

FASCIITE NECROTIZANTE ASSOCIADA À SIALOLITÍASE: UM RELATO DE CASO

NECROTIZING FASCIITIS ASSOCIATED WITH SIALOLITHIASIS: A CASE REPORT

NATHÁLIA LUANA ANDRADE COSTA^{1*}, LUIZ FELIPE ROCHA VILAÇA², GUSTAVO PAIVA CUSTÓDIO², MARCELO GONÇALO DOS SANTOS³, CILENE PONCES LEONES⁴, RICHARD PRESLEY SILVA LIMA BRASIL⁴, E GUILHERME ROMANO SCARTEZINI⁴

1. Acadêmico do curso de graduação do curso Odontologia da Universidade Federal de Goiás, Goiânia, Brasil; 2. Cirurgião-dentista, Residente em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilo Facial, Hospital das Clínicas da Universidade Federal de Goiás, Goiânia, Brasil; 3. Cirurgião geral e cirurgião plástico, Goiânia, Goiás, Brasil; 4. Cirurgião Bucomaxilo Facial, Goiânia, Goiás, Brasil.

* Rua 227-A, 145, Setor Leste Universitário, Goiânia, Goiás, Brasil. CEP: 74610-155. andradenathaliac@gmail.com

Recebido em 28/10/2024. Aceito para publicação em 19/11/2024

RESUMO

A fasciite necrotizante (FN) é uma infecção grave e rapidamente disseminante que pode levar à necrose dos tecidos na região maxilofacial. Este relato descreve um caso raro de FN associada à sialolitíase em um paciente de 73 anos com comorbidades, incluindo diabetes e hipertensão. O paciente desenvolveu edema doloroso e uma cavidade necrosante na região submental. Na tomografia computadorizada, foi observado um sialólito no ducto da glândula submandibular direita e sinais de FN. O tratamento envolveu estabilização clínica, debridamento cirúrgico, sialoadenectomia e remoção do sialólito. Após a cirurgia, o paciente recebeu antibioticoterapia intravenosa, foi submetido a reconstrução com enxerto dermatogorduroso profundo removido da face interna do braço e terapia com laser de baixa frequência. O acompanhamento mostrou cicatrização adequada e o paciente satisfeito com o resultado. Este caso destaca a raridade da evolução de uma sialolitíase para FN e a importância de diagnóstico e manejo multidisciplinar para melhorar o prognóstico.

PALAVRAS-CHAVE: Fasciite Necrosante; cálculos das glândulas salivares; glândulas salivares.

ABSTRACT

Necrotizing fasciitis (NF) is a severe and rapidly spreading infection that can lead to tissue necrosis in the maxillofacial region. This report describes a rare case of NF associated with sialolithiasis in a 73-year-old patient with comorbidities including diabetes and hypertension. The patient developed painful edema and a necrotizing cavity in the submental region. On computed tomography, a sialolith was observed in the duct of the right submandibular gland and signs of NF. Treatment included clinical stabilization, surgical debridement, sialoadenectomy, and removal of the sialolith. After surgery, the patient received intravenous antibiotic therapy, underwent reconstruction with a deep dermatofat graft harvested from the inner aspect of the arm, and low-frequency laser therapy. Follow-up showed adequate healing, and the patient was satisfied with the result. This case highlights the rarity of the progression of sialolithiasis to NF and the importance of multidisciplinary diagnosis and management to improve prognosis.

KEYWORDS: Fasciitis, Necrotizing; Salivary Gland Calculi; Salivary Glands.

1. INTRODUÇÃO

A fasciite necrotizante (FN) é uma infecção de rápida disseminação que pode causar necrose do platisma, do tecido subcutâneo e da pele na região maxilofacial devido à obstrução de vasos sanguíneos, mas pode ocorrer em diversas partes do corpo. Os aspectos clínicos incluem vesículas cutâneas roxas-escuras, perda de sensibilidade e áreas necróticas¹. Segundo Hakkarainen *et al.* (2014)², é afirmado que as taxas de mortalidade dessa condição abrangem 25% a 35%.

Nos estudos de Chen *et al.* (2020)³ e Costa *et al.* (2004)⁴, a FN é uma condição considerada rara, com ocorrência de 0,3 a 15 casos por 100.000 habitantes, e suas manifestações clínicas podem estar associadas diretamente à presença de comorbidades sistêmicas como imunossupressão, diabetes mellitus, obesidade, doenças vasculares, doenças pulmonares ou história prévia de cirurgias, e entre outras. Alguns relatos da literatura remetem a associação de FN com uso de anti-inflamatórios não esteroidais (AINEs), mesmo assim, essa relação causal ainda é incerta^{5,6,7}.

