

## Sialodente Esclerosante Crônica: relato de caso

*Chronic Sclerosing Sialadenitis: case report*  
*Sialadenitis Crônica Esclerosante: reporte de caso*

Letícia Nara Grana Matos da **SILVA**<sup>1</sup>

Myrian Salles **VIEIRA**<sup>2</sup>

Tiago Novaes **PINHEIRO**<sup>3</sup>

Antônio Jorge Araújo de **VASCONCELOS II**<sup>4</sup>

Lioney Nobre **CABRAL**<sup>5</sup>

<sup>1</sup>Acadêmica do Curso de Graduação em Odontologia, Escola Superior de Ciências da Saúde, Universidade do Estado do Amazonas, UEA, 69065-001 Manaus-AM, Brasil

<sup>2</sup>Professora da Escola Superior de Ciências da Saúde, Universidade do Estado do Amazonas, UEA, 69065-001 Manaus-AM, Brasil. Especialista em Radiologia Odontológica e Imaginologia pela Associação Brasileira de Odontologia – Amazonas.

<sup>3</sup>Professor da Escola Superior de Ciências da Saúde, Universidade do Estado do Amazonas, UEA, 69065-001 Manaus-AM, Brasil. Mestre e Doutor em Patologia Bucal pela Faculdade de Odontologia de Bauru, Universidade de São Paulo, USP.

<sup>4</sup>Professor da Escola Superior de Ciências da Saúde, Universidade do Estado do Amazonas, UEA, 69065-001 Manaus-AM, Brasil. Mestrado em Ciências Odontológicas com área de concentração em Patologia Bucal pela Universidade Federal do Amazonas, UFAM

<sup>5</sup>Professor da Escola Superior de Ciências da Saúde, Universidade do Estado do Amazonas, UEA, 69065-001 Manaus-AM, Brasil. Doutor em Biotecnologia pela Universidade Federal do Amazonas, UFAM

### Resumo

A sialodente esclerosante crônica foi descrita pela primeira vez na Alemanha por Kuttner, em 1896. É uma lesão benigna semelhante a um tumor que afeta predominantemente a glândula submandibular e é uma doença inflamatória crônica relativamente incomum da glândula salivar. Esta lesão é caracterizada histologicamente por atrofia acinar, fibrose periductal e infiltração de glândulas por linfócitos com formação de folículos linfóides, perda de ácino e, eventualmente, esclerose acentuada da glândula salivar e geralmente ocorre em idosos e adultos de meia idade com ligeira predominância masculina. O relatório descreve um paciente, R.J.R.C, um homem de 53 anos, apresentando um histórico de dois anos de massa sublingual moderada e indolor, relacionada a um edentulismo parcial dos dentes 46 e 47.

**Descritores:** Sialadenite; Glândulas Salivares; Neoplasias Bucais.

### Abstract

Chronic sclerosing sialadenitis was first described in Germany by Kuttner in 1896 is a benign tumorlike lesion predominately affecting the submandibular gland and is a relatively uncommon chronic inflammatory disease of the salivary gland. This lesion is characterized histologically by periductal fibrosis acinar atrophy, and gland infiltration by lymphocytes with lymphoid follicle formation, loss of the acini, and, eventually, marked sclerosis of the salivary gland and usually occurs in the elderly and middleaged adults with a slight male predominance. The report describes a patient R.J.R.C of a 53-year- old man, presenting with a two-years history of a painless, moderate sublingual mass related to a partial edentulism of the teeth 46 and 47.

