

PERSISTÊNCIA DA ARTÉRIA TRIGEMINAL PRIMITIVA ASSOCIADA COM ANEURISMA DA ARTÉRIA CEREBRAL MÉDIA

RELATO DE CASO E REVISÃO DA LITERATURA

MAURO AUGUSTO DE OLIVEIRA*, CAIO C. D. GROTTA**, MARUSHCKA S.F. ASSIS***

RESUMO - Os autores apresentam um caso, demonstrado angiograficamente, de achado incidental de artéria trigeminal primitiva persistente associada com aneurisma do polígono de Willis no território da artéria cerebral média. A propósito, a literatura é revisada e a embriologia envolvida relatada.

PALAVRAS-CHAVE: artéria trigeminal persistente, aneurisma cerebral, embriologia.

Persistent trigeminal artery associated with aneurysm of the middle cerebral artery: case report and literature review

ABSTRACT - The authors report a case of persistent primitive trigeminal artery angiographically demonstrated as an incidental finding. The persistent primitive trigeminal artery was associated with an aneurysm arising from the circle of Willis in the middle cerebral artery territory. The literature is reviewed and the embryology involved is related.

KEY WORDS: persistent trigeminal artery, cerebral aneurysm, embryology.

O conhecimento da anastomose arterial anômala entre a artéria carótida interna (ACI) e o sistema basilar pode ser fundamental no planejamento terapêutico das doenças cerebrovasculares. Em ordem decrescente de frequência encontramos persistência da artéria trigeminal, hipoglôssica e auditiva, as quais são denominadas de acordo com o nervo craniano ao qual elas são paralelas²⁵. A observação da persistência de vasos embrionários é acontecimento raro, cuja demonstração angiográfica constitui achado ocasional. A artéria trigeminal primitiva persistente (ATPP) é usualmente encontrada incidentalmente em angiografias cerebrais ou em autópsias e tem pouco ou nenhum significado patológico ou clínico. Ela é encontrada em 0,1% a 0,6% de todas as angiografias^{7,12,13,22}. O achado de estrutura vascular, aneurisma, placa aterosclerótica ou canal anômalo com compressão de um nervo craniano, causando algum grau de dor ou parestesia, tem sido frequentemente descrito^{2,3,14,20}. Dor ou espasmo facial têm sido observados como manifestação clínica de persistência de anastomose da artéria trigeminal primitiva (ATP), auditiva ou hipoglôssica. A ATPP pode estar associada com outras anomalias cerebrovasculares que, pela relação anatômica, poderiam comprimir estruturas adjacentes. Jackson (1960) e Madonick (1962) relataram ATPP isolada associada com tic doloroso e paralisia recorrente do nervo oculomotor, respectivamente²³. Dos

*Coordenador do Departamento de Neurologia e Neurocirurgia do Hospital Municipal "Dr. Mário Gatti" (HMMG) de Campinas, Professor Assistente do Departamento de Neuro-Psiquiatria da Faculdade de Ciências Médicas da Pontifícia Universidade Católica de Campinas (PUCCamp); **Neurocirurgião do HMMG; ***Médica Residente do HMMG. Aceite: 15-agosto-1997.

pacientes com ATPP demonstrada angiograficamente, 13,8% tinham aneurisma intracraniano associado. É digno de nota que anastomoses desta natureza são mais do que de interesse teórico. Por exemplo, em casos de ATPP, existe aumento da incidência de aneurismas, episódios isquêmicos transitórios (TIA), infartos e hemorragias^{5,12}.

Relatamos o caso de um paciente com ATPP e aneurisma da artéria cerebral média (ACM).

