

Doença cística adventicial da artéria poplítea: relato de caso

Adventitial cystic disease of the popliteal artery: case report

Julio Cesar Peclat de Oliveira¹, Fernando Tebet Ramos Barreto¹, Diogo Di Battista de Abreu e Souza¹, João Marcos Fonseca e Fonseca², Bernardo de Castro Abi Ramia Chimelli¹, Ana Paula Rolim Maia Peclat³, Marcos Arêas Marques⁴, Stenio Karlos Alvim Fiorelli¹

Resumo

A doença cística adventicial da artéria poplítea é uma doença pouco frequente, que deve ser considerada no diagnóstico diferencial de pacientes jovens com claudicação intermitente e sem fatores de risco para doença arterial periférica aterosclerótica. Apresentamos um caso de claudicação intermitente de membros inferiores em paciente masculino de 51 anos no qual essa doença foi diagnosticada. Foi submetido a ressecção do segmento de artéria comprometido e interposição de safena autóloga ipsilateral. Discutimos alternativas diagnósticas e terapêuticas.

Palavras-chave: artéria poplítea; claudicação intermitente; enxerto vascular.

Abstract

Adventitial cystic disease of the popliteal artery is an uncommon pathology that should be considered in differential diagnostic of younger patients with intermittent claudication and without risk factors for peripheral atherosclerotic arterial disease. We report the case of a 51 year-old male patient presenting with lower-limb intermittent claudication in whom this pathology was diagnosed and who was treated with segmental arterial resection and autologous saphenous vein interposition. We also discuss diagnostic and therapeutic alternatives.

Keywords: popliteal artery; intermittent claudication; vascular grafting.

¹ Clínica Julio Peclat, Cirurgia Vascular, Rio de Janeiro, RJ, Brasil.

² Hospital Municipal Miguel Couto, Cirurgia Vascular, Rio de Janeiro, RJ, Brasil.

³ Clínica Julio Peclat, Clínica Médica, Rio de Janeiro, RJ, Brasil.

⁴ Universidade do Estado do Rio de Janeiro – UERJ, Angiologia, Rio de Janeiro, RJ, Brasil.

Fonte de financiamento: Nenhuma.

Conflito de interesse: Os autores declararam não haver conflitos de interesse que precisam ser informados.

Submetido em: Setembro 16, 2017. Aceito em: Dezembro 13, 2017.

O estudo foi realizado na Universidade Federal do Estado do Rio de Janeiro (UNIRIO), Rio de Janeiro, RJ, Brasil.

■ INTRODUÇÃO

A doença cística adventicial (DCA) é uma doença rara, caracterizada pela formação de cistos de conteúdo mucinoso na camada adventícia de veias ou artérias, de etiologia desconhecida e descrita pela primeira vez em 1947¹. O crescimento do cisto pode ocasionar redução do lúmen do vaso e, em associação ao fato de que a artéria poplítea é o vaso mais acometido, justifica o principal sintoma apresentado pelos pacientes ser a claudicação intermitente (CI) de pernas, em indivíduos de meia idade sem fatores de risco para doença aterosclerótica^{2,3}.

Apresentamos o caso de um paciente sem fatores de risco para doença arterial periférica (DAP) de origem aterosclerótica, com CI de perna esquerda ocasionada por DCA da artéria poplítea.

■ DESCRIÇÃO DO CASO

Paciente do sexo masculino, 51 anos de idade, praticante de atividade física regular (corredor de meia-maratona), sem fatores de risco para DAP aterosclerótica e sem patologias previamente conhecidas. Queixou-se de CI de membro inferior esquerdo para distâncias de aproximadamente 100 metros, iniciada havia oito meses, com piora progressiva que limitava o desempenho de suas atividades diárias regulares, sem outras queixas associadas no período. De relevância na história familiar, havia um irmão falecido por aneurisma de aorta abdominal roto, aos 53 anos.

Ao exame físico, observava-se diminuição da amplitude dos pulsos poplíteo e podais à esquerda, em comparação com o membro contralateral. Não havia diferenças significativas de temperatura ou coloração entre os membros. O índice tornozelo-braquial (ITB) em repouso, aferido nas artérias pediosas, era de 0,98 à direita e 0,68 à esquerda.

