam-se com lesões que necessitam ser reconhecidas e tratadas. Sendo fundamental estabelecer um diagnóstico diferencial, uma vez que aspectos clínicos, histopatológicos ou radiográficos de diversas lesões são semelhantes.

Em virtude das semelhanças com uma neoplasia verdadeira e o pequeno número de relatos, o tumor de Kuttner tornou-se uma patologia pouco conhecida pelos cirurgiões-dentistas, o que dificulta principalmente no diagnóstico e plano de tratamento (Huang *et al.*, 2002).

Diante disso, com finalidade de aumentar a visibilidade de tal patologia que necessita estabelecimento de diagnóstico preciso, bem como do tratamento imediato e adequado, compatíveis com uma entidade benigna, foram abordadas formas de diagnóstico, tratamento e acompanhamento, dando ênfase ao tratamento conservador, preservando a glândula salivar.

5. JUSTIFICATIVA

A sialoadenite esclerosante crônica, trata-se de uma entidade clínico patológica, consistindo de uma lesão inflamatória incomum, que se assemelha a outras lesões, como por exemplo, neoplasias verdadeiras. Apesar de tratar-se de uma lesão benigna, pode comprometer funções de fala, mastigação (Lindenblatt *et al.*, 2007).

Na maioria dos relatos existentes na literatura, mostram que a semelhança com outras lesões, bem como a subnotificação da patologia, dificulta o diagnóstico clínico, resultando em um tratamento menos conservador por meio de exérese da glândula salivar acometida, para fins de diagnóstico histopatológico (Huang *et al.*, 2002; Poghosyan *et al.*, 2019).

Autores como Lindenblat *et al.* (2007) e Beriat *et al.* (2010) explicam que em suas análises histopatológicas existe preservação da estrutura glandular e uniformidade celular, sem nenhuma evidência de malignidade. Além disso, não existem relatos de recorrência nos casos acompanhados. Portanto, a manutenção da glândula salivar pode ser considerada observando a possibilidade de retomada da função da mesma.

6. REVISÃO DE LITERATURA

6.1 Sialoadenite Esclerosante Crônica

O tumor de Kuttner, também denominado Sialoadenite Esclerosante Crônica, representa um processo fibroinflamatório crônico, que acomete glândulas salivares maiores, quase exclusivamente a glândula submandibular. Os aspectos clínicos são aumento de volume difuso, de consistência endurecida, assintomático ou relativamente doloroso, na região glandular, sendo assim, reconhecida como lesão semelhante a um tumor de glândulas salivares pela Organização Mundial de Saúde (Beriat *et al.*, 2010; Pandarakalam *et al.*, 2013).

Segundo Adachi *et al.* (2004), a duração dos sintomas antes da procura por tratamento é variável, de um mês a cerca de três décadas, e as características clínicas como o endurecimento e o aumento de volume frequentemente induzem os médicos a uma hipótese diagnóstica equivocada de neoplasia de glândula salivar. No entanto, o Tumor de Kuttner é uma lesão inflamatória totalmente benigna, e até o momento, não houve relatos de malignidade, e que em geral são tratados apenas com remoção cirúrgica, não necessitando de tratamento adicional.

Ferreira *et al.* (2015), também afirmam que embora denominado " tumor ", não se trata de uma neoplasia, mas sim, um processo benigno que confunde e perturba clinicamente os profissionais pela extensão e consistência da tumefação. Porém facilmente distinguível após exame de citologia aspirativa ou mesmo após ressecção da glândula salivar afetada, como recomendado na literatura, e posterior análise histológica, por não possuir características de malignidade.

A existência de uma divergência quanto a idade média de apresentação de tal patologia é justificada pela ampla faixa etária em que ela se apresenta, desde 28 anos como relata Beriat *et al.* (2010), até os 81 anos de idade como relata Ahuja *et al.* (2003). Porém, é de comum acordo entre os autores o gênero dos pacientes acometidos, sendo maior a prevalência no sexo masculino, com incidência quase exclusiva unilateral.

Já Lindenblatt *et al.* (2007), afirmam que não existe predileção por gênero, logo homens e mulheres são acometidos na mesma proporção, com predominância unilateral e em diversos graus de envolvimento glandular. Enquanto Harrison *et al.* (1997), constataram em sua investigação de 154 casos, a predominância de acometimento no gênero feminino e concluindo que grande parte dos casos apresentaram mínima alteração glandular, levantando a possibilidade de um tratamento conservador.

A glândula submandibular é o tecido salivar mais frequentemente afetado e removido cirurgicamente devido a Sialoadenite. Sua etiologia abrange as mais diversas esferas, desde infecções, até mesmo causas não infecciosas como redução do fluxo salivar pelo uso de medicação diurética ou anti-hipertensiva. Porém a sialolitíase ainda é a maior causadora de sialoadenite, com prevalência estimada de 1,2% da população geral (Araújo *et al.*, 2020).

A teoria apresentada por Sadeghi *et al.* (2010), é de que qualquer coisa que faça com que o fluxo salivar seja obstruído ou resulte em estase de secreções pode levar ao inchaço das células acinares, dilatação ductal, retenção de secreções salivares e fibrose e posterior necrose, que resultam em edema e infiltração de células inflamatórias que são características do tumor de Kuttner. Embora os sialólitos estejam presentes em grande parte dos casos de sialoadenite esclerosante crônica a etiologia ainda é desconhecida.

Consuegra *et al.* (2007), apresentaram a hipótese etiológica, considerando um desequilíbrio secretor que produz hiperdensidade salivar, ou seja, espessamento da saliva causando assim a obstrução dos ductos salivares, com resposta inflamatória secundária do parênquima com fibrose e atrofia. Clinicamente, isso se traduz em uma diminuição da produção de saliva e maior propensão para infecções. Estabelecendo assim um círculo vicioso, no qual aumento da obstrução dos ductos, aumento da inflamação com consequente deposição de infiltrado linfoplasmocítico e fibrose.

Os sialólitos ou calcificações formadas no interior de ductos e/ou glândulas salivares estão presentes em 70% à 80% dos casos de sialodenite esclerosante crônica, segundo Pandarakalam *et al.* (2013), porém não é compreendido se o mesmo trata-se da causa ou resultado do processo inflamatório que leva ao quadro clínico-patológico, embora de evolução relativamente lenta e gradual, mas que pode levar a um quadro de dor exacerbado, principalmente durante as refeições quando acontece a estimulação salivar.

Blanco *et al.* (2003), avaliaram algumas etiologias prováveis, mas evidenciaram a sialolitíase como principal causadora, por sua característica de obstrução ductal, que

induz a inflamação do tecido circundante e conseqüentemente produz atrofia acinar. Histologicamente, vários graus de atrofia, fibrose e inflamação crônica são vistos, mas o que diferencia tais patologias são o infiltrado linfoplasmocítico e o revestimento fibroso dos ductos, típicos do tumor de Kuttner que não estão presentes no processo de sialolitíase.

