

SIALOMETAPLASIA NECROSANTE

(REVISÃO BIBLIOGRÁFICA A PROPÓSITO DE DOIS CASOS CLÍNICOS)

ANA RITA NÓBREGA*; ANA ALVES NORTON**; LUÍS MEDEIROS***

RESUMO

A sialometaplasia é uma doença rara, benigna, necrosante e inflamatória das glândulas salivares. A etiologia parece ser isquémica. Envolve, sobretudo, as glândulas minor. Caracteriza-se, numa fase inicial, pela desintegração das células acinares por necrose, aparecendo mais tarde metaplasia escamosa e reacção fibrosa. As lesões podem aparecer na forma nodular ou evoluir para ulceração do epitélio adjacente, sendo esta a forma mais frequentemente encontrada pela exuberância de queixas e diagnóstico enganoso. Embora seja uma lesão auto-limitada que cura espontaneamente em 6 a 12 semanas, é muitas vezes confundida com lesão neoplásica, com tratamentos que passam por mutilações cirúrgicas desnecessárias.

Palavras-chave: Sialometaplasia Necrosante, Glândulas Salivares, Isquemia, Diagnóstico Diferencial.

ABSTRACT

Necrotizing Sialometaplasia is a rare, benign, necrotizing and inflammatory disease of the salivary glands; with a possibly ischemic etiology. Occurs mainly in minor salivary glands. The initial process shows necrotic disintegration of acinar cells, then occurring squamous metaplasia and fibrous reaction. The lesions can show a nodular or ulcerated form. The ulcerated form is more frequent due to exuberating complaints and mistaking diagnosis. Although is a self-limiting lesion that spontaneously heals in 6 to 12 weeks, its frequently treated as neoplastic with avoidable chirurgic mutilations.

Key-words: Necrotising Sialometaplasia, Salivary Glands, Ischemia, Differential Diagnosis.

INTRODUÇÃO

O primeiro registo referente a este tipo de ulceração oral remonta a 1958, descrita por Saunders e denominada nessa altura de “Estomatite Nicotínica do Palato”.⁽¹⁾

Em 1973, Abrams et al publicaram casos de uma nova entidade clínica que denominaram “Sialometaplasia Necrosante”, a qual, apesar da sua benignidade muitas vezes se confundia com patologia maligna.⁽²⁾

Dunlap num artigo publicado no ano seguinte refere um caso de 1965 que retrospectivamente inclui nessa nova entidade.

*Médica Dentista. Aluna de Mestrado de Implantologia da FMDUP

**Médica Dentista. Aluna de Mestrado de Implantologia da FMDUP

***Médico Estomatologista. Director do Serviço de Estomatologia do IPO Porto. Regente da Disciplina de Patologia Oral do ISCS Norte do Curso de Medicina Dentária

Tratando-se de um doente com ulceração palatina com diagnóstico de Tumor Mucoepidermóide, que quando foi admitido para cirurgia se encontrava curado.³

Desde então, outros casos foram sendo descritos (Argueles⁽⁴⁾, Bannayan⁽⁵⁾, Marciani⁽⁶⁾), precisando melhor o quadro clínico, a localização, o aspecto histológico e a etiopatogenia.

Em 1979, Lynch⁽⁷⁾, pegando em dois novos casos faz uma revisão da literatura existente, referenciando a idade, sexo, hábitos, localização, aspecto clínico e evolução. Nessa lista figuravam variantes histológicas sem metaplasia escamosa de ductos e ácinos, que foram incluídas com reservas no mesmo tipo de patologia.

Em 1980 Samuel Ruah⁽⁸⁾, português, publica um caso erroneamente diagnosticado como Carcinoma Mucoepidermóide do palato, que ele reviu e incluiu nesta patologia.

Desde então muitos casos de Sialometaplasia

Necrosante (SMN) com erros no diagnóstico inicial foram sendo descritos.