Foi solicitado eco-Doppler colorido (EDC) arterial de membros inferiores, que demonstrou a presença de lesões císticas de paredes finas e bem definidas adjacentes à artéria poplítea esquerda, causando compressão extrínseca da artéria (Figura 1). Não havia lesões nos outros segmentos arteriais estudados nesse membro, nem no membro contralateral. Prosseguiu-se a investigação com angiotomografia computadorizada (ATC) de membros inferiores, que corroborou a presença de imagem cística, assim como a estenose ocasionada na artéria poplítea esquerda (Figuras 2A e 2B).

Como a CI provocava grande limitação funcional ao paciente, foi indicado tratamento cirúrgico

convencional com ressecção do segmento arterial acometido e interposição com enxerto de veia safena autóloga reversa ipsilateral (Figuras 3, 4 e 5). O segmento arterial ressecado foi enviado para estudo anatomopatológico, que confirmou a presença de cisto mucinoso na camada adventícia da artéria poplítea.

O período pós-operatório transcorreu sem intercorrências, com aumento da amplitude dos pulsos podais em relação ao período anterior ao procedimento. Houve, ainda, aumento do ITB, que passou a ser de 0,91 no membro inferior esquerdo.

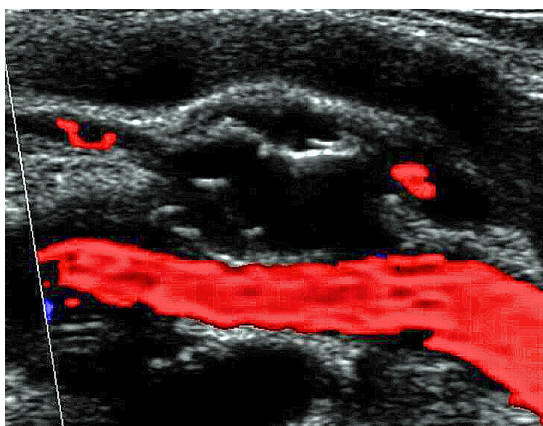


Figura 1. Eco-Doppler colorido arterial demonstrando lesão cística septada na camada adventícia da artéria poplítea esquerda, com compressão extrínseca e discreta redução do calibre do vaso.

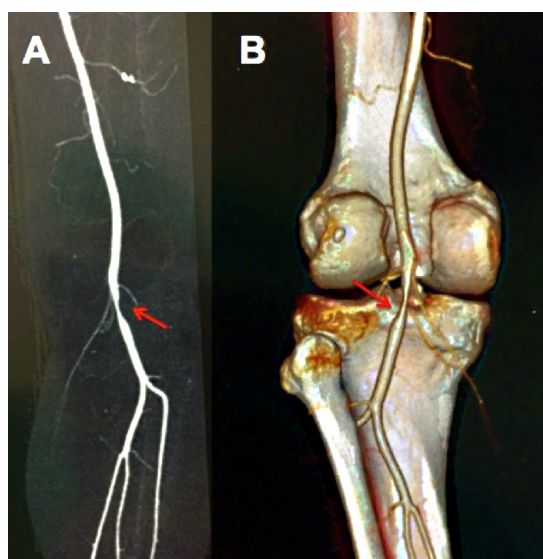


Figura 2. Reconstruções de angiografia evidenciando a estenose ocasionada pelo cisto em exposição anterior (A) e posterior (B).

