

Recurrent sialolithiasis in a patient with vitamin D hypovitaminosis

Jelena Gavrić^{1*}, Svetlana Valjarević^{1,2}, Đorđe Nađević¹, Goran Trajković¹

¹Clinical Hospital Center Zemun, Belgrade, Serbia

²Faculty of Medicine, University of Belgrade, Serbia

*Correspondence should be addressed to Jelena Gavrić (gavric.jelena95@gmail.com)

Abstract

We present a case of a patient with recurrent sialolithiasis. Sialolithiasis is a condition characterized by mechanical obstruction of the excretory ducts of the salivary glands. The etiology of calculus formation remains unclear. Preoperative laboratory analyses indicated vitamin D deficiency. Computed tomography revealed calculi in the parenchyma of the deep lobe of the right parotid gland and in Stenson's duct, which were surgically removed. A review of the literature shows no correlation between calcium levels of serum and saliva. However, vitamin D has an anti-inflammatory role, and its deficiency may lead to sialoadenitis, thus promoting sialolithiasis. The aim of this case presentation is to emphasize how changes in saliva composition and vitamin D deficiency may influence recurrent sialolithiasis.

Keywords: recurrent sialolithiasis, parotid gland, vitamin D

Rekurentna sijalolitijaza kod pacijentkinje sa hipovitaminozom vitamina D

Sažetak

Prikazujemo slučaj pacijentkinje sa rekurentnom sijalolitijazom. Sijalolitijaza je stanje koje karakteriše mehaničku opstrukciju izvodnih kanala pljuvačnih žlezdi. Etiologija formiranja kalkulusa je i dalje nejasna. Preoperativne laboratorijske analize su ukazale na hipovitaminozu vitamina D. Kompjuterizovanom tomografijom vizuelizovani su kalkulusi u parenhimu dubokog reznja desne parotidne žlezde i u Stenonovom duktusu, koji su hirurški odstranjeni. Uvidom u dostupnu literaturu, ne postoji korelacija između vrednosti kalcijuma u serumu i salive. Međutim vitamin D ima i svoju antiinflamatornu ulogu, te nedostak može dovesti do sialoadenitisa i tako pospešiti sijalolitijazu. Cilj ovog prikaza slučaja jeste da naglasimo kako promene sastava salive i hipovitaminoza vitamina D mogu uticati na rekurentu sijalolitijazu.

