

# Isquemia crítica em membro inferior em paciente jovem com doença cística de artéria poplítea

## *Critical limb ischemia in a young patient with cystic disease of the popliteal artery*

Michel Nasser<sup>1</sup>, Luca Giovanni Antonio Pivetta<sup>2</sup>, José Luis Teixeira Filho<sup>2</sup>, Evelin Schueteze Rocha<sup>2</sup>, Ana Eliza Botta<sup>2</sup>

### Resumo

Degeneração cística da artéria poplítea é uma doença vascular rara, de etiologia desconhecida, na qual um cisto com conteúdo mucinoide compromete a artéria e desenvolve estenose ou oclusão do vaso. Apresentamos um caso de um paciente do sexo masculino, 45 anos, admitido na emergência hospitalar, que apresentava quadro de isquemia aguda no membro inferior esquerdo. Submetido à EcoDoppler, angiorressonância magnética e angiografia pré-operatória. Realizada arterectomia com enxerto fêmoro-poplíteo infrainguinal de safena invertida. O exame patológico foi consistente com o diagnóstico de doença cística da artéria poplítea. O paciente encontra-se em acompanhamento ambulatorial e foi acometido pela doença cística no membro contralateral. Os autores descreveram os melhores métodos de diagnóstico e tratamento para a doença, discutindo se o procedimento de urgência foi o mais adequado e se haveria opções terapêuticas alternativas para o caso, além de qual seria a melhor conduta a ser realizada no membro contralateral também acometido pela doença.

**Palavras-chave:** claudicação intermitente; cisto; artéria poplítea.

### Abstract

Cystic adventitial disease of the popliteal artery is a rare vascular disease of unknown etiology in which a mucin-containing cyst may compromise the artery and, because of the compression, develops stenosis or occlusion of affected artery. We report the case of a 45-year-old male with cystic adventitial disease of the left popliteal artery, after admission for an acute limb ischemia in his left leg, diagnosed non-invasively with EcoDoppler vascular dual scan, magnetic resonance angiography, angiography. Performed complete removal of the cyst with arteriectomy and venous replacement. The pathologic result was consistent with the diagnostic of cystic adventitial disease. The patient is in ambulatory follow up and was affected by cystic disease in the contralateral limb. The authors described the best methods of diagnosis and treatment for cystic adventitial disease, discussing if the urgency procedure was the most appropriate and whether there was an alternative treatment for the case. Finally, questioning what would be the best procedure to be performed in the other limb.

**Keywords:** intermittent claudication; cyst; popliteal artery.

## PARTE I

---

### Caso

Paciente médico, masculino, 45 anos, não diabético, não hipertenso, não tabagista e esportista é admitido no Setor de Emergência Hospitalar com queixa de dor intensa, há 4 horas, em membro inferior esquerdo, diminuição de temperatura, ausência de pulso poplíteo e distais à esquerda, acompanhados da diminuição de sensibilidade no pé esquerdo,

porém, com motricidade preservada. Paciente refere quadro progressivo de claudicação intermitente nas panturrilhas bilateralmente que se iniciou há cerca de 1 ano e com piora para, aproximadamente, 120 m nos últimos dias.

Realizado índice tornozelo-braquial (ITB), com ITB=0,40 à esquerda e ITB=0,85 à direita. Submetido à ecografia com Doppler colorido mostrando aneurisma trombosado à esquerda e estenose de artéria poplítea direita de, aproximadamente, 50% – imagens em modo B (Figuras 1 e 2). O ultrassonografista vascular levantou

---

Trabalho realizado na Universidade Federal de São Carlos (UFSCar) – São Carlos (SP), Brasil.

<sup>1</sup> Docente do Departamento de Medicina da UFSCar – São Carlos (SP), Brasil.

<sup>2</sup> Alunos de Graduação de Medicina da UFSCar – São Carlos (SP), Brasil.

Fonte de financiamento: nenhuma.