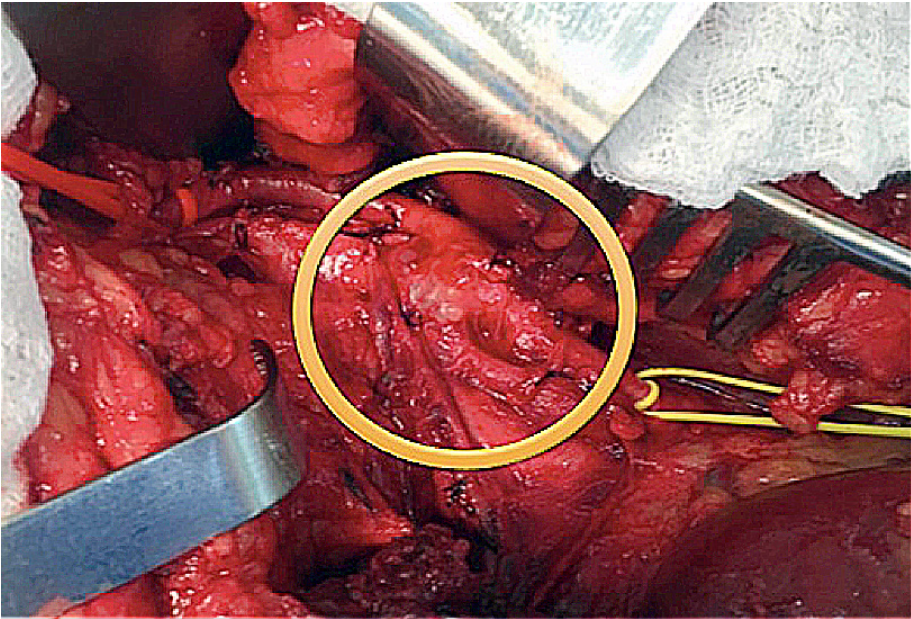


Figura 3. Segmento da artéria poplítea esquerda com múltiplos cistos de conteúdo mucinoso na camada adventícia.

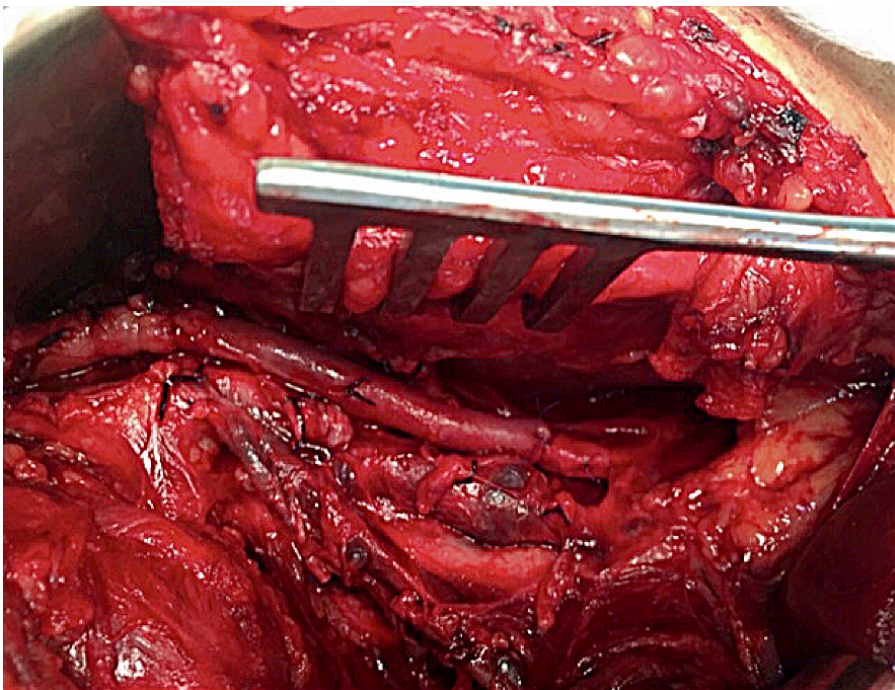


Figura 4. Após a ressecção do segmento afetado, foi realizada interposição de enxerto com veia safena reversa ipsilateral.

A alta hospitalar ocorreu 48 horas após a cirurgia. Em um mês, foi realizado novo EDC arterial do membro inferior esquerdo, que evidenciou fluxos normais, ausência de estenoses e curvas trifásicas em todos os segmentos estudados. Após dois anos do

procedimento, o paciente mantém-se assintomático, tendo retomado por completo todas as atividades que desempenhava antes do surgimento dos sintomas. Faz acompanhamento com EDC arterial anual, que, até o momento, demonstra bom resultado cirúrgico.