Em 1990 Werning et al ⁽⁹⁾ classificaram outra entidade clinicamente semelhante à SMN, mas histologicamente distinta, a Sialadenite Subaguda Necrosante (SASN). Inicialmente esta tumefação das glândulas salivares foi considerada como sendo uma fase precoce de evolução da SMN. ⁽¹⁰⁾ As lesões são de evolução mais rápida (cerca de 1 semana até ao diagnóstico) e apresentam-se como tumefação dolorosa (precoce), não ulcerada e eritmatosa de localização quase exclusiva no palato duro. A etiologia não está estabelecida, estando normalmente associada a infecção do tracto respiratório ou alergia, cura espontaneamente em 2 semanas. Histologicamente inicia-se por processo infeccioso (na SMN a infecção é secundária à necrose), havendo necrose das paredes dos ductos e ácinos, sem metaplasia escamosa. ⁽¹¹⁾

Actualmente há cerca de 200 casos descritos, sendo que os de localização palatina preenchem cerca de 80% das referências, podendo, no entanto, aparecer em qualquer local onde existam glândulas salivares havendo casos descritos na cavidade nasal ^(12,13); seios perinasais ⁽¹⁴⁾, mucosa jugal ⁽¹⁵⁾, lábio ⁽¹⁶⁾, triângulo retromolar ⁽¹⁷⁾, palato mole ⁽¹⁸⁾ ou laringe ⁽¹⁹⁾. Há ainda referências alguns casos em glândulas salivares principais ^(20,21) que alguns autores consideram como atingimento secundário a sialadenites lobulares focais ⁽²²⁾ ou Adenoma Pleomórfico ⁽²³⁾.

DEFINIÇÃO

A SMN é uma doença rara e benigna das glândulas salivares, sobretudo das minor, autolimitada, necrosante e inflamatória. Atinge preferencialmente o palato duro e normalmente ulcera.

A fase ulcerada mimetiza lesão de tumor maligno da cavidade oral pelo que a biopsia é essencial ao diagnóstico, evitando atitudes cirúrgicas invasivas e desnecessárias, já que é uma situação autolimitada, que cura espontaneamente ao fim de 6 a 12 semanas. ^(31,32,33,34)

Segundo Poulson em 44 casos de SMN, 18 foram, numa primeira fase, erradamente diagnosticados como neoplasias malignas. ⁽²⁴⁾

ETIOPATOGENIA

A etiologia mantém-se obscura. A origem bacteriana foi desde cedo afastada, já que não responde a antibacterianos. ⁽²⁾

A associação a doenças sistémicas (diabetes ou arteriosclerose) ou hábitos alcoolo-tabágicos tem-se mostrado muito inconstante. ^(31,36,37)

Alguns autores levantam a hipótese de estar envolvida uma agressão da vascularização do palato por factores físicos (p.e. traumatismo por prótese ou por agulha) ou químicos (p.e. fármacos ou pacientes com bulimia). ^(11,26,31,37,38)

Há ainda quem sugira um compromisso da irrigação sanguínea qualquer que seja o factor desencadeante (p.e. anestésicos locais), com enfarte e degenerescência da glândula e consequente ulceração e metaplasia escamosa; sobretudo se associada a factores adjuvantes como a arteriosclerose. ^(24,27,28,29,30,37,38)

Parece portanto, estar envolvido um processo de isquemia vascular que poderá ter várias causas. Essa isquemia provocará, se a zona afectada for extensa, uma sequestração do tecido necrosado e formação de úlcera (SMN ulcerada); se pelo contrário a zona isquémica é limitada, os mecanismos de defesa poderão ser suficientes para obviar a ulceração (SMN nodular). ⁽²⁶⁾

QUADRO CLÍNICO

As lesões surgem subitamente, inicialmente não ulceradas (fase nodular) e indolores com o aspecto de tumefacção exofítica e eritematosa do palato, que podem ou não evoluir para ulceração; esta fase é menos frequentemente encontrada pela inexistência de queixas. A lesão típica refere-se à fase ulcerada, que se manifesta por uma ulceração irregular, profunda, com 1 a 3cm e halo eritematoso. O centro da lesão pode apresentar um exsudado esbranquiçado, irregular, não sangrando facilmente. Nas formas mais agressivas pode estender-se

até ao osso, sem nunca ser agressiva.