Conflito de interesses: Luca Giovanni Antonio Pivetta é bolsista pelo Conselho Nacional de Desenvolvimento Científico e Tecnológico (CNPq) desenvolvendo um projeto de revisão da literatura sobre degeneração cística da artéria poplítea. Os demais autores não possuem qualquer conflito de interesse.

Submetido em: 07.05.11. Aceito em: 11.01.12.

J Vasc Bras. 2012;11(2):144-149.

a suspeita da presença de um possível cisto periarterial. Na imagem Doppler em cores, evidenciou-se a presença de estenose e uma compressão externa – possível cisto (Figura 3). Realizadas as manobras de flexão de joelhos

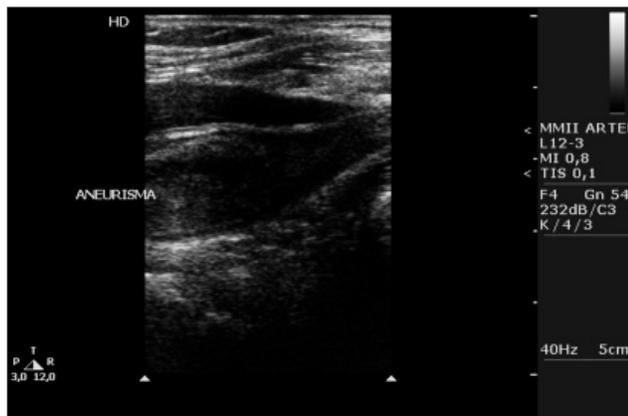


Figura 1. Ecografia modo B mostrando aneurisma trombosado à esquerda.



Figura 2. Ecografia modo B mostrando aneurisma trombosado à esquerda – imagem define de forma mais adequada a existência do trombo.

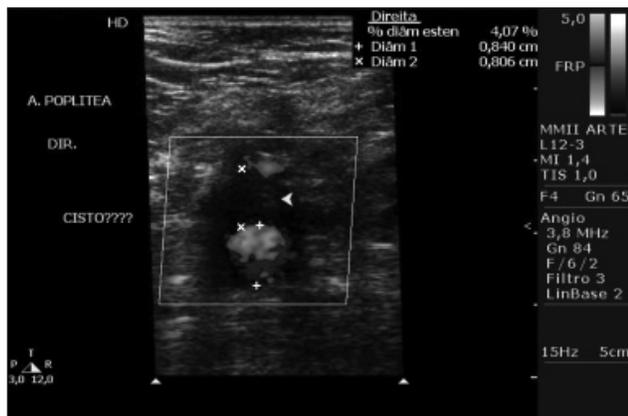


Figura 3. Estenose de 50% da artéria poplíteia direita, suspeita da presença de um possível cisto periarterial.

(Ishikawa) bilateralmente, com ausência de pulsos distais bilaterais. Realizadas também manobras de hiperextensão de pés, nas quais também ocorreu alteração no fluxo ao Doppler colorido.

O paciente foi submetido à angiorrressonância (RMA), mostrando oclusão arterial esquerda e sem sinais de oclusão contralateral e angiografia pré-operatória (Figura 4) e, a seguir, foi encaminhado para sala de cirurgia.

## PARTE II

Com o quadro de isquemia arterial aguda de membro inferior esquerdo há 6 horas, o paciente foi submetido à correção cirúrgica, sendo que foi observado material endurecido na parede da artéria poplíteia ocluindo a luz do vaso. Foi colhido material para análise.

O paciente foi submetido à arterectomia e enxerto fêmoro-poplíteia infragenicular esquerdo com safena invertida e bom resultado pós-operatório imediato. O anatomicopatológico mostrou a camada adventícia com espessamento na mesma proporção da íntima e com escassos espaços císticos (Figura 5). Foi detectada ausência de células gigantes multinucleadas, neutrófilos, eosinófilos e cristais, diferindo de outras arterites (Figura 6).

Esses achados sugeriram a doença cística da artéria poplíteia.