A FN é uma infecção grave que pode ser causada por diversas bactérias, sendo as mais frequentes o *Streptococcus hemolítico* do grupo A e o *Staphylococcus aureus*⁴. Na região maxilofacial, essas infecções estão frequentemente associadas a infecções odontogênicas, mas podem surgir por diferentes fatores, o que ressalta a complexidade da etiologia dessa condição¹⁴.

De acordo com Neville *et al.* (2016)⁷, dentro da luz dos ductos das glândulas salivares podem se desenvolver estruturas calcificadas chamadas de sialólitos, que podem ser causadas pela obstrução parcial do ducto ou devido a sialodente crônica. Dos casos relatados, 80% estão relacionados ao ducto de Wharton da glândula submandibular, ocasionando episódios de sintomatologia dolorosa ou aumento de volume na região.

A Tomografia Computadorizada de Feixe Cônico está entre as melhores opções de modalidade de imagem para detecção de sialólito em ductos de

glândulas salivares, e é imprescindível para o planejamento operatório^{8,9}. Com o diagnóstico baseado no clínico e exames imaginológicos, o tratamento é a excisão cirúrgica e excisão das glândulas associadas (sialoadenectomia)⁷

O presente trabalho tem como propósito relatar um caso clínico de fasciíte necrotizante relacionado à sialolitíase em um paciente portador de comorbidades sistêmicas. É importante destacar o manejo clínico e cirúrgico, assim como a evolução do quadro, visto que se trata de uma ocorrência rara e de poucas referências na literatura devido a associação dessas duas condições.

2. CASO CLÍNICO

Paciente do sexo masculino, 73 anos foi admitido no hospital local por ambulatório referindo histórico de episódios de aumento de volume em região submental há aproximadamente 6 meses. Na consulta inicial, relatou que há 8 dias fez uma extração dentária maxilar e estava em uso de Lornoxicam, um AINE. Após a extração, desenvolveu edema doloroso na região submental, com surgimento de cavidade na região cervical.

Refere ser diabético e hipertenso, fazendo uso dos seguintes medicamentos de uso contínuo: besilato de anlodipino 10mg, cloridrato de metformina 500mg e glimepirida 2mg, todos ingeridos uma vez ao dia. O paciente é ex-tabagista e nega alergias medicamentosas.

Na admissão, observou-se pressão arterial elevada de 172mmHg por 117mmHg, frequência cardíaca de 102 bpm e glicemia de 359 mg/dL. O exame físico revelou fasciíte necrotizante na região cervical com drenagem ativa por acesso necrotizante e fístula submental. A abertura bucal estava preservada (>30 mm), e não havia foco infeccioso intrabucal.



Figura 1. Cavidade necrosante na região submental, evidenciando extensa destruição tecidual com sinais de necrose e drenagem ativa. **Fonte:** Os Autores.

Foi realizada tomografia computadorizada de face e pescoço com contraste, revelando provável sialólito no ducto da glândula submandibular direita de 1,89cm, focos gasosos nas partes moles anteriores do pescoço (regiões supra-hióidea e submandibular direita) e densificação dos planos adiposos correspondentes.

Esses achados sugeriram fasciíte necrotizante associada à sialolitíase.

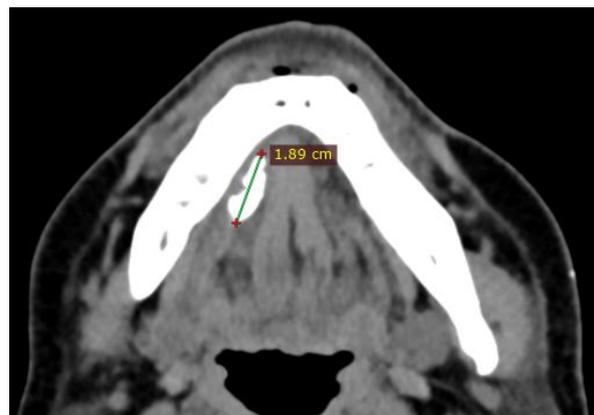


Figura 2. Corte axial demonstrando um provável sialólito no ducto da glândula submandibular direita, medindo 1,89 cm. **Fonte:** Os Autores.

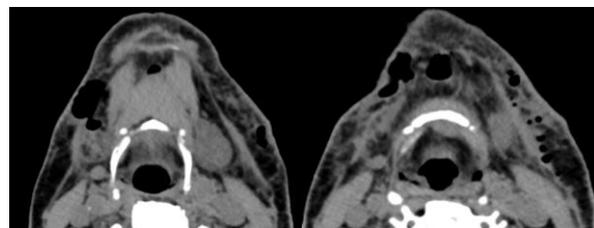


Figura 3 e 4. Cortes axiais mostrando focos gasosos nas partes moles anteriores do pescoço. **Fonte:** os Autores.