RELATO DO CASO

AS, masculino, branco, pedreiro, 47 anos, internou no Hospital Municipal "Dr. Mário Gatti" com história de cefaléia holocraniana súbita seguida de perda de consciência. Ao exame, encontrava-se sonolento, sem sinais focais, com discreta rigidez de nuca. O líquido cefalorraquidiano mostrava-se hemorrágico. A angiografia digital dos 4 vasos revelou a presença de aneurisma sacular da ACM da porção M1 direita e uma ATP que se originava da artéria da ACI direita (Figs 1, 2). Com o quadro estabilizado, o paciente foi submetido a clipagem do aneurisma no décimo quinto dia de hospitalização. Realizou angiografia carotídea direita de controle no quarto dia de pós-operatório (Figs 3, 4), tendo recebido alta hospitalar no oitavo dia de pós-operatório sem déficits neurológicos.

REVISÃO DA LITERATURA

1. História

Quain, em 1884, foi o primeiro a descrever e ilustrar a ATPP em autópsia; depois, Ortel, em 1922, relatou que pontos de ramificação de artérias pré-segmentares no embrião permanecem como pequenos alongamentos da artéria carótida ou deixam uma cicatriz no seu ponto de obliteração; Sunderland (1941) encontrou 3 ATPP em 210 cérebros examinados em autópsias e coletou 12 casos previamente documentados²⁶.

Em 1944, Padget¹⁸ mostrou que, entre indivíduos com aneurismas cerebrais, o polígono de Willis mostrava um estágio primitivo de desenvolvimento em 50% dos casos. Dandy, em 1944, com base no estudo de Padget, foi da opinião que aneurismas cerebrais nascem do ponto de fraqueza, que representa um lugar de involução incompleta dos vasos embrionários. Os aneurismas que nascem da junção da artéria comunicante posterior e ACI, bem como os aneurismas que nascem da junção da artéria basilar com a artéria cerebral posterior (ACP), podem

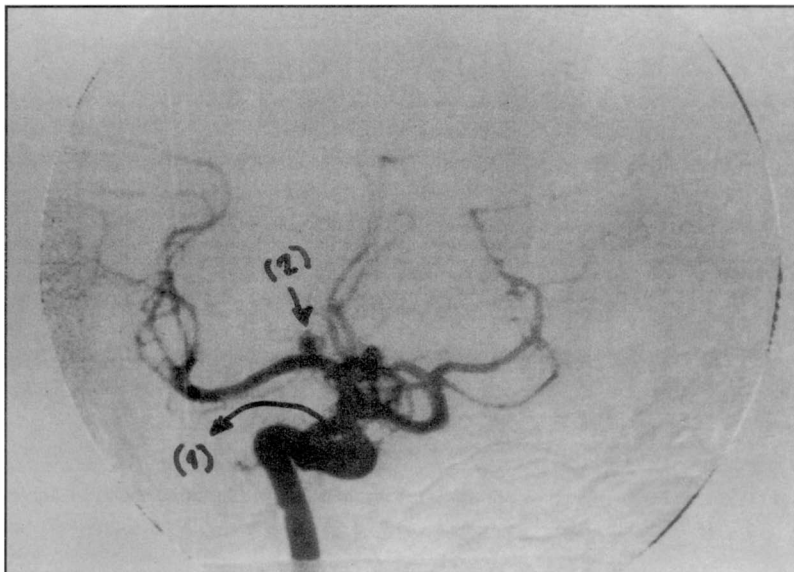


Fig 1. Estudo angiográfico (ântero-posterior) do sistema carotídeo direito fase arterial mostrando presença de artéria trigeminal primitiva (seta 1) e aneurisma da porção M1 da artéria cerebral média (seta 2).