Dentre as causas não infecciosas, ingestão reduzida de líquidos, desidratação de qualquer origem, tabagismo, doenças prolongadas, diuréticos e medicamentos anti-hipertensivos são fatores de risco para diminuição do fluxo salivar ou até sua estase, contribuindo para estenose ductal ou sialolitíase, que permitem e frequentemente evoluem para uma contaminação bacteriana por via retrógrada no longo e tortuoso ducto ascendente da glândula submandibular, também conhecido como ducto de Wharton (Araújo *et al.*, 2020).

Putra *et al.* (2016) avaliaram a correlação da Sialoadenite com nível sérico elevado de IgG4, tendo em vista que esta condição, onde a imunoglobulina apresentasse elevada, ocorre estimulação da proliferação de fibroblastos promovendo fibrose. Mecanismo esse presente em outras patologias que podem ser relacionadas e utilizadas para auxiliar no diagnóstico do tumor de Kuttner, entre elas, pancreatite autoimune e fibrose retroperitoneal

Em seu estudo, Beriat *et al.* (2010), caracterizaram histologicamente a Sialoadenite por esclerose periductal, atrofia acinar, fibrose densa e infiltração linfocítica. Já Seifert e Donath (1977), separaram em quatro estágios de progressão conforme avaliação histopatológica, iniciando por inflamação crônica focal, após infiltração linfocítica difusa e fibrose periductal severa, então atrofia parenquimatosa com hialinização e esclerose periductal, chegando no último estágio que ocorre destruição da arquitetura lobular.

6.2 Diagnósticos diferenciais

A falta de informações e a subnotificação de casos sobre a Sialoadenite esclerosante crônica podem levar a erros no diagnóstico e resultar no pouco conhecimento desta doença, dificultando a distinção de outras patologias que se assemelham clinicamente em algumas características, como por exemplo Doença de Kimura, Linfoma de Malt, Síndrome de Sjögren, Pseudotumor inflamatorio envolvendo glândulas salivares, adenoma pleomórfico, tumor de Warthin, carcinoma mucoepidermóide, entre outras (Chow *et al.*, 2008).

Como forma de diferenciação para o tumor de Kuttner de demais patologias, Kaba *et al.* (2006), descreveram alguns critérios úteis para definição de um diagnóstico, como por exemplo, pacientes de meia idade, com endurecimento e edema submandibular, com ausência de histórico de síndrome de Sjögren, realização de citologia aspirativa por agulha fina da glândula acometida, análise dos esfregaços observando a presença de estruturas ductais e pequenos linfócitos sem atipias com presença de fibrose.

Poghosyan *et al.* (2019) apresentaram um novo método diagnóstico, diferenciando do tradicional exame histopatológico que é amplamente defendido na literatura como principal método de diagnóstico, que é o exame de congelação intraoperatório que pode ser uma ferramenta útil para diagnóstico em tempo transcirúrgico, que previne disseções excessivamente grandes, preservando estruturas não afetadas, que por vezes seriam removidas pela suspeita de malignidade.

6.3 Tratamento

Os tratamentos propostos e estudados acerca desta patologia, estabelecidos na literatura, são basicamente a excisão cirúrgica da glândula salivar afetada. No entanto, discutindo a técnica de tratamento utilizada, Araújo *et al.* (2020) levantaram a questão das desvantagens de um acesso extra oral, referente ao processo de cicatrização e cicatriz remanescente na região da incisão da pele, que muitas vezes pode ser minimizada por incisões relaxantes paralelas ou em linhas de tensão relaxadas da pele.

Outra questão levantada por Alves *et al.* (2014), é o tratamento conservador, evitando o acesso transcervical e até mesmo a excisão completa da glândula salivar, por meio de litotripsia extracorpórea por ondas de choque, visando a fragmentação das pedras e eliminação espontânea apenas com estimulação da glândula. Não alcançando o sucesso por meio da abordagem conservadora, é recomendado a remoção cirúrgica da calcificação e da glândula acometida por acesso intraoral.

Já Kiverniti *et al.* (2008) , explicaram que embora o prognóstico seja bom e favorável por tratar-se de uma patologia benigna, sem históricos de recidiva, não há evidências suficientes para apoiar qualquer meio de diagnóstico que podem ajudar no diagnóstico diferencial desta condição, que não o exame histológico da glândula, não podendo descartar um carcinoma de glândula salivar previamente à análise histológica, defendendo assim o tratamento radical de excisão da glândula salivar e demais estruturas relacionadas.

Como alguns autores consideram que o tumor de Kuttner é uma patologia inflamatória relacionada a imunoglobulina G4, Seki *et al.* (2012) afirmam que os corticosteroides são eficazes para seu tratamento, embora o uso de tais medicamentos causem alguns efeitos colaterais. Mesmo assim o autor ainda afirma que a excisão cirúrgica da glândula salivar acometida resulta em uma melhora no quadro clínico geral, inclusive reduzindo os níveis séricos de IgG4.

7. OBJETIVOS

7.1. Objetivos gerais

Analisar uma abordagem cirúrgica conservadora, preservando a glândula acometida pela sialoadenite esclerosante crônica.

7.2. Objetivos específicos

Esse estudo tem por objetivos específicos testar as hipóteses de que:

1. A preservação da glândula é eficaz e resulta na retomada de função, permitindo que a glândula siga secretando saliva.
2. A abordagem cirúrgica conservadora não resulta em recidiva da sialoadenite esclerosante crônica.

8. RELATO DE CASO

Paciente ASA II, leucoderma, 53 anos de idade, do gênero masculino, procurou atendimento odontológico em setembro de 2020 queixando-se de dor e inflamação na região submandibular. O paciente alegou possuir pressão alta e histórico de arritmia cardíaca, medicado com Atenolol 25mg e Naprix 10mg + 5mg.

O paciente relatou que há 3 anos teve um episódio de edema na região submandibular, onde na oportunidade foram removidos sialólitos de pequeno diâmetro, desobstruindo o ducto e melhorando o quadro clínico. Em março de 2020, um novo episódio de edema e supuração ocorreram, desde então o paciente fez acompanhamento com o cirurgião-dentista, fazendo uso de antibiótico.

Ao exame clínico, constatou-se presença de nódulo endurecido móvel na região submandibular esquerda, bem posterior no soalho lingual. Apresentando supuração na realização da ordenha da glândula submandibular. No exame radiográfico panorâmico (fig. 1) e na radiografia oclusal parcial (fig. 2), identificou-se uma massa radiopaca na

região submandibular esquerda, sugestiva de uma calcificação da glândula submandibular.



Figura 1 - radiografia panorâmica mostrando uma imagem radiopaca, com alguns pontos radiolúcidos, na região submandibular esquerda.



Figura 2 - radiografia oclusal parcial evidenciando massa radiopaca na região submandibular esquerda próximo ao elemento 37.

Após solicitação de exames complementares de tomografia computadorizada, exames de rotina para realização de cirurgia sob anestesia geral como eletrocardiograma, raios X de tórax em 3 incidências, hemograma completo, coagulograma, ureia, creatinina,

glicemia em jejum, TGO e TGP, bem como avaliação e liberação médica mediante níveis normais aceitáveis dos referidos exames.

No dia 30 de novembro de 2020, foi realizado o procedimento cirúrgico conservador de remoção da calcificação intraglandular por acesso intraoral, ultrapassando estruturas anatômicas até a remoção da massa de aproximadamente 17 mm de diâmetro (fig. 3) com preservação da glândula submandibular.