**Descriptors:** Sialadenitis; Salivary Glands; Mouth Neoplasms.

### Resumen

La sialodente esclerosante crônica fue descrita por primera vez en Alemania por Kuttner en 1896, es una lesión tumoral benigna que afecta predominantemente a la glândula submandibular y es una enfermedad inflamatoria crônica relativamente poco frecuente de la glândula salival. Esta lesión se caracteriza histológicamente por fibrosis periductal, atrofia acinar e infiltración de la glândula por linfocitos con formación de folículo linfoide, pérdida de los acinos y, eventualmente, esclerosis marcada de la glândula salival, y generalmente ocurre en adultos mayores y de mediana edad con un ligero predominio masculino. . El informe describe a un paciente, R.J.R.C, un hombre de 53 años, que presenta una historia de dos años de una masa sublingual moderada e indolora relacionada con un edentulismo parcial de los dientes 46 y 47.

**Descriptorios:** Sialadenitis; Glândulas Salivares; Neoplasias de la Boca.

### INTRODUÇÃO

A Sialodente esclerosante crônica (SEC) ou tumor de Kuttner, foi descrita em 1896 por Kuttner pela primeira vez<sup>1</sup>, devido sua semelhança com neoplasia de glândula salivar<sup>2,3</sup>. Caracteriza-se por um aumento de glândula salivar através de um processo inflamatório que afeta principalmente a glândula submandibular, é uma lesão pouco reconhecida com discreta predominância do sexo masculino, adultos de meia idade e idosos. Os fatores etiológicos da SEC podem ser de origem infecciosa ou não-infecciosa e clinicamente se localiza majoritariamente nas glândulas salivares maiores e menores<sup>4-6</sup>. Histologicamente existem diferentes estágios da SEC caracterizadas por atrofia acinar, infiltrado linfocitário, e fibrose progressiva, Seifert e Donalith<sup>4</sup> classificam em quatro estágios histológicos: 1) Infiltrado linfocitário periductal com inflamação crônica focal e

presença de secreção insípida em ductos dilatados da glândula salivar (Sialodente Focal). 2) Fibrose periductal mais aparente e grave, infiltração linfocítica marcada e sistema ductal com hiperplasia do epitélio, além da presença de ilhas mioepiteliais ocasionalmente. Atrofia dos ácinos, fibrose localizada na região central dos lóbulos e desenvolvimento significativo dos folículos linfóides periductais (Sialodente Linfocítica com Fibrose Glandular). 3) Fibrose extensa, proliferação ductal, redução do parênquima da glândula secretora, formação folículos linfóides secundários com centros germinativos, tornando notória a metaplasia de células escamosas e caliciformes no sistema ductal (Sialodente Esclerosante Crônica com Cirrose da Glândula Salivar). 4) Aparente destruição da arquitetura lobular com esclerose-cirrose da glândula (Sialodente Progressiva Crônica com Cirrose da Glândula Salivar).

## CASO CLÍNICO

Paciente com 53 anos de idade, sexo masculino, foi encaminhado para Policlínica da Universidade Estadual do Amazonas, UEA. Durante a anamnese o paciente relata história de desconforto e leve dor à cerca de dois anos devido a aumento de tecido mole na área de assoalho bucal, através do exame intraoral observou se uma lesão na região da glândula sublingual no lado esquerdo, onde também se constatou a ausência dos elementos dentários 46 e 47. No exame extraoral não foram identificadas assimetrias faciais ou alterações durante a palpação (Figura 1).



**Figura 1:** Fotografia Intraoral: lesão de consistência amolecida, pediculada, coloração semelhante a gengiva localizada no assoalho de boca.

Foi realizada a excisão cirúrgica completa da lesão por meio de uma biópsia excisional (Figuras 2 e 3).