Após 30 dias, o paciente retorna apresentando claudicação para 70 m em membro inferior direito. Após 90 dias, apresenta claudicação para 120 m, optando-se por tratamento clínico com vasodilatador e antiagregante

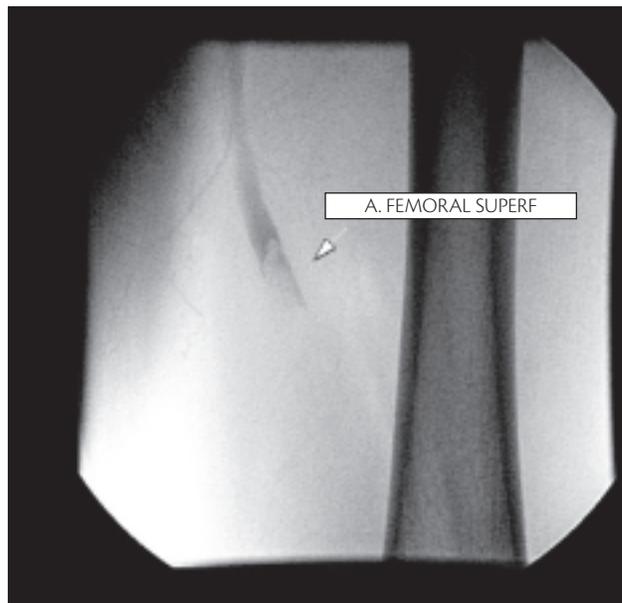
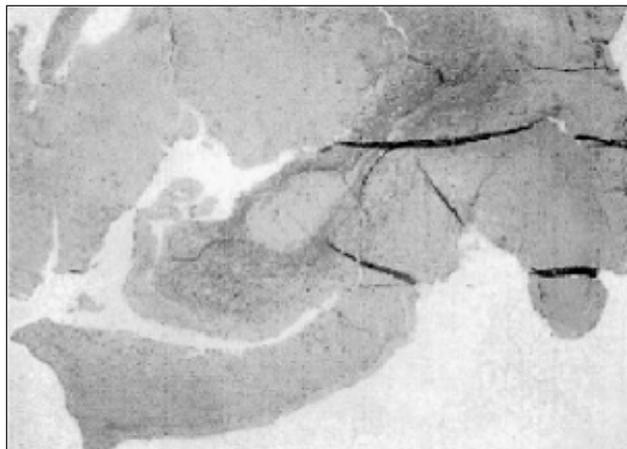
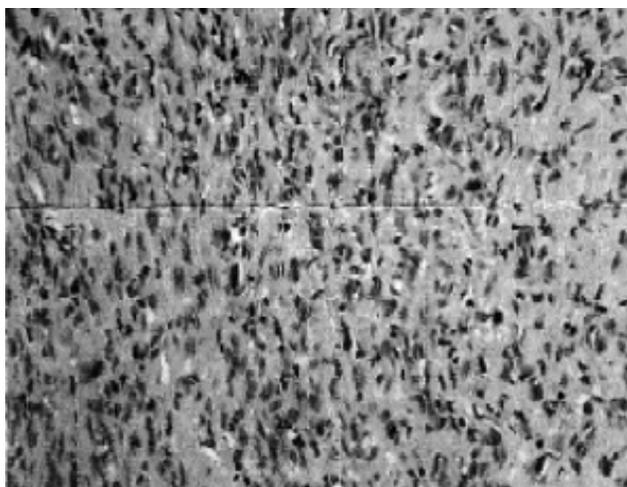


Figura 4. Angiografia pré-operatória.



**Figura 5.** Anatomopatológico coloração (mucicarmim) evidenciando a camada adventícia com espessamento na mesma proporção da íntima e com escassos espaços císticos.



**Figura 6.** Coloração por hematoxilina-eosina demonstrando ausência de células gigantes multinucleadas, neutrófilos, eosinófilos e cristais, diferenciando de outras arterites.

plaquetário e, após 180 dias, apresenta claudicação para 150 m, sendo solicitados novos exames de imagem: angiografia (Figura 7) e angiotomografia (Figuras 8 e 9), que mostram a doença cística acometendo o membro inferior direito.