O paciente foi encaminhado para cuidados da Clínica Médica para regulação das comorbidades. Após estabilização, foi submetido a intubação nasotraqueal e infiltração de vasoconstritor local (Novabupi®) para reduzir sangramentos no transoperatório. Após a assepsia intra e extraoral, foi realizada a aposição de campos e a instalação de tampão orofaríngeo. Em seguida, foi feito o debridamento cirúrgico da fasciíte necrotizante na região cervical, a sialoadenectomia submandibular direita e a remoção do sialólito. A peça tecidual da fasciíte foi enviada para cultura e antibiograma, e o sialólito e a glândula foram encaminhados para exame anatomopatológico. A sutura intraoral foi realizada com Vicryl 4-0, e foi aplicado um curativo com sulfadiazina de prata na área de debridamento extraoral. Após a remoção do tampão orofaríngeo e a reversão da anestesia geral, a cirurgia foi concluída sem intercorrências. O paciente permaneceu em acompanhamento no hospital por oito dias.

No pós-operatório, foi prescrita antibioticoterapia com ceftriaxona 1g e clindamicina 600mg endovenoso enquanto esteve internado. O paciente apresentou queda no número de leucócitos e redução dos níveis de PCR, indicando resposta positiva ao tratamento. Após a alta hospitalar, o paciente seguiu com clindamicina 300mg e cefadroxila 500mg via oral por 7 dias e o laudo do material removido confirmou sialolitíase crônica.

Em um segundo momento, 15 dias após o debridamento, foi realizada a reconstrução da região submental debridada, com enxerto livre

dermatogorduroso profundo removido da face interna do braço.



Figura 5. Região submental após 6 dias de acompanhamento, mostrando evolução do quadro pós-operatório. **Fonte:** Os Autores.

O procedimento foi executado por um Cirurgião-Plástico, sob anestesia local com sedação endovenosa e o paciente posicionado em decúbito dorsal. O membro escolhido para o retalho foi o não dominante do paciente, flexionado em 90° e apoiado em uma mesa cirúrgica auxiliar.



Figura 6. Imagem da região submental no pré-operatório, antes da reconstrução com enxerto cutâneo. **Fonte:** os Autores.



Figura 7. Confeção do enxerto livre dermatogorduroso profundo da área doadora no braço não dominante do paciente. **Fonte:** Os Autores.

Houve a dissecação do retalho na dimensão necessária para o preenchimento da região submental

exposta do paciente. Após a remoção do enxerto cutâneo, a área doadora foi fechada primariamente. Essa região foi escolhida devido à coloração da pele ser semelhante à da área receptora, ser bem vascularizada, a cicatriz ficar menos exposta e facilmente camuflada pelas vestimentas. A reconstrução microcirúrgica da região submental foi bem-sucedida, e não foram observadas complicações



Figura 8. Área doadora do enxerto fechada primariamente após a remoção do retalho. **Fonte:** Os Autores.



Figura 9. Região submental após o procedimento de enxertia com enxerto livre. **Fonte:** Os Autores.



Figuras 10 e 11. Imagens realizadas com 17 dias de acompanhamento, mostrando o tecido de cicatrização formado no local da enxertia. **Fonte:** Os Autores.



Figura 12. Acompanhamento de 1 mês, demonstrando a melhora do aspecto da região submental após o procedimento de enxertia. **Fonte:** Os Autores.



Figura 13. Acompanhamento de 7 meses, mostrando a cicatrização adequada e a região submental em bom estado após o procedimento de enxertia. **Fonte:** Os Autores.

No local cirúrgico foi realizada terapia de fotobiomodulação com o uso de laser de baixa frequência, com irradiação nos comprimentos de onda vermelho (650 nm) e infravermelho (808 nm). A parametrização utilizada foi uma potência de 100 mW e energia total de 6 J/cm² por ponto. A aplicação foi

realizada de forma perpendicular ao local, com contato direto e duração de 15 segundos por ponto. As sessões de laserterapia ocorreram a cada 5 dias durante um mês, conforme a disponibilidade do paciente, totalizando 6 aplicações. Após 30 dias, o paciente retornou sem queixas algicas ou funcionais. O enxerto estava em posição correta, sem sinais de infecção, e a cicatrização foi adequada. A abertura bucal estava preservada em aproximadamente 45 mm. O paciente seguiu sob acompanhamento da equipe e, após 7 meses, retornou ao serviço com cicatrização adequada da região e relatou estar satisfeito com o resultado



Figura 14. Acompanhamento de 1,5 anos, evidenciando a cicatrização completa e o estado da região submental após o procedimento de enxertia. **Fonte:** Os Autores.