Figura 3 - corte coronal de tomografia computadorizada evidenciando massa hiperdensa na região submandibular esquerda, com aproximadamente 17 mm de diâmetro.

O fragmento retirado (fig. 4) de contornos irregulares, medindo 1,4x1x0,5mm, de coloração pardo-claro, foi encaminhado para exame anatomopatológico a fim de obter confirmação da hipótese diagnóstica previamente estabelecida, tendo como resultado os achados morfológicos diagnosticando sialolito podendo observar-se laminações concêntricas de material calcificado.



Figura 4 - Fragmento removido através de procedimento cirúrgico sob anestesia geral, em ambiente hospitalar, por acesso intraoral, com preservação do parênquima glandular.

No acompanhamento de 6 meses de remoção do sialolito, o paciente não refere queixas álgicas ou xerostomia, bem como nenhum outro sintoma relacionado a sialoadenite. No teste de função com reação a substância ácida, observamos formação e excreção salivar das glândulas submandibulares (fig. 5). Porém, nos exames de imagem detectamos presença de resíduos ou novas formações de calcificações fragmentadas (fig. 6).

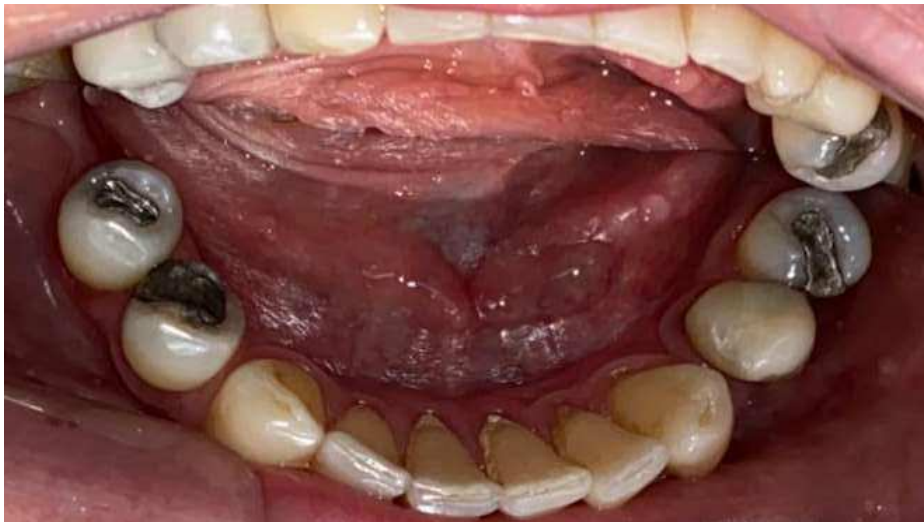


Figura 5 - Fotografia intraoral oclusal evidenciando a formação e excreção de saliva na saída do Ducto de Wharton, durante o teste de função.



Figura 6 - Radiografia oclusal parcial evidenciando calcificações radiopacas no interior do parênquima glandular.

O paciente do caso clínico em questão autorizou a publicação do mesmo por meio da assinatura de um Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE) (Anexo 1), assim, sendo submetido e aprovado pelo comitê de ética em pesquisa (Anexo 2).

9. DISCUSSÃO

O Tumor de Kuttner, conhecido como sialoadenite esclerosante crônica, é uma doença fibroinflamatória, uma patologia das glândulas salivares caracterizada pela presença de estruturas mineralizadas no interior do parênquima glandular, ocasionando a obstrução parcial ou total do fluxo salivar, segundo Alves *et al.* (2014). No caso relatado a formação calcificada se deu no interior do parênquima ocasionando obstrução total do fluxo salivar acompanhado de intenso desconforto.

De acordo com Araújo *et al.* (2020), a glândula submandibular é o tecido salivar mais frequentemente afetado e removido devido a este processo. De acordo com dados de sexo e idade, o sexo masculino, com idade entre 40 e 60 anos, apresentou a maior incidência. Características essas que condizem com o caso descrito, onde o paciente do sexo masculino possui 53 anos de idade.

Características como aumento de volume difuso na região submandibular, de consistência endurecida, assintomático ou doloroso, podendo ocorrer episódios de

supuração, são descritos por Ahuja *et al.* (2003), como principais aspectos clínicos em pacientes assolados pelo Tumor de Kuttner. Assim como no caso apresentado, onde o paciente relata episódios de supuração e dor intensa principalmente à palpação, onde percebemos aumento de volume difuso e endurecido.

Existem diversos métodos diagnósticos descritos na literatura por Pandarakalam *et al.* (2013) e Alves *et al.* (2014), por exemplo, para tal patologia, em geral exame clínico e radiográficos são recomendados. Dentre as técnicas radiográficas aplicadas para detecção de cálculos salivares são a radiografia oclusal, a panorâmica tal como as usadas no caso relatado, e a lateral oblíqua da mandíbula. Recursos como a tomografia computadorizada e a ultrassonografia também têm sido utilizados. São exames complementares que podem ser utilizados em casos de dificuldade de diagnóstico pelas técnicas radiográficas de rotina, a cintilografia e a ressonância magnética.

Embora amplamente preconizado na literatura como melhor tratamento, a ressecção de glândula afetada possui limitações estéticas e funcionais, como paralisia temporária do nervo facial marginal e cicatriz remanescente proveniente de um acesso extra oral, como descrito por Araújo *et al.* (2020) e Chow *et al.* (2008). Entretanto é uma discussão crescente na literatura uma conduta conservadora e manutenção da glândula, visto que, além de possibilitar um acesso intraoral, não existem relatos de malignidade associada a tal patologia e a taxa de recidiva é baixa, logo o caso descrito optou por uma abordagem conservadora com acompanhamento posterior (Adachi *et al.*, 2004; Beriat *et al.*, 2010).

10. CONCLUSÃO

A revisão de literatura realizada neste trabalho permite concluir que o Tumor de Kuttner, também conhecido como sialoadenite esclerosante crônica, é um distúrbio fibro inflamatório crônico de glândulas salivares caracterizada por aumento de volume difuso, de consistência endurecida, assintomático ou relativamente doloroso, que acometem principalmente a glândula submandibular, unilateralmente, em homens de meia idade. Sua etiologia é desconhecida, embora a sialolitiase esteja presente na grande maioria dos casos e também exista evidente ligação dos níveis séricos elevados para IgG4.

O método de diagnóstico começa sempre por uma boa anamnese e exame clínico, bem como o auxílio fundamental dos exames complementares de sangue e imagem. Porém devido às semelhanças com uma neoplasia, a sialoadenite esclerosante crônica,

necessita de profissionais habilitados conhecedores de tal patologia e também se torna indispensável o exame histopatológico.

O tratamento mais indicado e defendido pela literatura ainda é a ressecção cirúrgica completa da glândula salivar acometida pela sialoadenite, no entanto, existem limitações funcionais e estéticas acerca dessa técnica. Por esses motivos, o tratamento conservador vem sendo estudado nos últimos anos, a fim de preservar tecidos importantes para recuperar o bem estar dos pacientes que sofreram com tal patologia, mas reforça-se a importância de um vasto conhecimento e um longo acompanhamento pós-operatório.