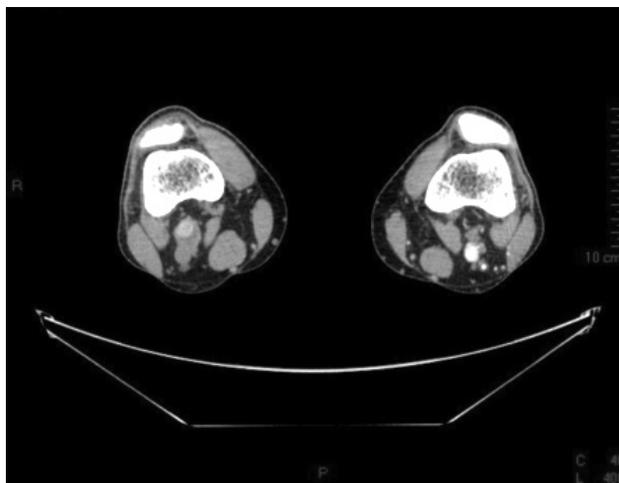
O procedimento de escolha foi adequado? Teríamos opções terapêuticas alternativas para o caso? O que seria melhor realizar no membro contralateral que também tem a doença?

## Discussão

A doença cística das artérias (DCA) caracteriza-se pela presença de cistos, geralmente multiloculados, situados



**Figura 7.** Angiografia do membro contralateral revelando a presença de cistos multiloculados.



**Figura 8.** Angiotomografia – corte transversal evidenciando a presença de cistos.

no interior da parede arterial. Os cistos, preenchidos por substância gelatinosa e viscosa, podem comprometer a adventícia e a camada média das artérias e, pela pressão existente em seu interior, ocasionam estenose ou oclusão da artéria afetada. Também é chamada de degeneração cística da adventícia<sup>1</sup>, doença cística da adventícia<sup>2,3</sup>, cisto colóide da adventícia<sup>4</sup>, doença cística mucinosa da parede arterial<sup>5</sup>, cisto de adventícia da artéria poplítea<sup>6,7</sup>, além de outros<sup>8-10</sup>. Tanto degeneração cística da adventícia como doença ou cisto de adventícia são denominações restritas,



Figura 9. Angiotomografia – corte sagital evidenciando a presença de cistos.

que não englobam todos os casos, pois há ocasiões em que os cistos situam-se na face externa da camada média da artéria<sup>4</sup>. Denominações mais abrangentes, tais como degeneração ou doença cística da parede arterial ou, ainda, degeneração ou doença cística da artéria poplítea, por exemplo, seriam mais apropriadas<sup>11,12</sup>.

A etiopatogenia da doença permanece desconhecida, no entanto, quatro teorias tentam explicá-la: microtraumas<sup>13</sup>; doença sistêmica<sup>4</sup>; origem embrionária<sup>14</sup>; cistos sinoviais verdadeiros<sup>1,12,15,16</sup>.

A incidência aproximada da doença cística da artéria poplítea é de 1 caso para cada 1.200 casos de claudicação intermitente, ou de 1 em cada 1.000 arteriografias femorais realizadas<sup>14</sup>. Acometem mais homens do que mulheres, na proporção de 4:1<sup>17</sup>, incidindo mais comumente da quarta a sexta décadas.

Maffei et al.<sup>18</sup> sugerem que o não reconhecimento e a falta de relato da doença podem ser as causas dessa baixa incidência e que o número de casos diagnosticados tenderá a aumentar se estivermos atentos para reconhecê-los.

Para tal, é necessário que, em casos de claudicação intermitente em adultos com poucos fatores de risco para aterosclerose, devem-se incluir os seguintes diagnósticos diferenciais: síndrome do aprisionamento da artéria poplítea, doença cística advencial, doença fibromuscular, endofibrose da íliaca externa encontrada em ciclistas, arterites, embolias arteriais, e lesões arteriais oclusivas vistas no pseudoxantoma elástico.