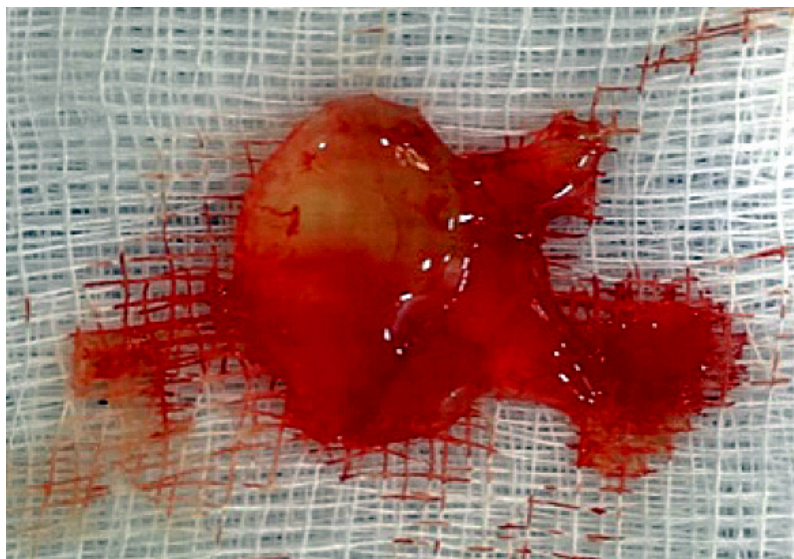


Figura 5. Cisto ressecado e isolado da artéria poplítea esquerda. Observa-se que apresenta paredes muito finas e conteúdo claro.

■ DISCUSSÃO

A DCA é uma doença rara e responde por um a cada 1.200 casos de CI de membros inferiores⁴. A artéria poplítea é o vaso mais acometido, mas há relato de doença em outros seguimentos arteriais e veias. Diferentemente dos aneurismas de artéria poplítea, o acometimento bilateral é extremamente raro. Há inúmeras teorias para o surgimento da doença, mas nenhuma se demonstrou definitiva até o momento.

A apresentação clínica clássica é a de um homem na quarta ou quinta década de vida com CI progressiva. Deve-se aumentar ainda mais o grau de suspeição se o paciente não apresenta fatores de risco clássicos para DAP de origem aterosclerótica⁵⁻⁷. O exame físico pode ser normal, mas pode ocorrer a redução ou abolição dos pulsos distais à flexão do joelho (sinal de Ishikawa)⁸.

A manifestação da doença se dá em consequência da compressão extrínseca da artéria acometida pelo cisto, podendo variar desde CI apenas em atividades extenuantes até oclusão arterial aguda, que pode ocorrer em até 30% dos casos⁹. A resolução espontânea do quadro clínico pode ocorrer, mas geralmente há reincidência da doença¹⁰.

Os exames de imagem são essenciais para confirmação do diagnóstico, sendo o EDC arterial o primeiro a ser solicitado na investigação da doença. Brodmann et al. sugere que esse é o método de imagem mais sensível para comprovação da DCA¹¹ e que a presença de uma imagem compatível com lesão cística (imagem hipoeoica ou anecoica) adjacente

à artéria, causando sua compressão, associada aos sintomas do paciente, é suficiente para indicar o tratamento cirúrgico.

A ressonância nuclear magnética (RNM) e a ATC apresentam melhor definição anatômica da região poplítea e devem ser realizadas para um adequado planejamento cirúrgico. A realização de angiografia como exame complementar é questionável por se tratar de um método invasivo e que pode não definir o diagnóstico, visto que o exame pode ser normal e, na ausência de estenoses, não é possível confirmar a presença do cisto, pois a angiografia só evidencia dados sobre a luz das artérias, e não sobre a sua parede. No entanto, a presença do sinal da cimitarra (Figura 6) na angiografia sugere o diagnóstico^{6,9}.

O tratamento está indicado sempre que a doença é limitante para o paciente. Em casos com pouco ou nenhum sintoma, cabe avaliar o risco e o benefício da realização do procedimento cirúrgico, visando impedir a progressão da estenose arterial e a sua potencial oclusão futura. As opções terapêuticas incluem: aspiração percutânea do cisto sob visão ultrassonográfica ou tomográfica, angioplastia percutânea com ou sem implante de *stent*, enucleação do cisto com manutenção das camadas média e íntima da artéria e ressecção segmentar da artéria acometida pela doença seguida de interposição com enxerto venoso^{12,13}.

A aspiração do cisto pode não ser possível por dificuldades em se conseguir uma janela para acessá-lo ou pela alta viscosidade do seu conteúdo. Além disso, a aspiração apresenta altos índices de recorrência,



Figura 6. Angiografia demonstrando o sinal da cimitarra, um afilamento alongado e curvilíneo da luz da artéria poplíteia (seta).

visto que as células responsáveis pela formação dos cistos são mantidas¹⁴.

O tratamento com angioplastia transluminal percutânea também não apresenta bons resultados, devido à reestenose por aumento da pressão extrínseca causada pelo cisto que não foi ressecado. O implante de *stents* em segmento de artéria poplíteia, especialmente em pacientes jovens, é ainda questionável^{13,15}.