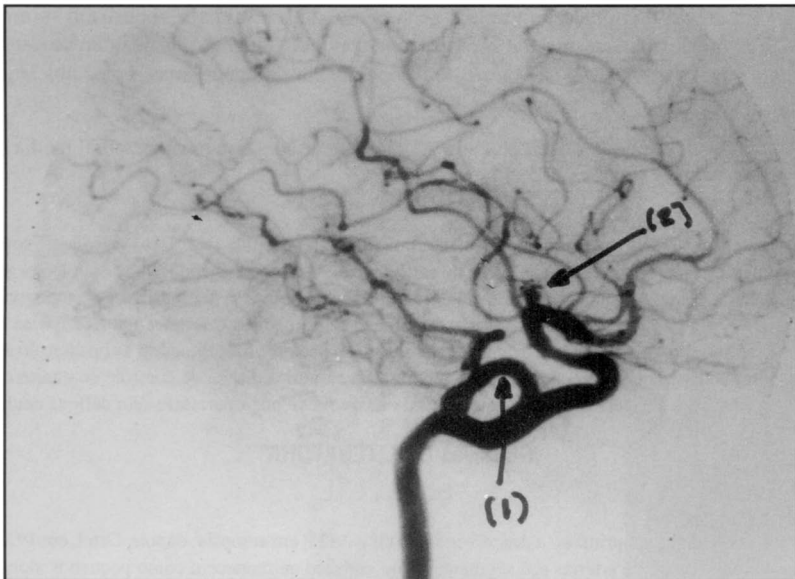


Fig 2. Estudo angiográfico em perfil do sistema carotídeo direito fase arterial mostrando presença de artéria trigeminal primitiva (seta 1) e aneurisma da porção M1 da artéria cerebral média (seta 2).

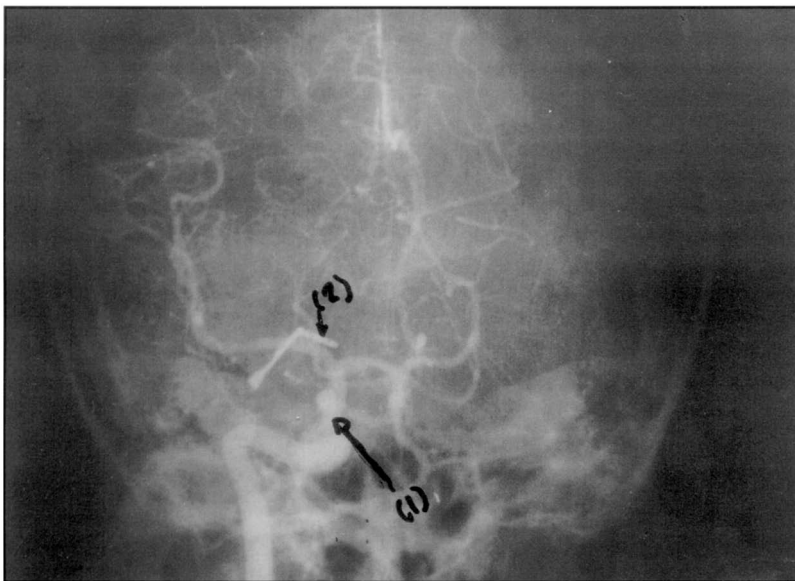


Fig 3. Estudo angiográfico (ântero-posterior) do sistema carotídeo direito fase arterial pós-operatório, mostrando presença de artéria trigeminal primitiva (seta 1) e aneurisma da porção M1 da artéria cerebral média (seta 2) clipado.

consequentemente ser explicados. Altmann (1947) também descreveu a ocorrência dessa anomalia baseado mais uma vez em achados de necrópsia. Padget (1948), em seu importante estudo sobre desenvolvimento das artérias cranianas no embrião humano¹⁸ sistematizou a evolução embriológica vascular cerebral do homem, precisando a localização e a nomenclatura destes canais primitivos²⁶.