Ključne reči: rekurentna sijalolitijaza, parotidna žlezda, vitamin D

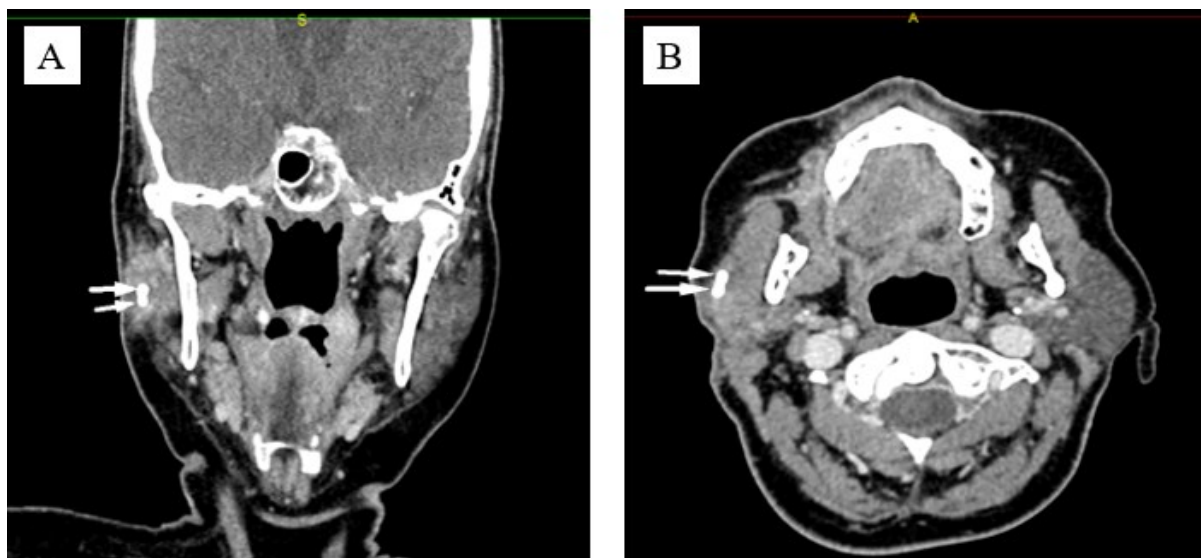
Uvod

Sijalolitijaza je stanje koje karakteriše mehaničku opstrukciju izvodnih kanala pljuvačnih žlezda. Javlja se kod oko 60 slučajeva na milion stanovnika godišnje, odnosno kod oko 1,2% opšte populacije i to češće kod pacijenata muškog pola (2:1) u trećoj i četvrtoj deceniji života. U 80% slučajeva zahvaćene su podvilične pljuvačne žlezde, a u oko 10% slučajeva zaušne žlezde^{1,2}. Etiologija formiranje kalkulusa je i dalje nejasna, međutim sastav salive, nepravilnosti izvodnih kanala, infekcija i lokalna iritacija mogu doprineti mikrokalifikaciji i daljem taloženju neorganskih i organskih jedinjenja³. Pljuvačni kamenci se prvenstveno sastoje od kalcijum-fosfata i karbonata u kombinaciji sa glikoproteinima i mukopolisaharidima. Sijalolitijaza se klinički manifestuje bezbolnim ili bolnim otokom pljuvačne žlezde posebno tokom unosa hrane⁴.

Cilj ovog prikaza slučaja jeste da naglasimo kako promene sastava salive i hipovitaminoza vitamina D mogu uticati na rekurentu sijalolitijazu.

Prikaz slučaja

Pacijentkinja starosti 62 godine je primljena na odeljenje maksilofacijalne hirurgije zbog dugotrajnog bolnog otoka desne parotidne žlezde. Anamnestički se dobija podatak da je unazad dve godine ukupno sedam puta lečila sijalolitijazu i da je pre osam meseci učinjena superficijalna parotidektomija desno (hirurško odstranjivanje površnog reznja parotidne žlezde). Od komorbiditeta kod pacijentkinje je postojao povišen krvni pritisak lečen ACE inhibitorima (inhibitori angiotenzin-konvertujućeg enzima). Pacijentkinji je odstranjena žučna kesa zbog kalkuloze šest godina pre prijema u našu ustanovu. Kliničkim pregledom na prijemu konstatuje se palpatorno bolno osetljiv otok parotidne žlezde sa desne strane relativno tvrde konzistencije. Pri bimanuelnoj palpaciji desne parotidne žlezde dobija se oskudna, gusta saliva. Zbog povišenih vrednosti paratireoidnog hormona uz fiziološke vrednosti kalcijuma i fosfora (Ca: 2,3, P: 1,07) konsultovan je endokrinolog, koji se izjasnio da su povišene vrednosti paratireoidnog hormona najverovatnije poreklom deficita vitamina D. Laboratorijske analize seruma su pokazale da se zaista radi o hipovitaminozi vitamina D sa vrednošću 0,70 nmol/L. Pacijentkinja je takođe ispitana od strane reumatologa i antitela za autoimunske bolesti vezivnog tkiva su bila negativna. Preoperativno učinjena je detaljna radiološka dijagnostika, ultrazvukom i kompjuterizovanom tomografijom vizuelizovani su kalkulusi u parenhimu dubokog reznja desne parotidne žlezde i u Stenonovom duktusu. (Slika 1a i 1b).