Os melhores resultados são obtidos com a ressecção cirúrgica do cisto e da adventícia acometida, seja com manutenção ou ressecção segmentar da artéria^{7,16}. A ressecção com interposição de enxerto é recomendada principalmente nos casos em que há oclusão arterial.

■ CONCLUSÃO

A DCA da artéria poplíteia é rara e deve ser suspeitada em casos de CI de membros inferiores em pacientes jovens e com baixo ou nenhum risco para

DAP aterosclerótica. Por apresentar poucos sinais sugestivos ao exame físico, os exames de imagem são essenciais para o diagnóstico, sendo o EDC o exame mais sensível. A RNM e a ATC devem ser realizadas após a confirmação diagnóstica pelo EDC, para o planejamento terapêutico. O tratamento cirúrgico está indicado para todos os pacientes com limitação importante de suas atividades diárias. Os demais pacientes terão a indicação baseada em riscos e benefícios em longo prazo. A terapia de escolha é a ressecção do segmento arterial acometido e a interposição com veia autóloga, preferencialmente a safena magna ipsilateral reversa. Entendemos que essa é a terapia que confere maior certeza de ressecção de todo o tecido doente.

Por se tratar de uma doença rara, a literatura ainda é escassa e estudos com maiores números de participantes e com maior tempo de acompanhamento se fazem necessários para eliminar dúvidas existentes acerca da doença.

■ REFERÊNCIAS

1. Atkins HJ, Key JA. A case of myxomatous tumor arising in the adventitia of the left external iliac artery; case report. *Br J Surg.* 1947;34(136):426-7. PMID:20247247. <http://dx.doi.org/10.1002/bjs.18003413618>.
2. Peterson JJ, Kransdorf MJ, Bancroft LW, Murphey MD. Imaging characteristics of cystic adventitial disease of the peripheral arteries: presentation as soft-tissue masses. *AJR Am J Roentgenol.* 2003;180(3):621-5. PMID:12591663. <http://dx.doi.org/10.2214/ajr.180.3.1800621>.
3. Wright LB, Matchett WJ, Cruz CP, et al. Popliteal artery disease: diagnosis and treatment. *Radiographics.* 2004;24(2):467-79. PMID:15026594. <http://dx.doi.org/10.1148/rg.242035117>.
4. Elias DA, White LM, Rubenstein JD, Christakis M, Merchant N. Clinical evaluation and MR imaging features of popliteal artery entrapment and cystic adventitial disease. *AJR Am J Roentgenol.* 2003;180(3):627-32. PMID:12591664. <http://dx.doi.org/10.2214/ajr.180.3.1800627>.
5. Miller A, Salenius JP, Sacks BA, Gupta SK, Shoukimas GM. Noninvasive vascular imaging in the diagnosis and treatment of adventitial cystic disease of the popliteal artery. *J Vasc Surg.* 1997;26(4):715-20. PMID:9357478. [http://dx.doi.org/10.1016/S0741-5214\(97\)70076-4](http://dx.doi.org/10.1016/S0741-5214(97)70076-4).
6. Sys J, Michiels J, Bley J, Martens M. Adventitial cystic disease of the popliteal artery in a triathlete: a case report. *Am J Sports Med.* 1997;25(6):854-7. PMID:9397277. <http://dx.doi.org/10.1177/036354659702500621>.
7. Papavassiliou VG, Nasim A, Awad EM, Bell PR. Adventitial cystic disease of the popliteal artery: diagnosis and treatment - a case report. *J Cardiovasc Surg.* 2002;43(3):399-401. PMID:12055573.
8. Ishikawa K, Mishima Y, Kobayashi S. Cystic adventitial disease of the popliteal artery. *Angiology.* 1961;12(8):357-66. PMID:13718004. <http://dx.doi.org/10.1177/000331976101200804>.
9. Ortiz M WR, Lopera JE, Giménez CR, Restrepo S, Moncada R, Castañeda-Zúñiga WR. Bilateral adventitial cystic disease of the popliteal artery: a case report. *Cardiovasc Intervent Radiol.*