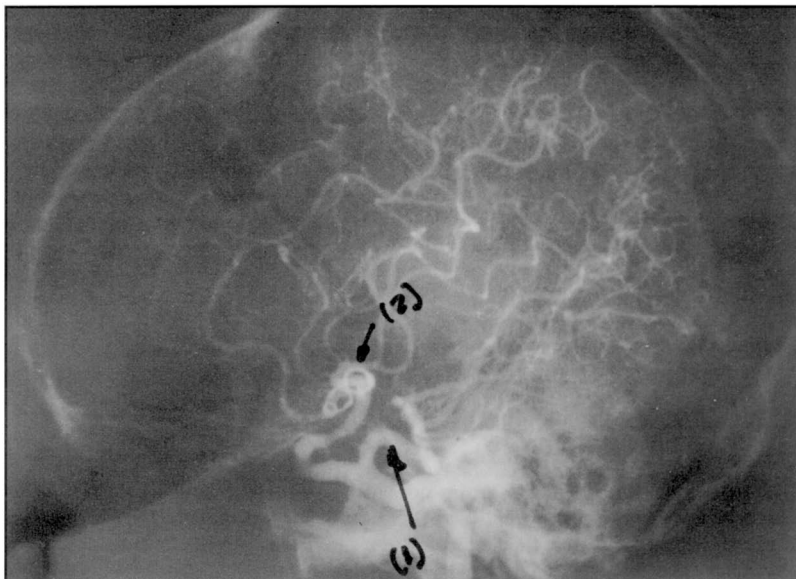


Fig 4. Estudo angiográfico em perfil do sistema carotídeo direito fase arterial pós-operatório mostrando presença de artéria trigeminal primitiva (seta 1) e aneurisma da porção M1 da artéria cerebral média (seta 2) clipado.

A primeira demonstração angiográfica de ATTP foi publicada por Sutton em 1950; Horrinson e Luttrele (1953) chamaram a atenção para a persistência de anastomose carótido-basilar em 3 casos demonstrados angiograficamente, em um com necropsia. Davis et al., relataram um aneurisma da ATTP em 1956, como parte de um estudo de ligadura da artéria carótida, porém não existe demonstração angiográfica deste caso³.

Höök, em 1958, mencionou que vasos embrionários persistentes poderiam ter defeitos estruturais em suas paredes provavelmente envolvendo uma predisposição para a formação de aneurismas ou rupturas; a esse respeito, Padget mencionou que, em casos de ATTP, a artéria basilar é caudal à anastomose e uma ou ambas artérias vertebrais são relativamente pequenas²⁶.

Modomick e Ruskin, em revisão feita em 1962 encontraram um total de 65 casos, 43 dos quais demonstrados por angiografia; esses autores relataram mais 3 pacientes e, posteriormente, foram publicados 23, perfazendo um total de 91 casos, 69 dos quais diagnosticados em vida; desde então, essa anomalia tem sido notada em 0,1% a 0,6% de todas as angiografias¹.

Em 1963, Bossi e Caffaratti relataram o primeiro caso de aneurisma da ATTP na sua origem da ACI. Em 1966, Wolpert relatou um caso de ATTP com um aneurisma nascendo da sua junção com a artéria basilar, sendo o primeiro a demonstrar angiograficamente este tipo de associação²⁶. George et al. (1971) relataram o caso de um paciente que apresentava aneurisma da ATTP nascendo próximo a sua origem⁷.

Em nosso meio, a primeira menção da observação da existência da ATTP coube a Zaclis em 1955, quando descreveu a persistência de anastomose carótido-basilar revelada pela angiografia carotídea esquerda de paciente com crise convulsiva; verificou, ainda, modificação no enchimento da ACP e da direção do fluxo sanguíneo na artéria anastomótica que, por diferença de pressão, se dá no sentido da ACI para a artéria basilar¹. Em 1965, Almeida e Longo descreveram mais 6 casos de ATTP, em pacientes cujas manifestações neurológicas não estavam relacionadas a elas, discutindo a importância e o significado dessa anastomose¹. Como ela pode se constituir na principal fonte de irrigação sanguínea da porção distal do sistema vertebrobasilar, sua oclusão direta ou da ACI homolateral, espontânea ou cirúrgica, poderá ocasionar isquemia do tronco cerebral, com consequências desastrosas^{4,6,10,15,16,21,24}.

2. Embriologia

Para entendimento da formação dessa configuração vascular, rara em adultos, foi necessário revisar o desenvolvimento embriológico da irrigação cerebral^{8,18}.