Figura 15: Acompanhamento de 2 anos, evidenciando a estabilização do caso, a durabilidade dos resultados e a camuflagem da cicatriz. **Fonte:** Os Autores.

3. DISCUSSÃO

Nos ductos de Wharton (submandibulares) é onde prevalece a ocorrência de sialolitíase, representando cerca de 60% a 80% dos casos. A formação do sialólito pode iniciar por uma inatividade da porção secretora da glândula, um trauma, infecções ou presença de corpos estranhos, gerando acúmulo de material rico em cálcio. Com o baixo teor de água na saliva, ocorre a

estruturção do cálculo. Com a obstrução ductal completa, há o acúmulo de saliva na região, e o sialólito pode ser colonizado por bactérias, levando à inflamação e fibrose, resultando em sialadenite, que geralmente é relacionada a processos crônicos, podendo ou não levar à formação de um abscesso^{10,11,12}. No caso apresentado, o cálculo apresentava-se em região submandibular e não se identificou uma etiologia certa.

O paciente deste relato, apresentava recorrências de aumento de volume na região submental há 6 meses, demonstrando a cronicidade da lesão, a qual evoluiu para uma sialadenite e formação de abscesso, visualizado na tomografia juntamente com o gás subcutâneo na região submental e submandibular direita. O diferencial desta discussão é que a sialolitíase evoluiu para uma fascíte necrotizante, sendo que a maioria dos casos de FN na região cervical é de origem odontogênica, e não possui esta evolução grave^{13,14}.

Diversas bactérias estão associadas ao desenvolvimento da fascíte necrotizante, com o *Streptococcus hemolítico* do grupo A e o *Staphylococcus aureus* sendo os agentes mais frequentemente relatados, especialmente em infecções odontogênicas⁴. No entanto, a associação entre FN e sialolitíase, como observado neste caso, amplia as possíveis causas dessa condição além das infecções odontogênicas convencionais. Embora a literatura enfatize o papel predominante dessas bactérias em infecções faciais, a presença de FN relacionada à sialolitíase sugere que fatores etiológicos alternativos devem ser investigados, especialmente em pacientes com comorbidades.

Nos estudos de Safran et al. (2001)¹⁵, Costa et al. (2019)⁸ e Guibal et al. (1998)⁶, é relatado que a fascíte necrosante está associada ao imunocomprometimento em situações como diabetes mellitus, idosos, doença renal aguda ou crônica, doenças cardiovasculares, pulmonares, submissão à cirurgia, e uso de AINEs. Comorbidades e condições, como as apresentadas pelo paciente em questão, demonstram a gravidade do caso. Além disso, é importante reiterar que as taxas de mortalidade da FN variam de 25% a 35%².

A intervenção cirúrgica é imprescindível nestas situações, incluindo administração intravenosa imediata de antibioticoterapia, drenagem, excisão do tecido necrótico, ampla incisão de fasciotomia e exploração da região^{13,16}. A drenagem cirúrgica frequente e o desbridamento são chaves para bons resultados^{17,18}. Além da FN, no presente caso, foi realizado o tratamento da sialolitíase com a sialoadenectomia da glândula submandibular direita. Segundo Ali et al. (2012)¹⁹, a sialoadenectomia é indicada quando a calcificação é maior que 1.2 cm ou intraglandular.

Após o debridamento da região, foi necessário realizar um enxerto cutâneo lateral do braço. Esta técnica e localização da área doadora proporcionam coloração da pele semelhante à área receptora,

manutenção das estruturas cervicais, volume adequado do tecido e inervação sensitiva local²⁰.

É digno de nota relatar também que a utilização do laser de baixa frequência na área receptora é uma técnica promissora para auxiliar na cicatrização dos tecidos e foi utilizada no caso²¹.

4. CONCLUSÃO

Portanto, o presente caso destaca a raridade da evolução de uma sialolitíase para fascíte necrosante na região submental, uma condição com alta mortalidade e morbidade. Com isso, nota-se a importância de um correto diagnóstico de lesões maxilo faciais e o tratamento adequado.

A cronicidade dos sintomas e a associação com comorbidades como diabetes e hipertensão reforçam a necessidade de um diagnóstico precoce e um manejo multidisciplinar, a fim de evitar a evolução para uma FN, melhorando assim o prognóstico para o tratamento dos pacientes.