Tem uma incidência máxima entre as 4ª e 5ª décadas e é mais frequente nos homens.⁽²⁾

As lesões são em geral unilaterais, podendo aparecer de ambos os lados da linha média. É rara a recidiva da doença, apenas conhecendo um caso referido por Rossie.⁽²⁵⁾

Como se entende o quadro clínico é muito variável e muitas vezes enganoso, o que explica os frequentes erros de diagnóstico.

1º Caso clínico

- Paciente do sexo feminino, 22 anos, raça caucasiana.
 - Antecedentes pessoais irrelevantes.
 - Fumadora: cerca de 10 cigarros por dia.
 - Negou hábitos alcoólicos.
- Apresentação de lesão ulcerada no palato duro, de evolução rápida (1 semana), com exposição óssea e bordos irregulares. (Fig. 1)



Fig.1 – Lesão na altura da biópsia

- Nesta fase a biópsia sugeriu Carcinoma Mucoepidermóide.
- Optou-se por repetir a biópsia, já que o resultado da primeira não era concordante com a evolução clínica. De facto, 3 semanas depois, quando se previa executar a segunda biópsia, já existiam sinais de remissão da lesão, pelo que foi proposto o diagnóstico de SMN, comprovado pela biópsia. (Fig. 2)



Fig.2 – A mesma lesão 3 semanas depois

2º Caso clínico

- Paciente do sexo masculino, 46 anos, raça caucasiana.
 - Hábitos alcoólicos e tabágicos marcados.
 - Desdentado total superior, com prótese desajustada.
- Apresentação de lesão ulcerada no palato duro, sem características clínicas de neoplasia, presente há cerca de 1 mês. (Fig. 3)

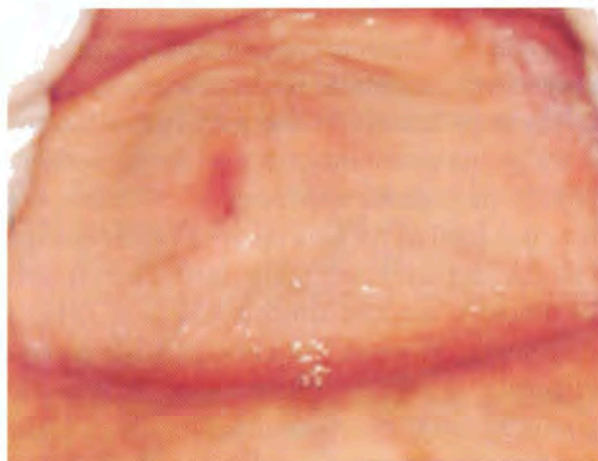


Fig.3 – Lesão na altura da biópsia

- A biópsia confirmou a suspeita clínica de SMN.
- Evolução no sentido da remissão. (Fig. 4)



Fig.4 – O mesmo paciente, 2 meses depois

HISTOMORFOLOGIA

Microscopicamente há 3 grandes características: ^(31,34,35,36,37)

- Epitélio adjacente às úlceras com hiperplasia pseudocarcinomatosa (aumento de tamanho dos núcleos, atipia leve a moderada, podendo ser também encontradas figuras de mitose normais).

- Ductos salivares com metaplasia escamosa.

- Desaparecimento das células acinosas por necrose isquémica, com manutenção da estrutura lobular, libertação de mucina e infiltração secundária por células inflamatórias.

Nas fases iniciais da doença os canais excretores permanecem intactos e só posteriormente sofrem metaplasia escamosa. ⁽³⁷⁾ Portanto, nos estadios iniciais há uma necrose isquémica das células acinares, e mais tarde metaplasia escamosa e reacção fibrosa. Inicia-se então a desintegração acinar, com libertação de muco e chamada de células inflamatórias. A remissão começa com o aparecimento de células cubóides aumentadas a delimitar novos canais excretores (embora o seu número seja ainda inferior ao normal). ⁽³³⁾

A preservação da estrutura lobular e a ausência de atipias certificam a natureza benigna da doença

DIAGNÓSTICO E DIAGNÓSTICO DIFERENCIAL

O diagnóstico desta patologia não é normalmente clínico, deve no entanto ser incluída no rol de diagnósticos diferenciais de lesões da cavidade oral. O estudo clínico deve assentar numa pormenorizada história, num cuidadoso exame e em exames auxiliares que acharmos oportunos, nomeadamente recorrendo a biópsia que pode ser excisional ou incisional dependendo da extensão da lesão. Não esquecer nunca que o aspecto da lesão poderá variar consoante a fase de evolução ou a extensão do infarto.