Durante o período embrionário, a anastomose do sistema carotídeo com o sistema vertebrobasilar faz-se através de três artérias: ATP, artéria auditiva primitiva e hipoglossica primitiva.

A ATP é o mais comum e proeminente dos três tipos de vasos anastomóticos primitivos. Nascedo do primeiro arco aórtico no 26º dia de gestação (embrião de 4 mm), a ATP supre duas artérias neurais longitudinais, as quais mais tarde se fundem para formar o tronco da artéria basilar. A ATP proporciona maior suprimento ao mesencefalo e rombencéfalo. Khodada¹¹ relatou ramos pontinos do tronco da ATP em fetos de 4-6 e 8 meses. Há uma falência da ATP, que envolveu aproximadamente no 46º dia de gestação (embrião de 14-15 mm).

Essas artérias desaparecem obedecendo a uma ordem. A artéria auditiva é a primeira a desaparecer, seguida pela artéria hipoglossica primitiva e finalmente pela ATP. Padgett¹⁸, em seu erudito estudo de embriologia, discutiu o papel da ATP e afirmou que a configuração da ATP no adulto é comparável àquela de um embrião de 11-14 mm. Ela acredita na regressão desses vasos por causa de alguns fatores: 1. subsequente desenvolvimento da ACP, a qual leva maior suprimento sanguíneo para a artéria basilar; 2. aumento da distância entre as artérias carótida e basilar; 3. interposição da lâmina do esfenóide. Ohshiro et al. (1993) descreveram, em autópsia (paciente de 83 anos), que a ATP passou através do forame localizado medialmente ao cavo de Meckel. Nessa passagem o diâmetro da ATP diminuiu marcadamente no forame. Postulou-se então que o forame dural pode ser visto como sítio de regressão da ATP durante o estágio embriológico¹⁷.

3. Anatomia

A ATP, como um vaso embrionário que ocasionalmente persiste na vida adulta e que comunica o sistema carotídeo ao sistema vertebrobasilar, origina-se da ACI imediatamente após deixar o canal carotídeo e cursa lateralmente ou através do dorso selar, em direção posterior até o terço distal da artéria basilar¹.

Krayenbühl e Yasargil relataram que a artéria trigeminal nasce da ACI antes desta entrar no seio cavernoso. Visto que o seio cavernoso é um plexo de veias sem limite inferior bem definido, Parkinson e Shields em 1974 foram relutantes em relatar categoricamente que a ATP se origina abaixo do seio cavernoso, mas seguramente relataram que ela se origina da ACI depois que a carótida penetra no crânio¹⁹.

Em 1993, Ohshiro et al., descreveram a presença de ramos da ATP como achado de autópsia. Usualmente os ramos primitivos da porção cavernosa da ACI são o tronco meningo-hipofisário (TMH), artéria inferior do seio cavernoso e artéria capsular de McConnell. Nesta porção temos a origem da ATP. Três casos, nos quais as relações entre os ramos normais da porção cavernosa da ACI e ATP, foram descritos. Parkinson e Shields relataram que a ATP e o TMH originavam-se de locais diferentes na porção cavernosa da ACI. Lie e Inoue observaram que o TMH ramificava fora da origem da ATP. No caso de Ohshiro et al., o TMH e a artéria inferior do seio cavernoso ramificavam-se fora da origem da ATP. Este fato pode sugerir que a ATP, o TMH e a artéria inferior do seio cavernoso estavam proximamente unidas no embrião. Observaram neste caso que a porção cisternal da ATP apresentava dois ramos, um dando origem a uma artéria alimentadora para a raiz esquerda do nervo trigêmeo e uma artéria perfurante para a ponte. O outro ramo perfurante dirige-se diretamente para a ponte. É altamente provável que estes ramos sejam vasos funcionantes do tronco cerebral em adultos¹⁷.

Com base em dados anatômicos Saltzman classificou a persistência da ATP em três tipos, de acordo com a participação na nutrição de vasos do polígono de Willis (Tabela 1).