O caso apresentado condiz com as características clínicas apresentadas, como o gênero, idade, aumento de volume difuso na região submandibular, consistência endurecida, assintomático ou doloroso. Além disso, a função glandular foi restabelecida, e apesar de ter havido recidiva dos sialólitos no parênquima da glândula acometida, não observamos alteração na sua funcionalidade.

11. REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

ADACHI, M.; FUJITA, Y.; MURATA, T.; MAJIMA, Y. A case of Kuttner tumor of the submandibular gland. *Auris Nasus Larynx*, v. 31, n. 3, p. 309-312, 2004.

AHUJA, A. T.; RICHARDS, P. S.; WONG, K. T.; KING, A. D.; YUEN, H. Y.; CHING, A. S. C.; TO, E. W. H.; TO, K. F. Kutter tumour (chronic sclerosing sialadenitis) of the submandibular gland : sonographic appearances. *Ultrasound in Med. & Biol.*, v. 29, n. 7, p. 913–919, 2003.

ALVES, N. S.; SOARES, G. G.; AZEVEDO, R. S.; CAMISASCA, D. R. Sialólito de grandes dimensões no ducto da glândula submandibular. *Rev. Assoc. Paul. Cir. Dent.*, v.68, n.1, 2014

ARAÚJO, R. V.; MILANI, B. A.; MARTINS, I. S.; DIAS, E. M. V.; BERNAOLA-PAREDES, W. E. An Extraoral Surgical Approach to Treat Chronic Submandibular Sialolithiasis - A Case Series. *Annals of Maxillofacial Surgery*, v.10, n. 2, p. 537-542, 2020.

BERIAT, G. K.; AKMANSU, S. H.; KOCATURK, S.; ATAUGLU, O. Chronic Sclerosing Sialadenitis (Küttner's tumour) of the Parotid Gland. *Malaysian J Med Sci*, v. 17, n. 4, p. 57-61, 2010.

BLANCO, M.; MESKO, T.; CURA, M.; CABELLO-INCHAUSTI, B. Chronic Sclerosing Sialadenitis (Kuttner's Tumor): Unusual Presentation With Bilateral Involvement of Major and Minor Salivary Glands. *Annals of Diagnostic Pathology*, v. 7, n. 1, p. 25-30, 2003.

CLOW, T. L.; TONY, T. F.; CHAN, C. Y.; LAM, S. H. Kuttner's tumour (chronic sclerosing sialadenitis) of the submandibular gland: a clinical perspective. *Hong Kong Med J*, v. 14, n. 1, p. 46-49, 2008.

CONSUEGRA, N. M.; HEREDIA, J. B.; CISNEROS, R. S.; ROCHA, M. L. M.; ORTIZ-HIDALGOA, C. Tumor de Küttner (sialoadenitis crónica esclerosante). Estudio clinicopatológico e inmunohistoquímico de 8 casos de una entidad poco reconocida. *Acta Otorrinolaringol Esp.*, v. 58, n. 1, p. 25-30, 2007.

FERREIRA, S.; SOUZA, F. A.; FAVERANI, L. P.; BOMFIM, B. B.; JUNIOR, I. R.G. Kuttner Tumor. *The Journal of Craniofacial Surgery*, v. 26, n. 3, p. 979-980, 2015.

HARRISON, J. D.; EPIVATIANOS, A.; BHATIA, S. N. Role of microliths in the etiology of chronic submandibular sialadenitis: a clinicopathological investigation of 154 cases. *Histopathology*, v. 31, p. 237-51, 1997.

HUANG, C.; DAMROSE, E.; BHUTA, S.; ABEMAYOR, E. Kuttner Tumor (Chronic Sclerosing Sialadenitis). *American Journal of Otolaryngology*, v. 23, n. 6, p. 394-397, 2002.

KABA, S.; KOJIMA, M.; MATSUDA, H.; SUGIHARA, S.; MASAWA, N.; KOBAYASHI, T. K.; FUKUDA, T. Kuttner's Tumor of the Submandibular Glands: Report of Five Cases With Fine-Needle Aspiration Cytology. *Diagnostic Cytopathology*, v. 34, n. 9, p. 631-635, 2006.

KIVERNITI, E.; SINGH, A.; CLARKE, P. Küttner's tumour: an unusual cause of salivary gland enlargement. *Hippokratia quarterly medical journal*, v. 12, n. 1, p. 56-58, 2008.

LINDENBLATT, R. C.; SANTOS, J. B.; ALVES, D. R.; LOURENÇO, S. Q. C.; DIAS, E. P. Chronic sclerosing sialadenitis (Kuttner tumour): clinical case report. *J Bras Patol Med Lab*, v. 43, n. 5, p. 381-384, 2007.

PANDARAKALAM, C.; GOEBEL, W. M.; SEYER, B. Chronic sclerosing sialadenitis or Küttner's tumor associated with a giant sialolith: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*, v. 115, n. 4, p. 38-40, 2013.

POGHOSYAN, A.; MISAKYAN, M.; SARGSYAN, A.; KHACHATRYAN, P.; HAKOBYAN, G. Chronic sclerosing sialadenitis (Küttner's tumor) of the submandibular salivary gland: Our experience of one case report. *Clinical Case Reports*, v. 7, p. 1600-1604, 2019.

PUTRA, J.; ORNSTEIN, D. L. Kuttner Tumor: IgG4-Related Disease of the Submandibular Gland. *Head and Neck Pathol*, v. 10, p. 530-532, 2016.

SADEGHI, M.; BAKHSHAEE, M.; EMAMI, H.; FARZADNIA, M. Bilateral Kuttner Tumor of Submandibular Glands: A Case Report. *Iranian Journal of Otorhinolaryngology*, v. 22, n. 61, p. 155-158, 2010.

SEIFERT, G.; DONATH, K. On the pathogenesis of the Küttner tumor of the submandibular gland - Analysis of 349 cases with chronic sialadenitis of the submandibular. *HNO*, v. 25, n. 3, p. 81-92, 1977

SEKI, N.; YAMAZAKI, N.; KONDO, A.; NOMURA, K.; HIM, T. Spontaneous regression of lung lesions after excision of the submandibular gland in a patient with chronic sclerosing sialadenitis. *Auris Nasus Larynx*, v. 39, p. 212-215, 2012.

12. AVALIAÇÃO DO DESEMPENHO DO ALUNO

NOTA: 9,0 (nove virgula zero).



Prof. Dr. Mateus Ericson Flores - Orientador

13. ANEXOS

ANEXO 1 - "Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE)"

TERMO DE CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO (TCLE)


EU, XXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXX, portador do RG XXXXXXXXXXXXXX, CPF XXXXXXXXXXXXXXXXXXXX residente e domiciliado no endereço XX, autorizo a publicação do trabalho "Sialoadenite esclerosante crônica - relato de caso e revisão de literatura" de responsabilidade da pesquisadora Anna Carolina Ceolin Milani. Tendo o trabalho como objetivo estudar a sialoadenite esclerosante crônica, em sua integralidade, a fim de expor ao cirurgião-dentista os melhores métodos de diagnóstico e tratamento desta patologia.