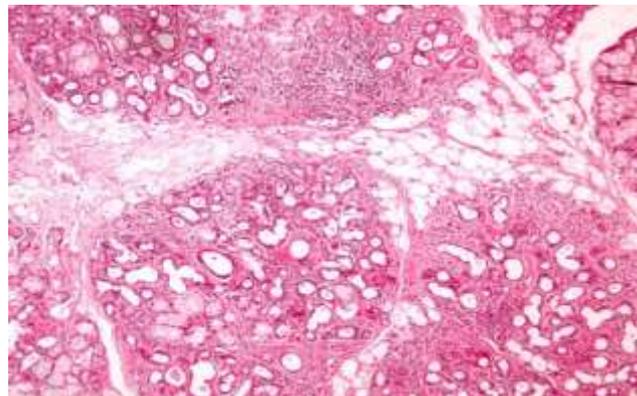


**Figura 2:** Fotografia intraoral: realização da incisão cirúrgica e divulsão após a anestesia.

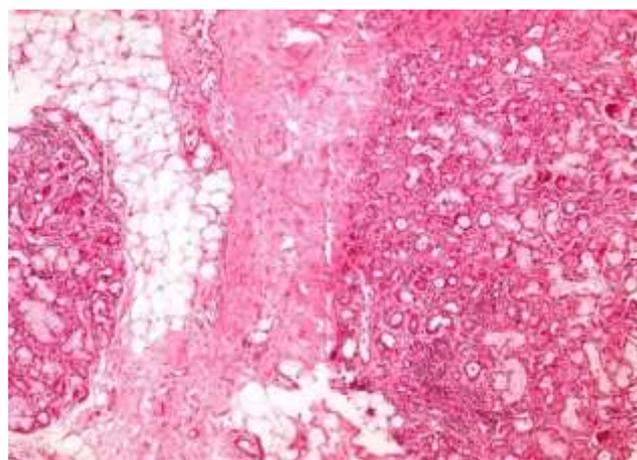


**Figura 3:** Retirada completa da lesão.

No exame histopatológico é possível identificar microscopicamente a presença de fragmentos de glândula salivar mista, a arquitetura lobular ainda preservada, além de áreas de fibrose nos septos interlobulares e ectasia ductal, com moderado infiltrado inflamatório linfocitário, também se identifica a substituição do parênquima glandular por fibrose e tecido adiposo (Figuras 4 e 5).



**Figura 4:** Glândula salivar mista com áreas de fibrose nos septos interlobulares.



**Figura 5:** Áreas de atrofia acinar e moderado infiltrado inflamatório linfocitário periacinar e periductal.

A condição do paciente após sete dias de cirurgia mostrou cicatrização satisfatória (Figura 6).



**Figura 6:** Fotografia intraoral: condição após 7 dias.

## DISCUSSÃO

Alguns achados histopatológicos como o intenso infiltrado inflamatório linfocitário, destruição dos ductos salivares, além de ocorrência ocasional de células mioepiteliais

acabam por sugerir que uma determinada reação imune seja responsável pela cronicidade da inflamação<sup>7,8</sup>. Para Tiemann, Teymourtash et al a SEC se associa a fatores autoimunes, estudos determinam fenótipos das células imunocompetentes, observando características da doença pela destruição do epitélio glandular e abundância de células T CD8 positivas. Não se sabe o que desencadeia essa reação imune mas a doença autoimune reage contra os antígenos do próprio organismo levando a problemas graves, pois o curso da doença só finaliza quando auto-antígenos que essa resposta imune forem eliminados com a destruição das próprias células que levam esses antígenos, talvez essa seja a explicação para os diferentes estágios da sialodente classificada por Seifert<sup>9,10</sup>.

Uma hipótese é a associação da SEC a um sequestro de antígenos causado pelo Vírus Epstein Barr (EBV), devido a um tropismo do vírus pelo linfócito B, explicando a presença do infiltrado inflamatório<sup>6,11</sup>. O EVB mantém-se em latência nos ácinos da glândula salivar e continua se multiplicando e infectando células hospedeiras em baixa síntese viral, proliferando sua informação genética nos ácinos, o sistema imunológico responde contra a infecção e a resposta atinge as estruturas que foram modificadas pelo componente viral, que seriam os ácinos das glândulas salivares, caracterizando uma doença autoimune<sup>11</sup>.