4. Incidência de aneurisma intracranianos com ATP

A persistência de uma artéria embrionária na vida adulta significa uma alteração no desenvolvimento cerebrovascular. A existência da ATP ou a persistência de outra artéria embrionária frequentemente coexiste com: anomalia de curso ou distribuição dos vasos intracranianos como, por exemplo, hipoplasia ou aplasia da artéria comunicante posterior ipsolateral e assimetria do polígono de Willis, e lesões vasculares intracranianas como malformação arteriovenosa e aneurismas arteriais²⁶.

Uma revisão da literatura⁹ revelou 32 achados radiológicos de aneurismas intracranianos associados com 232 ATP, uma incidência de 13,8%, somente 3 aneurismas nascendo da ATP propriamente dita. O local mais frequente de associação de aneurisma intracraniano é aparentemente a ACI na origem da artéria comunicante posterior. Na série de George et al.⁹ (1965-1970) constam 19 casos de ATP, sendo 2 associados com aneurismas intracranianos, um dos quais nasceu da ATP propriamente dita, próximo à sua origem na ACI. Relatou-se ainda associação da existência de ATP com aneurismas da ACM e artéria comunicante posterior^{7,9,25,26}.

Temos ainda relatos de associação específica de ATP e aneurisma da ACM: Murtagh et al. (1955) descreveram ATP à esquerda associada com aneurisma da ACM do mesmo lado; Schaerer no mesmo ano descreveu ATP à direita associada com aneurisma da ACM do lado esquerdo e Ohshiro et al. (1993) descreveram ATP à esquerda associada com aneurisma da ACM do lado direito^{17,26}.

Tabela 1. Classificação da Persistência da ATP.

Typo 1	ATP promove nutrição sanguínea da porção rostral da artéria basilar e artéria cerebelar superior. Artéria comunicante posterior apresenta-se com pouco fluxo.
Typo 2	ATP promove nutrição sanguínea da artéria basilar, artéria cerebelar superior e artéria comunicante posterior contralateral. A artéria cerebral posterior homolateral é nutrida pela artéria cerebral posterior.
Typo 3	ATP promove a nutrição da artéria basilar e da artéria cerebelosa superior; ambas as artérias cerebrais posteriores são nutridas pelas artérias comunicantes posteriores correspondentes.

COMENTÁRIOS

Baseados nesta revisão da literatura, estamos de acordo com os autores que acreditam na existência de relação causal direta entre a persistência da ATP e patologias de desenvolvimento do polígono de Willis, principalmente aneurismas. Porém, em relação às demais patologias referidas na literatura, somos de opinião que exista apenas coincidência.

No entanto, sempre que possível, somos partidários de que se deve buscar a manutenção do canal anastomótico, para evitar riscos de lesões isquêmicas do tronco cerebral.

Agradecimentos - Cleide C. Lutitto, secretária do Departamento de Neurologia e Neurocirurgia do HMMG por sua dedicação na organização do arquivo de pacientes; e Carmem Nohemia P. de Paula, bibliotecária do Hospital Vera Cruz, pela ajuda no levantamento das referências bibliográficas.