Autorizo, neste ato, a utilização de toda documentação do meu caso clínico (imagens, vídeos, radiografias, tomografias computadorizadas, laudos histopatológicos, fotografias, informações clínicas, dentre outros), para fins educativos de pesquisa, apresentações em aulas, palestras, conferências, cursos, congressos, eventos científicos, publicações em revistas, livros científicos, internet, dentre outros, em caráter definitivo e gratuito.


Estou ciente de que tal publicação não acarretará prejuízo à minha identidade. Em caso de danos recorrentes do relato de caso, será assegurado a mim o direito à assistência integral e gratuita, pelo tempo que for necessário.

Passo Fundo, 03 de Maio de 2021

Assinatura do paciente: XXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXXX



Anna Carolina Ceolin Milani (pesquisadora)



Prof. Dr. Mateus Ericson Flores (orientador)

ANEXO 2 - “Aprovação pelo Comitê de Ética da UPF”

UNIVERSIDADE DE PASSO
FUNDO/ VICE-REITORIA DE
PESQUISA E PÓS-
GRADUAÇÃO - VRPPG/ UPF



PARECER CONSUBSTANCIADO DO CEP

DADOS DO PROJETO DE PESQUISA

Título da Pesquisa: Sialodente esclerosante crônica - relato de caso e revisão de literatura.

Pesquisador: Majeus Ericson Flores

Área Temática:

Versão: 1

CAAE: 45341221.3.0000.5342

Instituição Proponente: FUNDAÇÃO UNIVERSIDADE DE PASSO FUNDO

Patrocinador Principal: Financiamento Próprio

DADOS DO PARECER

Número do Parecer: 4.675.956

Apresentação do Projeto:

A sialodente esclerosante crônica, também conhecida como tumor de kuttner, representa uma inflamação crônica fibrosante incomum em glândulas salivares. Caracterizado como uma patologia pouco conhecida, que clinicamente pode se assemelhar a uma neoplasia verdadeira, embora facilmente resolvida com a excisão cirúrgica da lesão, causa transtornos importantes ao paciente, como dor intensa, disfonia e disfagia.

Objetivo da Pesquisa:

O objetivo do estudo é relatar um caso clínico de um paciente diagnosticado com sialodente esclerosante crônica que será tratado por meio de remoção cirúrgica do tumor e preservação da atividade da glândula salivar.

Avaliação dos Riscos e Benefícios:

Segundo os pesquisadores, os riscos deste relato de caso estariam relacionados com a quebra de confidencialidade mediante a divulgação de dados e identificação não autorizada pelo paciente, o qual resultaria em danos psicológicos, morais e/ou materiais ao paciente ou a terceiros. Porém, todos os cuidados serão tomados para que a identidade do paciente não seja revelada e a autorização para uso das imagens será obtida expressamente por meio do Termo de Consentimento Livre e Esclarecido. Como benefício o estudo contribuirá para auxiliar o cirurgião dentista a aprimorar o diagnóstico e abordagens terapêuticas de pacientes com tal patologia.

Endereço: BR 285- Rio 282 Campus 1 - Centro Administrativo/Bloco 4 andar
Bairro: São José CEP: 99.000-000
UF: RS Município: PASSO FUNDO E-mail: cep@upf.br
Telefone: (54)3316-8157

UNIVERSIDADE DE PASSO
FUNDO/ VICE-REITORIA DE
PESQUISA E PÓS-
GRADUAÇÃO - VRPPG/ UPF



Continuação do Parecer: 4.075.255

garantindo uma melhora na qualidade de vida ao paciente e familiares.

Comentários e Considerações sobre a Pesquisa:

Este trabalho é um relato de caso clínico de um paciente do sexo masculino, ASA II, leucoderma, 53 anos de idade, brasileiro, com suspeita de sialodente esclerosante crônica, pelo histórico progressivo, exame clínico e radiográfico, que procurou atendimento na Universidade de Passo Fundo. O paciente será acompanhado em todas as fases do tratamento, tanto na Universidade, quanto no Hospital de Clínicas na cidade de Passo Fundo. Pretende-se coletar dados do prontuário, exames laboratoriais, exame histopatológico e registros fotográficos.

Considerações sobre os Termos de apresentação obrigatória:

O protocolo foi instruído e apresentado de maneira completa e adequada. Os compromissos do pesquisador e das instituições estavam presentes. O projeto foi considerado claro em seus aspectos científicos e metodológicos.

Recomendações:

Após o término da pesquisa, o CEP UPF solicita: a) A devolução dos resultados do estudo aos sujeitos da pesquisa ou a instituição que forneceu os dados; b) Enviar o relatório final da pesquisa, pela plataforma, utilizando a opção, no final da página "Enviar Notificação"+ relatório final.

Conclusões ou Pendências e Lista de Inadequações:

Diante do exposto, este Comitê, de acordo com as atribuições definidas na Resolução n. 466/12, do Conselho Nacional de Saúde, Ministério da Saúde, Brasil, manifesta-se pela aprovação do projeto de pesquisa na forma como foi proposto.

Considerações Finais a critério do CEP:

Este parecer foi elaborado baseado nos documentos abaixo relacionados:

Tipo Documento	Arquivo	Postagem	Autor	Situação
Informações Básicas do Projeto	PB_INFORMAÇÕES_BÁSICAS_DO_P ROJETO_1717836.pdf	25/03/2021 09:23:59		Aceito
Folha de Rosto	Folha_de_rosto.pdf	21/03/2021 18:59:49	Anna Carolina Ceolin Miani	Aceito
Projeto Detalhado / Brochura Investigador	Projeto_TCC_Sialodente.pdf	21/03/2021 18:54:46	Anna Carolina Ceolin Miani	Aceito
TCLE / Termos de Assentimento /	TCLE.pdf	18/03/2021 10:27:36	Anna Carolina Ceolin Miani	Aceito

Endereço: BR 252- Km 252, Campus I - Centro Administrativo, Torre 4 andar
Bairro: São José CEP: 10.052-000
UF: RS Município: PASSO FUNDO
Telefone: (54)3316-8157 E-mail: cep@upf.br

UNIVERSIDADE DE PASSO
FUNDO/ VICE-REITORIA DE
PESQUISA E PÓS-
GRADUAÇÃO - VRPPG/ UPF



Continuação do Parecer: 4.075.959

Justificativa de Ausência	TCLE.pdf	18/03/2021 10:27:36	Anna Carolina Cecolin Miani	Aceito
---------------------------	----------	------------------------	--------------------------------	--------

Situação do Parecer:

Aprovado

Necessita Apreciação da CONEP:

Não

PASSO FUNDO, 28 de Abril de 2021

Assinado por:
Felipe Cittolin Abal
(Coordenador(a))

Endereço: BR 285- Km 250 Campus I - Centro Administrativo/Reitoria 4 andar
Bairro: São José CEP: 99.052-900
UF: RS Município: PASSO FUNDO E-mail: cap@upf.br
Telefone: (54)3216-8157

Página 02 de 02

Sialoadenite esclerosante crônica - relato de caso e revisão de literatura -

Chronic sclerosing sialoadenitis - case report and literature review

Anna Carolina Ceolin Milani, Acadêmica de Odontologia na Universidade de Passo Fundo, Passo Fundo/RS.