Uma ocorrência interessante chama atenção devido a possibilidade de relação entre a SEC e a Doença Relacionada a IgG4, que foi relatada como entidade clínica, patológica e específica em 2003, sua característica abrange lesões as quais se associam a fibrose e uma vasta infiltração de plasmócitos IgG4<sup>12</sup>. Não se tem clareza sobre a função biológica do IgG4, mas foi sugerido um possível envolvimento com reações alérgicas.

### CONCLUSÃO

A etiologia da sialodente esclerosante crônica pode ser diversa e algumas ainda se encontram em fase de estudo e uma combinação de fatores pode contribuir para o aparecimento da lesão. O cirurgião dentista deve realizar um bom diagnóstico e proporcionar tratamento conveniente e consecutivo, para isso é necessário conhecer as características desta lesão.

### REFERÊNCIAS

1. Küttner H. Über entzündliche tumoren der submaxillar-speicheldrü-se. Bruns'Beitr Klin Chir. 1896; 15:815-28.
2. Seifert G. Tumour-like lesions of the salivary glands. The new WHO classification.
3. Pathol Res Pract. 1992;188:836-46.
4. Seifert G, Sobin LH. The World Health Organization's Histological Classification of Salivary Gland Tumors. A commentary on the second edition. Cancer. 1992;70:379-85.
5. 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;25:81-92.
6. Teymourtash A, Tiemann M, Schrader C, Werner JA. Characterization of lymphoid infiltrates in chronic obstructive sialadenitis associated with sialolithiasis. J Oral Pathol Med. 2004;33:300-4.
7. Sera G, Blanco M, Mesko T, Cura M, Cabello-Inchausti B. Chronic sclerosing sialadenitis (Küttner's tumor): unusual presentation with bilateral involvement of major and minor salivary glands. Ann Diagn Pathol. 2003;7: 25-30.
8. Martínez CN, Baquera HJ, Sánchez CR, Márquez RM, Ortiz Hidalgo C. Küttner's tumour (chronic sclerosing sialadenitis) clinical, pathological and immunohistochemical study in 8 cases of a little-known entity. Acta Otorrinolaringol Esp. 2007;58(1):25-30.
9. Rasanen O, Jokinen K, Dammert K. Sclerosing inflammation of the submandibular salivary gland (Küttner tumour). A progressive plasmacellular ductitis. Acta Otolaryngol. 1972;74:297-301.
10. Tiemann M, Teymourtash A, Schrader C, Werner JA, Parwaresch R, Seifert G, et al. Chronic sclerosing sialadenitis of the submandibular gland is mainly due to a T lymphocyte immune reaction. Mod Pathol. 2002;15:845-52.
11. Ikeda M, Ikui A, Tanaka M, Omori H, Tomita H. Immuno-histopathological investigation on unspecific chronic sclerosing sialadenitis of the submandibular gland (Küttner tumor). Auris Nasus Larynx 1994;21:103-10.
12. Toussiro E, Roudier J. Epstein-Barr virus in autoimmune diseases. Bestb practice & research Clinical rheumatology 2008;22(5): 883-96.
13. Geyer JT, Ferry JA, Harris NL, Stone JH, Zukerberg LR, Lauwers GY, et al. Chronic sclerosing sialadenitis (Küttner tumor) is an IgG4-associated disease. Am J Surg Pathol. 2010;34:202-10.

### **CONFLITO DE INTERESSES**

---

Os autores declaram não haver conflitos de interesse

### **AUTOR PARA CORRESPONDÊNCIA**

---

**Letícia Nara Grana Matos da Silva**

Escola Superior de Ciências da Saúde, Universidade do  
Estado do Amazonas, UEA,  
69065-001 Manaus-AM, Brasil  
E-mail: [Ingms.odo16@uea.edu.br](mailto:Ingms.odo16@uea.edu.br)

**Submetido em** 05/05/2021

**Aceito em** 16/07/2021