Atualmente, existem diversas opções de exames de imagem que podem ser utilizadas para definir o diagnóstico e planejar a melhor correção cirúrgica. Faz-se essencial definir o número de cistos, sua localização, sua extensão e

situação. Um exame de ultrassom com Doppler pode ser suficiente para o diagnóstico<sup>19</sup>, contudo, para o planejamento adequado da cirurgia, o uso de outros exames auxiliares de diagnóstico é necessário.

A tomografia computadorizada (TC) axial<sup>20</sup> para o diagnóstico ainda é utilizada, mas existem métodos superiores, como a ressonância magnética (RM) ou a RMA<sup>21</sup>. O uso de TC helicoidal associada à angiotomografia com reconstrução tridimensional parece fornecer informações similares a RM ou a RMA, mas necessita do uso de contraste injetável<sup>22</sup>.

Manged et al.<sup>23</sup> apresentaram bons resultados recentemente, utilizando *High Spatial Resolution Magnetic Resonance Imaging* (HSR-MR) e identificaram conexões entre os cistos e a articulação adjacente, auxiliando, dessa forma, a ligadura dessas conexões durante a cirurgia, evitando, em alguns casos, a recorrência dos cistos.

Ortiz et al.<sup>24</sup> mencionam que as diferentes abordagens terapêuticas resultam em taxas de recorrência variáveis. A ressecção do segmento arterial afetado com um implante de enxerto venoso é indicada nos casos de oclusão arterial completa com parede arterial enfraquecida ou em casos de ulceração íntima secundária.

Alguns autores<sup>25,26</sup> mostram que a ressecção do cisto com enxerto de veia safena tem uma taxa de reincidência de cerca de 5%, e o esvaziamento do cisto, mesmo com sua retirada da parede, tem uma recorrência em cerca de 6% nos pacientes. A aspiração percutânea de cisto, isolada, tem uma taxa de recorrência de 34%. Outros métodos são raramente utilizados, devido às altas taxas de recidivas. Essas opções são: o tratamento endovascular com angioplastia ou colocação de *stent* endovascular, sendo que ambos registram taxas de recorrência de até 100%.

Maged et al.<sup>27</sup> descreveram um caso de recorrência de doença cística de artéria poplítea após a enucleação cirúrgica do cisto. Esse caso foi tratado com angioplastia com sucesso, e o paciente apresentou alívio dos sintomas por um seguimento de 24 meses.

Do et al.<sup>26</sup> relataram o tratamento bem-sucedido de sete pacientes (seis homens), que apresentavam a doença cística advencial sintomática da artéria poplítea sem oclusão com aspiração dos cistos percutânea guiado por imagem. Seu grupo não apresentou nenhuma complicação, e o procedimento foi técnico e clinicamente bem-sucedido em todos os casos. O seguimento por meio da ultrassonografia dúplex foi realizado entre 1 e 32 meses (média de 14,8 meses) e, após o procedimento, nenhum paciente apresentou estenose importante. No entanto, ele também menciona que seus dados com a técnica de aspiração percutânea não se repetem com sucesso na literatura mundial e também que essa técnica não tem ganhado grande popularidade.<sup>24,28</sup>

## Conclusões

A doença cística da artéria poplítea é muito rara, contudo devemos estar atentos para diagnosticá-la. Todos os pacientes jovens com queixa de claudicação intermitente sem fatores de risco para doença aterosclerótica devem ser aventados à hipótese de doença cística da artéria poplítea. O diagnóstico deve ser, inicialmente, realizado com métodos não invasivos com o EcoDoppler colorido. As manobras de flexão de joelhos (Ishikawa) bilateral, bem como as manobras de hiperextensão de pés, devem fazer parte da complementação do exame e diagnóstico diferencial.

