

Fístula salivar congênita: relato de três casos

Congenital salivary gland fistula: report of three cases

RENATO DA SILVA FREITAS¹, GILVANI AZOR DE OLIVEIRA E CRUZ², MARIA CECÍLIA CLOSS ONO³

RESUMO

As fístulas salivares de origem congênita são má formações de incidência rara. Devem ser diferenciadas de fístulas de 2º arco branquial, pelas características clínicas distintas, como a ausência de episódios de infecção e drenagem abrupta, que aumenta durante a alimentação. Dúvidas ainda existem com relação à sua etiologia. As hipóteses existentes cogitam a migração anormal de tecidos embrionários e a heteroplasia de células ectodérmicas, que regridiriam no processo de diferenciação celular. A fistulografia da lesão mostra fundo de saco arboriforme e ajuda no diagnóstico diferencial da lesão. O tratamento é cirúrgico, com ressecção do trajeto da lesão e da glândula que a originou. Apresentamos três casos de fístulas salivares congênitas.

Descritores: Fístula das glândulas salivares, cirurgia. Glândulas salivares, patologia. Coristoma.

SUMMARY

Salivary gland fistulas are rare malformations and should be differentiate from others draining sinuses pathologies, especially from the second branchial cleft sinuses. Precise pathogenesis is not fully understood. Clinically, the episodes of drainage are usually associated with a sense of fullness in the affected area and the amount of drainage usually increases during eating or mastication. A preoperative sinugram is helpful. The treatment is its excision. We present three cases of unusual salivary gland fistula.

Descriptors: Salivary gland fistula, surgery. Salivary glands, pathology. Choristoma.

INTRODUÇÃO

A maioria das fístulas parotídeas é adquirida e secundária a traumas, cirurgias, neoplasias e processos inflamatórios locais¹. A etiologia congênita é rara e tem origem durante o desenvolvimento embriológico². Apesar das glândulas parotídeas acessórias serem relativamente comuns, sua apresentação com o aparecimento de fístula cutânea salivar é extremamente rara³. A etiologia da formação desta má formação ainda não foi completamente elucidada e merece maiores estudos^{2,4}. Apresentamos três casos de fístulas salivares congênitas da região jugal, diagnosticadas e tratadas em nossos serviços.

RELATO DOS CASOS

Caso 1

Paciente de 16 anos, sexo masculino, foi encaminhado com queixa de exteriorização de líquido claro, por ocasião de estímulos alimentares, através do pequeno orifício cutâneo no canto lateral direito da boca, na região jugal. Não havia relato de quadro infeccioso e não se evidenciou a presença de outras má formações associadas (Figura 1). A fistulografia demonstrou, assim como no segundo caso, a presença de trajeto fistuloso e preenchimento de cavidade irregular pelo contraste (Figura 2).

1. Professor Adjunto da Disciplina de Cirurgia Plástica da Universidade Federal do Paraná. Cirurgião craniofacial do Centro de Atendimento Integral ao Fissurado Lábio Palatal (CAIF).

2. Chefe do Serviço e Professor Associado da Disciplina de Cirurgia Plástica da Universidade Federal do Paraná.

3. Especializanda do Serviço de Cirurgia Plástica e Reparadora do Hospital de Clínicas da Universidade Federal do Paraná.

Correspondência: Renato da Silva Freitas
Disciplina de Cirurgia Plástica e Reparadora – Hospital de Clínicas – UFPR
Rua General Carneiro, 181 – 9º andar, sala 903 – Curitiba – PR
CEP 80060-100
E-mail: dr.renato.freitas@gmail.com

Figura 1 – Caso 1. Presença de fístula junto à comissura labial à direita.



Figura 2 – Fistulografia realizada no caso 1, demonstrando curto trajeto da fístula salivar.



Figura 3 – Caso 2. Presença de fístula a 3 cm da comissura labial à direita. Presença de saliva ao estímulo.



Figura 4 – Caso 2. Aspecto macroscópico da lesão e trajeto da canulação. A seta mostra as fístulas de 1º arco faríngeo.



Caso 2

Paciente de 7 anos, sexo feminino, também com a mesma queixa, porém com o orifício fistuloso distante 3cm da comissura labial direita (Figura 3). O tratamento foi ressecção do orifício externo, trajeto fistuloso e tecido glandular distópico. Na Figura 4, observa-se o aspecto macroscópico da peça operatória e a associação de duas fístulas de 1º arco faríngeo. O exame anatomopatológico evidenciou tecido muscular estriado, fístula com mucosa escamosa e ácinos glandulares compatíveis com glândula salivar distópica.

Caso 3

Paciente com 9 anos de vida, do sexo feminino, apresentava hipoplasia mandibular grau IIA, macrostomia, anotia e apêndice pré-auricular à esquerda compatível com microssomia craniofacial. Presença de fístula cutânea a 3cm da comissura labial direita, com drenagem de saliva. Previamente havia sido realizada distração osteogênica de mandíbula. Submeteu-se a ressecção da fístula e sutura primária, evoluindo sem complicações (Figura 5).

Os responsáveis legais pelos pacientes autorizado a inclusão destes no estudo, incluindo a divulgação de suas imagens.