Mateus Ericson Flores, Coordenador do Curso de Odontologia e Tutor da Residência em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial UPF/RS.

Gisele Rovani, Mestre em Odontologia pela Universidade Federal do Rio Grande do Sul e professora adjunta da Universidade de Passo Fundo.

Ferdinando de Conto, Doutorado em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial pela PUCRS e Coordenador do Serviço de Residência em Cirurgia Buco-Maxilo-Facial da Univesidade de Passo Fundo.

João Paulo De Carli, Doutor em Odontologia pela PUCPR e Professor da Faculdade de Odontologia da Universidade de Passo Fundo/RS.

Endereço: Anna Carolina Ceolin Milani – email: 167357@upf.br - telefone: (55)999947013 - Rua Morom, nº 901, ap 403, Passo Fundo, CEP 99010030, Rio Grande do Sul.

Resumo:

Objetivo: O objetivo deste trabalho foi estudar a sialoadenite esclerosante crônica em sua integralidade, buscando expor ao cirurgião-dentista os melhores métodos de diagnóstico e tratamento para tal lesão. Relato de caso: Paciente ASA II, leucoderma, 53 anos de idade, do gênero masculino, procurou atendimento odontológico em setembro de 2020 queixando-se de dor e inflamação na região submandibular. Ao exame clínico, constatou-se presença de nódulo endurecido móvel na região submandibular esquerda, bem posterior no soalho lingual. Apresentando supuração na realização da ordenha da glândula submandibular. No exame radiográfico panorâmico identificou-se uma massa radiopaca na região submandibular esquerda, sugestiva de uma calcificação da glândula submandibular. Considerações finais: O presente estudo abordou Kuttner, assim como as formas de diagnóstico, diagnósticos diferenciais, tratamento e prognóstico, expondo que a sialoadenite esclerosante crônica, é um distúrbio fibro inflamatório crônico de glândulas salivares caracterizada por aumento de volume difuso, de consistência endurecida, assintomático ou relativamente doloroso, que acometem principalmente a glândula submandibular, unilateralmente, em homens de meia idade.

Palavras-chave: Doenças da glândula submandibular, sialoadenite, saliva.

Introdução:

O tumor de Kuttner, também denominado Sialoadenite Esclerosante Crônica, representa um processo fibroinflamatório crônico, que acomete glândulas salivares maiores, quase exclusivamente a glândula submandibular. Os aspectos clínicos são aumento de volume difuso, de consistência endurecida, assintomático ou relativamente doloroso, na região glandular, sendo assim, reconhecida como lesão semelhante a um tumor de glândulas salivares pela Organização Mundial de Saúde ^{1, 2}.

A sialoadenite esclerosante crônica, trata-se de uma entidade clínico patológica, consistindo de uma lesão inflamatória incomum, que se assemelha a outras lesões, como por exemplo, neoplasias verdadeiras. Apesar de tratar-se de uma lesão benigna, pode comprometer funções de fala, mastigação ³.

Na maioria dos relatos existentes na literatura, mostram que a semelhança com outras lesões, bem como a subnotificação da patologia, dificulta o diagnóstico clínico, resultando em um tratamento menos conservador por meio de exérese da glândula salivar acometida, para fins de diagnóstico histopatológico ^{4, 5}.

Autores como Lindenblantt *et al.*³ (2007) e Beriat *et al.*¹ (2010) explicam que em suas análises histopatológicas existe preservação da estrutura glandular e uniformidade celular, sem nenhuma evidência de malignidade. Além disso, não existem relatos de recorrência nos casos acompanhados. Portanto, a manutenção da glândula salivar pode ser considerada observando a possibilidade de retomada da função da mesma.

Em virtude das semelhanças com uma neoplasia verdadeira e o pequeno número de relatos, o tumor de Kuttner tornou-se uma patologia pouco conhecida pelos cirurgiões-dentistas, o que dificulta principalmente no diagnóstico e plano de tratamento ⁴.

Diante disso, com finalidade de aumentar a visibilidade de tal patologia que necessita estabelecimento de diagnóstico preciso, bem como do tratamento imediato e adequado, compatíveis com uma entidade benigna, foram abordadas formas de diagnóstico, tratamento e acompanhamento, dando ênfase ao tratamento conservador, preservando a glândula salivar.

Ferreira *et al.*⁶ (2015), afirma que embora denominado " tumor ", não se trata de uma neoplasia, mas sim, um processo benigno que confunde e perturba clinicamente os profissionais pela extensão e consistência da tumefação. Porém facilmente distinguível após exame de citologia aspirativa ou mesmo após ressecção da glândula salivar afetada, como

recomendado na literatura, e posterior análise histológica, por não possuir características de malignidade.

A glândula submandibular é o tecido salivar mais frequentemente afetado e removido cirurgicamente devido a Sialoadenite. Sua etiologia abrange as mais diversas esferas, desde infecções, até mesmo causas não infecciosas como redução do fluxo salivar pelo uso de medicação diurética ou anti-hipertensiva. Porém a sialolitiase ainda é a maior causadora de sialoadenite, com prevalência estimada de 1,2% da população geral ⁷.

A teoria apresentada por Sadeghi *et al.*⁸ (2010), é de que qualquer coisa que faça com que o fluxo salivar seja obstruído ou resulte em estase de secreções pode levar ao inchaço das células acinares, dilatação ductal, retenção de secreções salivares e fibrose e posterior necrose, que resultam em edema e infiltração de células inflamatórias que são características do tumor de Kuttner. Embora os sialólitos estejam presentes em grande parte dos casos de sialoadenite esclerosante crônica a etiologia ainda é desconhecida.

Consuegra *et al.*⁹ (2007), apresentaram a hipótese etiológica, considerando um desequilíbrio secretor que produz hiper densidade salivar, ou seja, espessamento da saliva causando assim a obstrução dos ductos salivares, com resposta inflamatória secundária do parênquima com fibrose e atrofia. Clinicamente, isso se traduz em uma diminuição da produção de saliva e maior propensão para infecções. Estabelecendo assim um círculo vicioso, no qual aumento da obstrução dos ductos, aumento da inflamação com consequente deposição de infiltrado linfoplasmocítico e fibrose.

Blanco *et al.*¹⁰ (2003), avaliaram algumas etiologias prováveis, mas evidenciaram a sialolitiase como principal causadora, por sua característica de obstrução ductal, que induz a inflamação do tecido circundante e consequentemente produz atrofia acinar. Histologicamente, vários graus de atrofia, fibrose e inflamação crônica são vistos, mas o que diferencia tais

patologias são o infiltrado linfoplasmocítico e o revestimento fibroso dos ductos, típicos do tumor de Kuttner que não estão presentes no processo de sialolitíase.

Dentre as causas não infecciosas, ingestão reduzida de líquidos, desidratação de qualquer origem, tabagismo, doenças prolongadas, diuréticos e medicamentos anti-hipertensivos são fatores de risco para diminuição do fluxo salivar ou até sua estase, contribuindo para estenose ductal ou sialolitíase, que permitem e frequentemente evoluem para uma contaminação bacteriana por via retrógrada no longo e tortuoso ducto ascendente da glândula submandibular, também conhecido como ducto de Wharton ⁷.