A biópsia constituirá a chave para o diagnóstico definitivo.

No diagnóstico diferencial é importante lembrar que quando ulcera é muitas vezes confundida com lesões neoplásicas (Carcinoma Espinocelular, Tumor Mucoepidermóide). Ainda na fase ulcerada devem também ser colocadas como possíveis as seguintes patologias:

- Linfoma oral (também denominado, Granuloma Letal Mediano)
- Goma Sifilítica
- Infecção Micótica profunda
- Tuberculose

O diagnóstico diferencial quando não existe ulceração passará por:

- SASN (Sialadenite Subaguda Necrozante)
- Abscesso Dentário ou Paradontal

TRATAMENTO E PROGNÓSTICO

O tratamento que poderá ser implementado é inespecífico e paliativo, já que a doença evolui espontaneamente para a cura sem deixar sequelas. Poder-se-à instituir um tratamento sintomático com corticóides tópicos, que actuará no componente inflamatório, diminuindo o tempo de cicatrização. Bochechos salinos poderão também auxiliar no processo de cicatrização.

CONCLUSÕES

Sendo muito rara, a SMN é muitas vezes esquecida, sendo que o diagnóstico correcto é essencial para prevenir mutilações cirúrgicas desnecessárias e/ou outros tratamentos agressivos; para além dos efeitos psicológicos de se rotular o paciente com patologia maligna.

Nunca esquecendo que o inverso deve também ser lembrado para não catalogarmos de SMN uma doença maligna, essa sim exigindo actuação rápida e efectiva.

BIBLIOGRAFIA

1. Saunders, WH - Nicotine Stomatitis of the Palate. *Ann Otorhinolaryngeal* 1958; 67: 618
2. Abrams M Albert, Melrose J Raymond, Howell V Francis - Necrotizing Sialometaplasia - a disease simulating malignancy. *Cancer*, Jan. 1973; 32: 130-35
3. Dunlap L Charles, Berker FB - Necrotizing Sialometaplasia - Report of live additional cases. *Oral Surg*, 1974; 37, 5: 722-27
4. Argueles, T Mario - Necrotizing Sialometaplasia. *Oral Surg*, 1976; 42: 86-90
5. Bannayan G, Fox G, Tilson HB - Necrotizing Sialometaplasia of the Palate. *J Oral Surg*, 1976; 34, 8: 727-730
6. Marciani DR, Sabes WR - Necrotizing Sialometaplasia: Report of three cases. *J Oral Surg.*, 1976; 34: 722-26
7. Linch DP, Crago CA, Martinez MG - Necrotizing Sialometaplasia: a review of literature and report of two additional cases. *Oral Surg*, 1979; 47, 63-69
8. Ruah, SAB - Sialometaplasia Necrotizante da abóbada palatina. *Mon Med* (20), 1980; 289, 559
9. Werning JT, Waterhouse JP, Mooney JW - Subacute Necrotizing Sialadenite. *Oral Surg Oral Med Oral Patol* 1990; 70: 756-759
10. Van der Wal JE, Kraaijenhagen HA, Van der Wal I. - Subacute necrotizing sialadenite: a new entity? *Br J Oral Maxillofac Surg* 1995; 33: 302-3
11. Fowler CB, Brannon RB - Subacute Necrotizing Sialadenitis: Report of 7 cases and review of literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, May 2000; 89(5), 600-9
12. Johnston WH - Necrotizing Sialometaplasia involving the mucous glands of the nasal cavity. *Um Pathol*, 1977; 8: 589-92
13. Maisel RH, Johnston WH, Endersen HA, Centrel RW - Necrotizing Sialometaplasia involving the nasal cavity: report of two cases. *Laryngoscope*, 1977; 87: 429-34
14. Bell GW, Loukota RA - Necrotizing Sialometaplasia coincident with ipsilateral infracted antral polyps. *Br J Oral Maxillofac Surg*, 1996 Feb; 34(1): 129-31
15. Papanayon PH, Kayavis JG, Edivatianos AA, Trigonidis G - Necrotizing Sialometaplasia of the Cheek: report of a case and review of literature. *J Oral Surg*, 1980; 38: 538-40
16. Matilla A, Flores TMD, Nogales F, Galera H - Necrotizing Sialometaplasia affecting the minor labial glands. *Oral Surg*, 1979; 47: 161-63
17. Forne SK, Foley JM, Sugg WE, Oatis GW - Necrotizing Sialometaplasia of the mandible. *Oral Surg*, 1977; 43: 720-26
18. Fechner R - Necrotizing Sialometaplasia: a source of confusion with carcinoma of the palate. *Am J Clin Pathol*, 1977; 67: 315-17
19. Ben Izhak O, Ben Arie Y - Necrotizing Sialometaplasia of the Larynx. *Am J Clin Patol*, 1996 Feb; 105(2): 251-3
20. Jayaram G, Pathmanathan R, Khanijow V - Cystic lesion of the Parotid gland with squamous metaplasia mistaken for squamous cell carcinoma: a case report. *Acta Cytol*, 1998 Nov-Dec; 42(2): 1468-72
21. Russo A, Dell'Aquila A, Prota V, Sica GS - Necrotizing Sialometaplasia of the submandibular gland: report of a case. *Minerva Stomatol*, 1998 Jun; 47(6): 273-7
22. Batsakis JG - Sialometaplasia Necrosante. *Arch Otolaryngol* 1976; 102, 191
23. Bhargava S, Monge JN - Necrotizing Sialometaplasia of the Parotid. *Indian J Cancer*, 1975; 12: 99
24. Poulson TC, Greer RO, Ryser RW - Necrotizing Sialometaplasia obscuring an underlying malignancy: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg*, 1984; 44: 570-74
25. Rossie KM, Allen CM, Burns RA - Necrotizing Sialometaplasia: a case with metachronous lesions. *J Oral Oral Maxillofac Surg*, 1986; 44: 1006-8
26. Murphy J, Giunta J, Meyer I, Robinson - Necrotizing Sialometaplasia. *Oral Surg*, 1977; 44, 3: 419-45
27. Birkholz H, Brownd CL - Necrotizing Sialometaplasia: report of an ulcerative case.