5. REFERÊNCIAS

- [1] Hupp JR, Ellis E, Tucker MR. Cirurgia Oral e Maxilofacial Contemporânea. 6ª ed. Rio de Janeiro: Elsevier Editora Ltda; 2015.
- [2] Hakkarainen TW, Kopari NM, Pham TN, Evans HL. Necrotizing soft tissue infections: Review and current concepts in treatment, systems of care, and outcomes. *Curr Probl Surg*. 2014; 51(8):344-62.
- [3] Chen LL, Fasolka B, Treacy C. Necrotizing fasciitis: A comprehensive review. *Nurs*. 2020; 50(9):34-40.
- [4] Costa IMC, Cabral ALSV, Pontes SS, Amorim JF. Fascíte necrosante: revisão com enfoque nos aspectos dermatológicos. *An Bras Dermatol*. 2004; 79(2):211-24.
- [5] Bilton BD, Zibari GB, McMillan RW, Aultman DF, Dunn G, McDonald JC. Aggressive surgical management of necrotizing fasciitis serves to decrease mortality: a retrospective study. *Am Surg*. 1998; 64(5):397-400.
- [6] Guibal F, Muffat-Joly M, Terris B, Garry L, Morel P, Carbon C. Effects of diclofenac on experimental streptococcal necrotizing fasciitis in rabbit. *Arch Dermatol Res*. 1998; 290(11):628-33.
- [7] Neville BW, Damm DD, Allen CM, Chi AC. Patologia oral e maxilofacial. 4ª ed. Rio de Janeiro: Elsevier; 2016.
- [8] Costan VV, Ciocan-Pendefunda CC, Sulea D, Popescu E, Boisteanu O. Use of cone-beam computed tomography in performing submandibular sialolithotomy. *J Oral Maxillofac Surg*. 2019; 77(8):1656.e1-1656.e8.
- [9] van der Meij EH, Karagozoglou KH, de Visscher JGAM. The value of cone beam computed tomography in the detection of salivary stones prior to sialendoscopy. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2018; 47(2):223-7.
- [10] Arroz DH. Distúrbios não inflamatórios e não neoplásicos das glândulas salivares. *Otolaryngol Clin North Am*. 1999; 32(5):835-43.
- [11] Daniel SJ, Kanaan A. Open surgical management of sialolithiasis. *Oper Tech Otolaryngol Head Neck Surg*. 2015; 26(3):143-9.

- [12] Fusconi M, Petrozza V, Schippa S, de Vincentiis M, Familiari G, Pantanella F, et al. Bacterial biofilm in salivary gland stones: Cause or consequence? *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2016; 154:449-53.
- [13] Scher RL. Hyperbaric oxygen therapy for necrotizing cervical infections. *Adv Otorhinolaryngol.* 1998; 54:50-8.
- [14] Fliss DM, Tovi F, Zirkin HJ. Necrotizing soft-tissue infections of dental origin. *J Oral Maxillofac Surg.* 1990; 48(10):1104-8.
- [15] Safran DB, Sullivan WG. Necrotizing fasciitis of the chest wall. *Ann Thorac Surg.* 2001; 72(4):1362-4.
- [16] Akcay EK, Eryilmaz MA, Mutlu S, Gozke E. Necrotizing fasciitis of eyelid secondary to parotitis. *Eur J Ophthalmol.* 2008; 18(1):128-30.
- [17] Cheng NC, Tai HC, Chang SC, Chang CH, Lai HS. Necrotizing fasciitis in patients with diabetes mellitus: clinical characteristics and risk factors for mortality. *BMC Infect Dis.* 2015; 15:9.
- [18] Sakamoto H, Aoki T, Kise Y, Watanabe D, Sasaki J. Descending necrotizing mediastinitis due to odontogenic infections. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2000; 89:412-9.
- [19] Ali I, Gupta AK, Singh SS, Gupta AK. Unusually large sialolith of Wharton's duct. *Ann Maxillofac Surg.* 2012; 2:70-3.
- [20] Cunha MS, Ferreira LM, Nakamoto HA, Gemperli R. Versatilidade do retalho lateral do braço microcirúrgico em reconstruções complexas. *Rev Soc Bras Cir Plást.* 2007; 22(4):213-8.
- [21] Silva EB, Maniscalco CL, Éspér GVZ, Guerra RR, Kerppers II. Análises macro e microscópicas de enxertos cutâneos por sementeira após laserterapia de baixa intensidade. *Rev Col Bras Cir.* 2013; 40(1):44-8.