DISCUSSÃO

Fístulas salivares congênitas podem ter origem na glândula parótida, glândula submandibular, glândulas salivares ectópicas e, mais raramente, em glândulas parotídeas acessórias^{2,4}. Os locais de abertura dos orifícios fistulosos podem ser na região retroauricular, região jugal, mucosa oral e região cervical. As fístulas originárias de glândulas parotídeas acessórias apresentam aspecto típico de exteriorização na região jugal, próximas às comissuras bucais e quase sempre estão acompanhadas de apêndices cutâneos⁵. São bilaterais em um terço dos casos, com o lado direito sendo mais comum (4:1)⁶. As glândulas parotídeas acessórias sem fístula são bem mais comuns, e estudos de dissecação de cadáveres mostram incidência de até 21%³. Estas glândulas acessórias quase sempre têm relação de proximidade e de drenagem de seu ducto principal com o ducto de Stensen⁷.

O processo embriológico de formação das fístulas salivares ainda não está estabelecido. Algumas teorias associam a sua formação à migração aberrante de tecidos embrionários responsáveis pela formação das glândulas salivares e parótida. Esta migração anormal estaria relacionada aos defeitos do aparelho branquial⁸. Outras teorias

Figura 5 – Caso 3. Paciente com 9 anos, sexo feminino, com microsomia craniofacial à esquerda.
A. Fístula salivar a 3 cm da comissura labial à direita. B. Foto intra-operatória demonstrando a ressecção da fístula.



cogitam a possibilidade de heteroplasia das células ectodérmicas, que regridiriam no processo de diferenciação⁶.

O diagnóstico diferencial com relação às patologias com origem no 2º arco branquial pode ser feito clinicamente. As características semelhantes entre as duas patologias incluem: a mesma localização (anterior à borda anterior do músculo esternocleidomastóide), presença já ao nascimento, drenagem de secreção de forma intermitente⁹. As características próprias das fístulas salivares aberrantes são a ausência de história de infecção e o fato de os episódios de drenagem geralmente ocorrerem abruptamente após sensação de aumento de volume da área da lesão. A quantidade de drenagem aumenta durante a alimentação⁶. O diagnóstico final é feito com a fistulografia, que demonstra o trajeto fistuloso terminando em fundo de saco de aspecto arboriforme, diferente da característica cística encontrada nos casos de fístula do 2º arco branquial. O tratamento consiste na ressecção de todo trajeto fistuloso e da glândula acometida. Cuidado se deve ter com os ramos bucais do nervo facial.

Com relação a esta hipótese etiológica, algumas dúvidas persistem. Os arcos faríngeos iniciam a sua formação na 4ª semana de gestação, sendo o 2º arco faríngeo o responsável pela gênese da musculatura da expressão facial entre outras estruturas^{10,11}. As glândulas salivares e a parótida aparecem a partir da 6ª semana de gestação, por proliferação do epitélio bucal. Sendo as fístulas salivares congênicas advindas de glândulas distópicas, acessórias ou aberrantes (estas últimas com função de secreção salivar sem relação com estímulos alimentares), como explicar a presença de fístula salivar, que seria formada após a 6ª semana de gestação, já que a embriogênese dos músculos

faciais já estaria definida na 4ª semana pelo 2º arco faríngeo? Ou existe a possibilidade migratória transmuscular ativa ou a relação de tempo para estas má formações deverá ser reestudada na sua cronologia. A presença de duas fístulas de 1º arco faríngeo no caso 2 reforça a hipótese de alteração embriogênica combinada.

REFERÊNCIAS

1. Hemenway WG, Bergstrom L. Parotid duct fistula: a review. *South Med J.* 1971;64(8):912-8.
2. Yamasaki H, Tashiro H, Watanabe T. Congenital parotid gland fistula. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 1986;15(4):492-4.
3. Frommer J. The human accessory parotid gland: its incidence, nature, and significance. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1977;43(5):671-6.
4. Jernstrom P, Prietto CA. Accessory parotid gland tissue at base of neck. *Arch Pathol.* 1962;73:473-80.
5. Naguru H, Miyazawa M. A case of congenital salivary fistula associated with aural appendix. *Jpn J Oral Surg.* 1972;18:165-8.
6. Kim YS, Park CS, Lee JD, Kim H, Choi IJ. Heterotopic salivary gland located in the middle neck. *Yonsei Med J.* 1988;29(3):295-9.
7. Moon WK, Han MH, Kim IO, Sung MW, Chang KH, Choo SW, et al. Congenital fistula from ectopic accessory parotid gland: diagnosis with CT sialography and CT fistulography. *AJNR Am J Neuroradiol.* 1995;16(4 Suppl):997-9.
8. Sen A, Bhardwaj M. Salivary fistulae. *Pediatr Surg Int.* 2000;16(7):510-1.
9. Rothner AD. Aberrant salivary fistulas. *J Pediatr Surg.* 1973;8(6):931-3.
10. Moore KL, Persaud TVN. Aparelho faríngeo (branquial). In: *Embriologia clínica.* 6ª ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan; 2000.
11. Chilla R. Missbildungen der Speicheldrüsen aus klinischer Sicht. *HNO.* 1985;33(2):70-4.