- 2006;29(2):306-10. PMID:16228854. <http://dx.doi.org/10.1007/s00270-004-0300-5>.
10. Zhang L, Guzman R, Kirkpatrick I, Klein J. Spontaneous resolution of cystic adventitial disease: a word of caution. *Ann Vasc Surg.* 2012;26(3):422.e1-4. PMID:22284772. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2011.05.044>.
11. Brodmann M, Stark G, Pabst E, et al. Cystic adventitial degeneration of the popliteal artery - the diagnostic value of duplex sonography. *Eur J Radiol.* 2001;38(3):209-12. PMID:11399375. [http://dx.doi.org/10.1016/S0720-048X\(00\)00302-8](http://dx.doi.org/10.1016/S0720-048X(00)00302-8).
12. Kikuchi S, Sasajima T, Kokubo T, Koya A, Uchida H, Azuma N. Clinical results of cystic excision for popliteal artery cystic adventitial disease: long-term benefits of preserving the intact intima. *Ann of Vasc Surg.* 2014;28(6):1567.e5-8.
13. Desy NM, Spinner RJ. The etiology and management of cystic adventitial disease. *J Vasc Surg.* 2014;60(1):235-45, 245.e1-11. PMID:24970659. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2014.04.014>.
14. Sieunarine K, Lawrence-Brown M, Kelsey P. Adventitial cystic disease of the popliteal artery: early recurrence after CT guided percutaneous aspiration. *J Cardiovasc Surg.* 1991;32(5):702-4. PMID:1939336.
15. Khoury M. Failed angioplasty of a popliteal artery stenosis secondary to cystic adventitial disease: a case report. *Vasc Endovascular Surg.* 2004;38(3):277-80. PMID:15181512. <http://dx.doi.org/10.1177/153857440403800314>.
16. Fox CJ, Rasmussen TE, O'Donnell SD. Cystic adventitial disease of the popliteal artery. *J Vasc Surg.* 2004;39(6):1351. PMID:15192581. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2003.09.021>.

Correspondência

Julio Cesar Peclat de Oliveira
Av. Lucio Costa, 3360, bloco 3, 3001 - Barra Tijuca
CEP 22630-010 - Rio de Janeiro (RJ) - Brasil
Tel.: (21) 99859-0160
E-mail: julioceclat@yahoo.com.br

Informações sobre os autores

JCPO - Mestre em Cirurgia Vascular pela Universidade Federal do Estado do Rio de Janeiro (UNIRIO), professor da Pós-Graduação em Cirurgia Vascular, UNIRIO.
FTRB - Membro da Diretoria Científica da Sociedade Brasileira de Angiologia e de Cirurgia Vascular (SBACV-RJ).
DDBAS - Membro da Diretoria Científica da Sociedade Brasileira de Angiologia e de Cirurgia Vascular (SBACV-RJ).
JMFF - Chefe do Departamento de Cirurgia Vascular do Hospital Municipal Lourenço Jorge.
BCARC - Membro da Diretoria Científica da Sociedade Brasileira de Angiologia e de Cirurgia Vascular (SBACV-RJ).
APRMP - Mestre em Gastroenterologia pela Universidade Federal do Rio de Janeiro (UFRJ), professora do Departamento de Clínica Médica na Universidade do Grande Rio (UNIGRANRIO).
MAM - Médico da Unidade Docente Assistencial de Angiologia do Hospital Universitário Pedro Ernesto, Universidade do Estado do Rio de Janeiro (UERJ).
SKAF - Professor da Pós-Graduação em Cirurgia Vascular da Universidade Federal do Estado do Rio de Janeiro (UNIRIO).

Contribuições dos autores

Concepção e desenho do estudo: JCPO, FTRB, DDBAS, JMFF, BCARC, APRMP, MAM, SKAF
Análise e interpretação de dados: JCPO, FTRB, DDBAS, JMFF, BCARC, APRMP, MAM, SKAF
Coleta de dados: JCPO, FTRB, DDBAS, JMFF, BCARC, APRMP, MAM, SKAF
Redação do artigo: JCPO, FTRB, DDBAS, JMFF, BCARC, APRMP, MAM, SKAF
Revisão crítica do texto: JCPO, FTRB, DDBAS, JMFF, BCARC, APRMP, MAM, SKAF
Aprovação final do artigo*: JCPO, FTRB, DDBAS, JMFF, BCARC, APRMP, MAM, SKAF
Análise estatística: N/A.
Responsabilidade geral pelo estudo: JCPO

*Todos os autores leram e aprovaram a versão final submetida ao J Vasc Bras.