REFERÊNCIAS

- Almeida GM, Longo PH. Anastomose carótido basilar: persistência da artéria trigeminal primitiva (6 casos) e da primeira artéria segmentar cervical (1 caso). *Rev Paul Med* 1965;67:195-202.
- Brihaye J, Perier O, Smulders J, Franken L. Glossopharyngeal neuralgia caused by compression of the nerve by an atheromatous vertebral artery. *J Neurosurg* 1956;13:299-302.
- Campbell RL, Dyken MI. Four cases of carotid-basilar anastomosis associated with nervous system dysfunction. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1961;24:250-253.
- Davis RA, Wetzel N, Davis L. An analysis of the results of intracranial vascular lesions by carotid artery ligation. *Ann Surg* 1956;143:641-650.
- Debrun GM, Davis KR, Nauta HJ, Heros RE, Ahn HS. Treatment of carotid cavernous fistulae or cavernous aneurysms associated with a persistent trigeminal artery: report of three cases. *AJNR* 1988;9:749-755.
- Enomoto T, Sato A, Maki Y. Carotid-cavernous sinus fistula caused by rupture of a primitive trigeminal artery aneurysm: case report. *J Neurosurg* 1977;46:373-376.
- Fields WS. The significance of persistent trigeminal artery: carotid-basilar anastomosis. *Radiology* 1968;91:1096-1101.
- Gradener WJ (ed). Trigeminal neuralgia. *Clinical neurosurgery*. Baltimore: Williams & Wilkins, 1968;15:1-56.
- George AE, Lin JP, Morantz RA. Intracranial aneurysm on a persistent primitive trigeminal artery: case report. *J Neurosurg* 1971;35:601-604.
- Heeney DJ, Koo AH. Bilateral cortical blindness associated with carotid stenosis in a patient with persistent trigeminal artery: case report. *J Neurosurg* 1980;52:709-711.
- Khodada G. Persistent trigeminal artery in fetus. *Radiology* 1976;121:653-656.
- Lajuanias P, Berensteins A (eds). Functional anatomy of craniofacial arteries. *Surgical neuroangiography*. Vol 1. Berlin: Springer 1987;61-63.
- Lei TA. Congenital malformation of the carotid and vertebral artery systems, including the persistent anastomoses. In Vinken PJ, Bruyn GW (eds). *Handbook of clinical neurology: vascular diseases of the nervous system*. Part II. Amsterdam: North Holland 1975;289-339.
- Lilie HJ, Craig WMcK. Anomalous vascular lesions in cerebellopontine angle: severe neurologic pain in ear and profound nervous disturbance, operation and recovery. *Arch Otolaryngol* 1936;23:642-645.
- Merry GS, Jameison KG. Operative approach to persistent trigeminal artery producing facial pain and diplopia: case report. *J Neurosurg* 1977;47:613-618.
- Morrison G, Hegarty WM, Brausch CC, Castele TJ, White RJ. Direct surgical obliteration of a persistent trigeminal artery aneurysm: case report. *J Neurosurg* 1974;39:249-251.

17. Oshiro S, Inoue T, Hamada H, Matsuno H. Branches of the persistent primitive trigeminal artery: an autopsy case. *J Neurosurg* 1993;32:144-148.
18. Padget DH. Development of cranial arteries in human embryo. *Contr Embryol Carneg Instn* 1948;32:205-261.
19. Parkinson D, Shields CB. Persistent trigeminal artery: its relationship to the normal branches of the cavernous carotid. *J Neurosurg* 1974;39:244-248.
20. Pope FM. Thrombosis of vertebral artery pressing on glossopharyngeal nerve: unilateral loss of taste at back of tongue. *Br Med J* 1889;2:1148-1149.
21. Quencer RM, Simon J. Transient bilateral occipital lobe ischemia; microembolization through a trigeminal artery. *Neuroradiology* 1979;12:273-275.
22. Samra K, Scoville WB, Yaghamai M. Anastomosis of the carotid and basilar arteries: persistent trigeminal primitive artery and hypoglossal artery. Report of two cases. *J Neurosurg* 1969;30:622-625.
23. Shintani S, Kazuhara S, Toyokura Y. MR imaging of persistent primitive trigeminal artery. *Neuroradiology* 1990;32:79.
24. Wise BI, Palubinskas AL. Persistent trigeminal artery (carotid-basilar anastomosis). *J Neurosurg* 1964;21:199-206.
25. Wollschlaeger G, Wollschlaeger PB. The circle of Wills. In Newton TH, Potts DG (eds). *Radiology of skull and brain*. St. Louis: Mosby 1974:1195-1196.
26. Wolpert SM. Trigeminal artery and associated aneurysms. *Neurology* 1966;16:610-614.