Putra *et al.*¹¹ (2016) avaliaram a correlação da Sialoadenite com nível sérico elevado de IgG4, tendo em vista que esta condição, onde a imunoglobulina apresentasse elevada, ocorre estimulação da proliferação de fibroblastos promovendo fibrose. Mecanismo esse presente em outras patologias que podem ser relacionadas e utilizadas para auxiliar no diagnóstico do tumor de Kuttner, entre elas, pancreatite autoimune e fibrose retroperitoneal.

Em seu estudo, Beriat *et al.*¹ (2010), caracterizaram histologicamente a Sialoadenite por esclerose periductal, atrofia acinar, fibrose densa e infiltração linfocítica. Já Seifert e Donath¹² (1977), separaram em quatro estágios de progressão conforme avaliação histopatológica, iniciando por inflamação crônica focal, após infiltração linfocítica difusa e fibrose periductal severa, então atrofia parenquimatosa com hialinização e esclerose periductal, chegando no último estágio que ocorre destruição da arquitetura lobular.

Os tratamentos propostos e estudados acerca desta patologia, estabelecidos na literatura, são basicamente a excisão cirúrgica da glândula salivar afetada. No entanto, discutindo a técnica de tratamento utilizada, Araújo *et al.*⁷ (2020) levantaram a questão das desvantagens de um acesso extra oral, referente ao processo de cicatrização e cicatriz remanescente na região da incisão da pele, que muitas vezes pode ser minimizada por incisões relaxantes paralelas ou em linhas de tensão relaxadas da pele.

Outra questão levantada por Alves *et al.*¹³ (2014), é o tratamento conservador, evitando o acesso transcervical e até mesmo a excisão completa da glândula salivar, por meio de litotripsia extracorpórea por ondas de choque, visando a fragmentação das pedras e eliminação espontânea apenas com estimulação da glândula. Não alcançando o sucesso por meio da abordagem conservadora, é recomendado a remoção cirúrgica da calcificação e da glândula acometida por acesso intraoral.

O presente trabalho teve como objetivos: Analisar uma abordagem cirúrgica conservadora, preservando a glândula acometida pela sialoadenite esclerosante crônica, observando se a preservação da glândula é eficaz e resulta na retomada de função, permitindo que a glândula siga secretando saliva, não ocorrendo recidiva do tumor estudado.

Relato de caso:

Paciente ASA II, leucoderma, 53 anos de idade, do gênero masculino, procurou atendimento odontológico em setembro de 2020 queixando-se de dor e inflamação na região submandibular. O paciente alegou possuir pressão alta e histórico de arritmia cardíaca, medicado com Atenolol 25mg e Naprix 10mg + 5mg.

O paciente relatou que há 3 anos teve um episódio de edema na região submandibular, onde na oportunidade foram removidos sialólitos de pequeno diâmetro, desobstruindo o ducto e melhorando o quadro clínico. Em março de 2020, um novo episódio de edema e supuração ocorreram, desde então o paciente fez acompanhamento com o cirurgião-dentista, fazendo uso de antibiótico.

Ao exame clínico, constatou-se presença de nódulo endurecido móvel na região submandibular esquerda, bem posterior no soalho lingual. Apresentando supuração na realização da ordenha da glândula submandibular. No exame radiográfico panorâmico (fig. 1)

e na radiografia oclusal parcial (fig. 2), identificou-se uma massa radiopaca na região submandibular esquerda, sugestiva de uma calcificação da glândula submandibular.



Figura 1 - radiografia panorâmica mostrando uma imagem radiopaca, com alguns pontos radiolúcidos, na região submandibular esquerda.



Figura 2 - radiografia oclusal parcial evidenciando massa radiopaca na região submandibular esquerda próximo ao elemento 37.

Após solicitação de exames complementares de tomografia computadorizada, exames de rotina para realização de cirurgia sob anestesia geral como eletrocardiograma, raios X de tórax em 3 incidências, hemograma completo, coagulograma, ureia, creatinina, glicemia em jejum, TGO e TGP, bem como avaliação e liberação médica mediante níveis normais aceitáveis dos referidos exames.

No dia 30 de novembro de 2020, foi realizado o procedimento cirúrgico conservador de remoção da calcificação intraglandular por acesso intraoral, ultrapassando estruturas anatômicas até a remoção da massa de aproximadamente 17 mm de diâmetro (fig. 3) com preservação da glândula submandibular.



Figura 3 - corte coronal de tomografia computadorizada evidenciando massa hiperdensa na região submandibular esquerda, com aproximadamente 17 mm de diâmetro.

O fragmento retirado (fig. 4) de contornos irregulares, medindo 1,4x1x0,5mm, de coloração pardo-claro, foi encaminhado para exame anatomopatológico a fim de obter confirmação da hipótese diagnóstica previamente estabelecida, tendo como resultado os achados morfológicos diagnosticando sialolito podendo observar-se laminações concêntricas de material calcificado.



Figura 4 - Fragmento removido através de procedimento cirúrgico sob anestesia geral, em ambiente hospitalar, por acesso intraoral, com preservação do parênquima glandular.

No acompanhamento de 6 meses de remoção do sialólito, o paciente não refere queixas álgicas ou xerostomia, bem como nenhum outro sintoma relacionado a sialoadenite. No teste de função com reação a substância ácida, observamos formação e excreção salivar das glândulas submandibulares (fig. 5). Porém, nos exames de imagem detectamos presença de resíduos ou novas formações de calcificações fragmentadas (fig. 6).



Figura 5 - Fotografia intraoral oclusal evidenciando a formação e excreção de saliva na saída do Ducto de Wharton, durante o teste de função.



Figura 6 - Radiografia oclusal parcial evidenciando calcificações radiopacas no interior do parênquima glandular.

O paciente do caso clínico em questão autorizou a publicação do mesmo por meio da assinatura de um Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE), assim, sendo submetido e aprovado pelo comitê de ética em pesquisa, sobre o parecer número 4.675.956.

Discussão:

O Tumor de Kuttner, conhecido como sialoadenite esclerosante crônica, é uma doença fibroinflamatória, uma patologia das glândulas salivares caracterizada pela presença de estruturas mineralizadas no interior do parênquima glandular, ocasionando a obstrução parcial ou total do fluxo salivar, segundo Alves *et al.*¹⁴ (2014). No caso relatado a formação calcificada se deu no interior do parênquima ocasionando obstrução total do fluxo salivar acompanhado de intenso desconforto.

De acordo com Araújo *et al.*⁷ (2020), a glândula submandibular é o tecido salivar mais frequentemente afetado e removido devido a este processo. De acordo com dados de sexo e

idade, o sexo masculino, com idade entre 40 e 60 anos, apresentou a maior incidência. Características essas que condizem com o caso descrito, onde o paciente do sexo masculino possui 53 anos de idade.