- JADA, 1981; 103: 48-50
28. Buller D – Nodular and Ulcerated lesions of the hard palate. JADA, 1980; 101: 823-24
 29. Rye LA, Calhoun NR, Redman RS - Necrotizing Sialometaplasia in a Patient with Buerger's disease and Raynaud's phenomenon. Oral surg, 1980; 49(3): 233-36
 30. Englander A, Cataldo E – Experimental carcinogenesis in duct-artery ligated rat submandibular gland. J Dent Res, 1976; 55: 229-34
 31. Schöning H, Emshoff R, Kreczy A - Necrotizing Sialometaplasia in two patients with bulimia and chronic vomiting. J Oral Maxillofac Surg, 1998; 27: 463-5
 32. Wood NW, Goaz PW – Differential diagnosis of Oral and Maxilofacial Lesions, 5th ed. Mosby. P. 176-80
 33. Vaillant JM, Lauden Bach P – Patologie des glandes salivaires. Paris. Flammarion, 1988. Cap XI
 34. Rice DH. – Noninflammatory, non-neoplastic disorders of the salivary glands. Otolaryngol Clin North Am, 1999; 32(5): 835-43
 35. Pindborg JJ – Atlas of diseases of the oral mucosa, 4^aed: WB Saunders Company; 1985. p. 176-77
 36. Scully C – Hand book of oral diseases: diagnosis and management. Martin Dunitz, 1999. Cap. 5
 37. Sebastian JVB, Salobreña AC, Fenol AB, Urizar JMA, Diago MP – Medicina Oral. Masson, 1995. Cap. 27, 64
 38. Shigematsu H, Shisematsu Y, Noguchi Y, Fugita K – Experimental study on necrotising sialometaplasia of the palate in rats: Role of local anesthetic injections. Int J Oral Maxillofac Surg, 1996; 25(3): 239-41