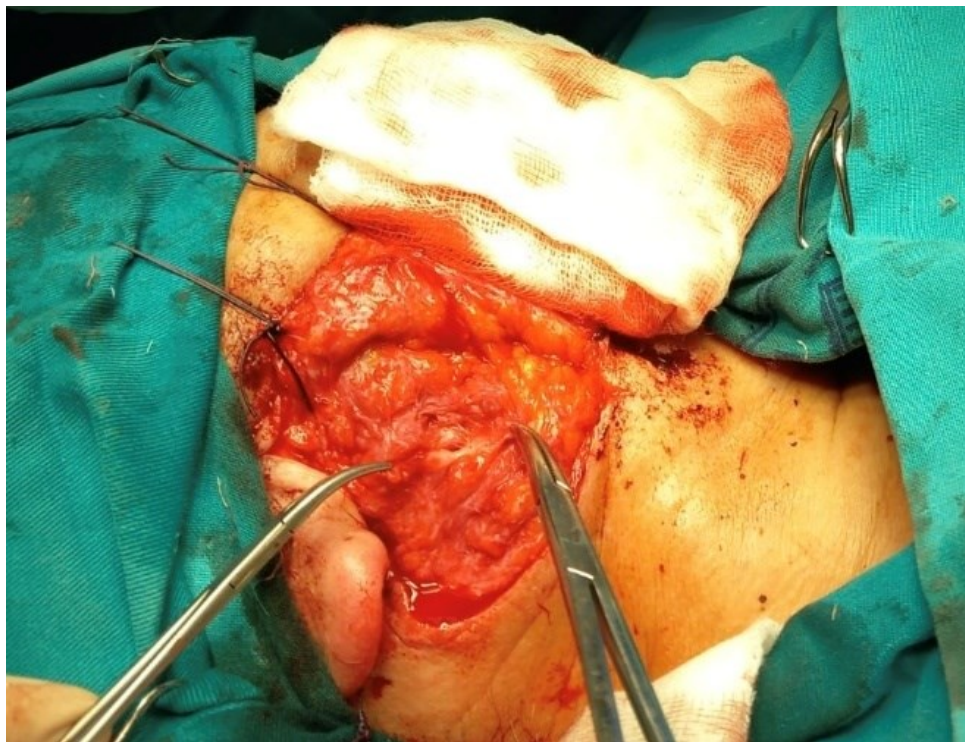
Slika 1. (a) Kompjuterizovana tomografija endokranijuma i vrata u koronarnoj projekciji. (b) Kompjuterizovana tomografija glave i vrata u aksijalnoj projekciji. Strelice pokazuju kalkuluse u parotidno žlezdi.

U uslovima opšte endotrahealne anestezije modifikovanim Blairvim rezom odstranjeni su intraduktalni i intraparenhimalni kalkulus (slika 2).

Facijalni živac i izvodni kanal parotidne žlezde su sačuvani. Operativni i rani postoperativni tok su protekli bez komplikacija. Konci su uklonjeni desetog postoperativnog dana. Ordiniran je antibiotik iz grupe linkozamida. Od strane endokrinologa ordinirana je suplementacija vitamina D. Na kontrolnom ultrazvučnom pregledu posle šest meseci nisu opisani znaci sijalolitijaze pljuvačnih žlezda.

Diskusija

Rekurentna sijalolitijaza je opisana kod 1% do 10% svih pljuvačnih žlezda⁴. U ovogodišnjoj literaturi, prema Tarazis i autorima, ponovna pojava kamenčića u submandibularnoj žlezdi nakon inicijalnog transoralnog uklanjanja zabeležena je u rasponu od 0,5% do 19%⁵.