Características como aumento de volume difuso na região submandibular, de consistência endurecida, assintomático ou doloroso, podendo ocorrer episódios de supuração, são descritos por Ahuja *et al.*¹⁴ (2003), como principais aspectos clínicos em pacientes assolados pelo Tumor de Kuttner. Assim como no caso apresentado, onde o paciente relata episódios de supuração e dor intensa principalmente à palpação, onde percebemos aumento de volume difuso e endurecido.

Existem diversos métodos diagnósticos descritos na literatura por Pandarakalam *et al.*² (2013) e Alves *et al.*¹⁴ (2014), por exemplo, para tal patologia, em geral exame clínico e radiográficos são recomendados. Dentre as técnicas radiográficas aplicadas para detecção de cálculos salivares são a radiografia oclusal, a panorâmica tal como as usadas no caso relatado, e a lateral oblíqua da mandíbula. Recursos como a tomografia computadorizada e a ultrassonografia também têm sido utilizados. São exames complementares que podem ser utilizados em casos de dificuldade de diagnóstico pelas técnicas radiográficas de rotina, a cintilografia e a ressonância magnética.

Embora amplamente preconizado na literatura como melhor tratamento, a ressecção de glândula afetada possui limitações estéticas e funcionais, como paralisia temporária do nervo facial marginal e cicatriz remanescente proveniente de um acesso extra oral, como descrito por Araújo *et al.*⁷ (2020) e Chow *et al.*¹⁵ (2008). Entretanto é uma discussão crescente na literatura uma conduta conservadora e manutenção da glândula, visto que, além de possibilitar um acesso intraoral, não existem relatos de malignidade associada a tal patologia e a taxa de recidiva é baixa, logo o caso descrito optou por uma abordagem conservadora com acompanhamento posterior^{1, 16}.

Conclusão:

A revisão de literatura realizada neste trabalho permite concluir que o Tumor de Kuttner, também conhecido como sialoadenite esclerosante crônica, é um distúrbio fibro inflamatório crônico de glândulas salivares caracterizada por aumento de volume difuso, de consistência endurecida, assintomático ou relativamente doloroso, que acometem principalmente a glândula submandibular, unilateralmente, em homens de meia idade. Sua etiologia é desconhecida, embora a sialolitiase esteja presente na grande maioria dos casos e também exista evidente ligação dos níveis séricos elevados para IgG4.

O método de diagnóstico começa sempre por uma boa anamnese e exame clínico, bem como o auxílio fundamental dos exames complementares de sangue e imagem. Porém devido às semelhanças com uma neoplasia, a sialoadenite esclerosante crônica, necessita de profissionais habilitados conhecedores de tal patologia e também se torna indispensável o exame histopatológico.

O tratamento mais indicado e defendido pela literatura ainda é a ressecção cirúrgica completa da glândula salivar acometida pela sialoadenite, no entanto, existem limitações funcionais e estéticas acerca dessa técnica. Por esses motivos, o tratamento conservador vem sendo estudado nos últimos anos, a fim de preservar tecidos importantes para recuperar o bem estar dos pacientes que sofreram com tal patologia, mas reforça-se a importância de um vasto conhecimento e um longo acompanhamento pós-operatório.

O caso apresentado condiz com as características clínicas apresentadas, como o gênero, idade, aumento de volume difuso na região submandibular, consistência endurecida, assintomático ou doloroso. Além disso, a função glandular foi restabelecida, e apesar de ter havido recidiva dos sialólitos no parênquima da glândula acometida, não observamos alteração na sua funcionalidade.

Referências:

1. Beriat GK, Akmansu SH, Kocaturk S, Ataoglu O. Chronic Sclerosing Sialadenitis (Küttner's tumour) of the Parotid Gland. *Malaysian J Med Sci* 2010; 17(4):57-61.
2. Pandarakalam C, Goebel Wm, Seyer B. Chronic sclerosing sialadenitis or Küttner's tumor associated with a giant sialolith: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2013; 115(4):38-40.
3. Lindenblatt RC, Santos JB, Alves DR, Lourenço SQC, Dias EP. Chronic sclerosing sialadenitis (Kuttner tumour): clinical case report. *J Bras Patol Med Lab* 2007; 43(5):381-84.
4. Huang C, Damrose E, Bhuta S, Abemayor E. Kuttner Tumor (Chronic Sclerosing Sialadenitis). *American Journal of Otolaryngology* 2002; 23(6):394-97.
5. Poghosyan A, Misakyan M, Sargsyan A, Khachatryan P, Hakobyan G. Chronic sclerosing sialadenitis (Küttner's tumor) of the submandibular salivary gland: Our experience of one case report. *Clinical Case Reports* 2019; 7:1600-04.
6. Ferreira S, Souza FA, Faverani LP, Bomfim BB, Junior IRG. Kuttner Tumor. *The Journal of Craniofacial Surgery* 2015; 26(3):979-80.
7. Araújo RV, Milani BA, Martins IS, Dias EMV, Bernaola-Paredes WE. An Extraoral Surgical Approach to Treat Chronic Submandibular Sialolithiasis - A Case Series. *Annals of Maxillofacial Surgery* 2020; 10(2):537-42.
8. Sadeghi M, Bakhshae M, Emami H, Farzadnia M. Bilateral Kuttner Tumor of Submandibular Glands: A Case Report. *Iranian Journal of Otorhinolaryngology* 2010; 22(61):155-8.
9. Consuegra NM, Heredia JB, Cisneros RS, Rocha MLM, Ortiz-Hidalgo C. Tumor de Küttner (sialoadenitis crónica esclerosante). Estudio clinicopatológico e

- inmunohistoquímico de 8 casos de una entidad poco reconocida. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2007; 58(1):25-30.
10. Blanco M, Mesko T, Cura M, Cabello-Inchausti B. Chronic Sclerosing Sialadenitis (Kuttner's Tumor): Unusual Presentation With Bilateral Involvement of Major and Minor Salivary Glands. *Annals of Diagnostic Pathology* 2003;7(1):25-30.
 11. Putra J, Ornstein DL. Kuttner Tumor: IgG4-Related Disease of the Submandibular Gland. *Head and Neck Pathol* 2016; 10:530-32.
 12. Seifert G, Donath K. On the pathogenesis of the Küttner tumor of the submandibular gland - Analysis of 349 cases with chronic sialadenitis of the submandibular. *HNO* 1977; 25(3):81-92.
 13. Alves NS, Soares GG, Azevedo RS, Camisasca DR. Sialolito de grandes dimensões no ducto da glândula submandibular. *Rev. Assoc. Paul. Cir. Dent.* 2014; 68(1).
 14. Ahuja AT, Richards PS, Wong KT, King AD, Yuen HY, Ching ASC, To EWH, To KF. Kutter tumour (chronic sclerosing sialadenitis) of the submandibular gland : sonographic appearances. *Ultrasound in Med. & Biol.* 2003; 29(7):913-9.
 15. Chow TL, Tony TF, Chan CY, Lam SH. Kuttner's tumour (chronic sclerosing sialadenitis) of the submandibular gland: a clinical perspective. *Hong Kong Med J* 2008; 14(1):46-9.
 16. Adachi M, Fujita Y, Murata T, Majima Y. A case of Kuttner tumor of the submandibular gland. *Auris Nasus Larynx* 2004; 31(3):309-312.