Slika 2. Intraoperativni nalaz i prikaz Stenonovog duktusa

U jednoj epidemiološkoj studiji od 1987. do 2009. godine opisano je da je distalni Stenonov duktus bila primarna lokalizacija za kamenčiće u parotidnim žlezdama (83%), dok je samo 17% bilo locirano intraparenhimalno. Multipla slijalotijaza je opisana u 16,9% slučajeva⁶. U ličnoj anamnezi smo saznali da je naša pacijentkinja lečila kalkulozu žučne kese i da koristi ACE inhibitore. Jedna koreanska kohortna studija analizirala je pojavu sijalolitijaze nakon holelitijaze, kod koje je zaključano da ne postoji statistički značajna povezanost⁷. Međutim upotreba ACE inhibitora može da poveća rizik sialoadenitisa i pojave kamena, jer edemom žlezdanog tkiva dovode do usporenog protoka salive i samim tim do rizika od superinfekcije i taloženja organskih i neograničkih materija⁸. Bilateralne multiple intraparenhimne kalcifikacije u parotidnim žlezdama mogu biti povezane sa Sjogrenovim sindromom i karakterističan su nalaz na kompjuterizovanoj tomografiji. Osim kod Sjogrenovog sindroma, povezanost višestrukih kalcifikacija s drugim inflamatornim bolestima vezivnog tkiva nisu detaljno istražene⁹. Poznato je da promene elektrolitnog sastava salive mogu da pospešuju formiranje kalkulusa. U jednoj američkoj prospektivnoj studiji analizirane su razlike vrednosti elektrolita u plazmi i salive, kao i nivoi glikoproteina kod sijalolitijaze. Konstatovano je da je elektrolitni sastav salive relativno nezavistan od koncentracija u plazmi, budući da se elektroliti aktivno transportuju u salivu putem jonskih kanala. U toj studiji nije pronađena povezanost između nivoa elektrolita u serumu i salive³. Iako nivo kalcijuma ne utiče direktno na sijalolitijazu, sama hipovitaminoza vitamina D može da pospešuje formiranje kalkulusa. Pored regulacije kalcijuma u serumu, vitamin D ima i svoju antiinflamatornu ulogu. U različitim radovima opisano je da smanjene vrednosti vitamina D lakše dovode do sialoadenitisa i da su često su udružene sa autoimunskim oboljenjima, pogotovo Sjogrenovom sindromom¹⁰.

Zaključak

U slučajevima ponavljajuće sijalolitijaze pljuvačnih žlezda, obavezne su analize elektrolitnog statusa, kako bi se korigovanjem istog eliminisao razlog nastajanja kalkuloze. Pravovremeno dijagnostikovanje elektrolitnog ili vitaminskog disbalansa neophodno je da bi se sprečile epizode sialoadenitisa i sijalolitijaze, ali i

da bi se dijagnostikovala i lečila brojna endokrinološka, nefrološka, gastroenterološka ili onkološka oboljenja koja dovode do poremećaja metabolizma kalcijuma u organizmu, a potencijalno mogu biti i životno ugrožavajuća.

Literatura

1. Probst R, Grevers G, Iro H. Basic Otorhinolaryngology: A Step-by-Step Learning Guide. 2nd ed. Thieme; 2018. p. 140.
2. Sodnom-Ish B, Eo MY, Mustakim KR, Cho YJ, Kim SM. Elemental characteristics of sialoliths extracted from a patient with recurrent sialolithiasis. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg.* 2024;50(2):94-102.
3. Stelmach R, Pawłowski M, Klimek L, Janas A. Biochemical structure, symptoms, location and treatment of sialoliths. *J Dent Sci.* 2016;11(3):299-303.
4. Cummings CW, Haughey H, Regan T, Harker L, Flint P. Cummings Otolaryngology: Head and Neck Surgery. 7th ed. Elsevier Mosby; 2020. p. 1157.
5. Tarazis K, Garefis K, Chatziavramidis A, Konstantinidis I. Recurrent Sialolithiasis following Intraoral Deep Hilar/Intraparenchymal Stone Removal from Wharton's Duct. *J Clin Med.* 2024;13(3).
6. Sigismund PE, Zenk J, Koch M, Schapher M, Rudes M, Iro H. Nearly 3,000 salivary stones: Some clinical and epidemiologic aspects. *Laryngoscope.* 2015;125(8):1879-1882.
7. Kim SY, Kim HJ, Lim H, Lim MS, Kim M, Park IS, Choi HG. Association between cholelithiasis and sialolithiasis: Two longitudinal follow-up studies. *Medicine (Baltimore).* 2019;98(25):e16153.
8. Moss JR, Zanation AM, Shores CG. ACE Inhibitor Associated Recurrent Intermittent Parotid Gland Swelling. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2005;133(6):992-994.
9. Jáuregui E, Kiringoda R, Ryan WR, Eisele DW, Chang JL. Chronic parotitis with multiple calcifications: Clinical and sialendoscopic findings. *Laryngoscope.* 2017;127(7):1565-1570.
10. Mehta V, Peredo-Wende R. Association Between Vitamin D and Minor Salivary Gland Inflammation. *Cureus.* 2022;14(12):e32160.

Publisher's Note Publisher remains neutral with regard to jurisdictional claims in published maps and institutional affiliations