A utilização de TC helicoidal com reconstrução tridimensional parece fornecer imagens equivalentes à RM ou a RMA, mas necessita do uso de contraste injetável. Devemos, se possível, utilizar a RM de alta resolução espacial. Apesar de existirem vários métodos alternativos de diagnóstico, nunca devemos nos esquecer de que a angiografia é o padrão-ouro para as revascularizações e devemos, sempre que necessário, utilizá-la.

Diversas condutas terapêuticas podem ser aventadas para o tratamento de doença cística da artéria poplítea. O tratamento endovascular com angioplastia ou implante de *stent* intravascular nos parece ser o menos indicado para o caso, tendo em vista que é uma doença extrínseca à artéria em área de articulação e os dados da literatura de Ortiz et al.<sup>24</sup> mostram uma taxa de oclusão próxima a 100%.

A utilização de aspiração de cisto guiada por método de imagem parece uma técnica menos invasiva para o tratamento da doença, mas somente os achados de Do et al. revelam sucesso. Outros como Maged et al.<sup>23</sup> e o próprio Do et al.<sup>26</sup>, em sua revisão da literatura, mostram uma taxa de recorrência próxima a 34%.

A maioria dos trabalhos refere que a ressecção do cisto com o implante de enxerto homólogo<sup>20,23,24</sup> e o esvaziamento do cisto, mesmo com sua retirada da parede, são as opções terapêuticas de escolha para o caso, já que possuem uma taxa de reincidência próxima, porém os relatos de Melliere et al.<sup>29</sup> apontam para uma superioridade da ressecção do segmento arterial envolvido com implante de enxerto homólogo, pois essa escolha de tratamento possui um resultado superior tanto de curto quanto de longo prazo, quando comparados a esvaziamento do cisto mesmo com sua retirada da parede.

Portanto, a opção terapêutica de correção cirúrgica com ressecção do cisto da artéria doente e implante de enxerto homólogo é a melhor conduta terapêutica para os casos de doença cística de artéria poplítea. Quanto ao uso de tratamento, exclusivamente endovascular, acreditamos que

careça de mais estudos e avaliações sistemáticas para ser indicado, entretanto deve ser considerado como uma opção terapêutica coadjuvante quando ocorre recorrência da estenose da artéria mesmo tendo sido realizados a ressecção do cisto e o implante de enxerto homólogo.

No caso relatado, optamos por uma conduta expectante para o membro contralateral, já que o paciente não apresentava isquemia do membro direito sendo implementada orientação de atividade física para reforço da musculatura, uso de vasodilatador periférico e antiagregante plaquetário, e manutenção do acompanhamento clínico; no caso de ocorrer uma isquemia, em nossa opinião, a melhor conduta seria a realização de arterectomia do segmento afetado com interposição de enxerto venoso autólogo distal.

## Referências

1. Alder VW, Zwicker H. [The diagnosis of cystic degeneration of the adventitia]. *Rofo*. 1977;126(4):331-4. German.
2. Bergan JJ. Adventitial cystic disease of the popliteal artery. In: Rutherford RD, ed. *Vascular Surgery*. Philadelphia: WB Saunders Company, 1977. p. 569.
3. Terry JD, Schenken JR, Lohff MR, Neis DD. Cystic adventitial disease. *Hum Pathol*. 1981;12(7):639-42.
4. Lassalle C, Paquis M, Florquet J, Mathieu P, Frisch R. Kyste colloïde de l'adventice de l'aertère poplitée. A propos de trois cas. *Ann Med Nancy*. 1978;17:575-7.
5. Müller M, Rodríguez J. Obstrucción de lá arteria poplitea por enfermedad quística mucinosa de la pared arterial. *Angiologia*. 1975;27(1):1-6
6. Blum L, Giron F. Adventitial cyst of the popliteal artery with secondary inflammatory entrapment. *Mt Sinai J Med Ny. Mt Sinai J Med*. 1976;43(4):471-5.
7. Rollo HA, Gama JCFD, Lastória S, Yoshida WB, Maffei FH. Cisto de adventícia em artéria poplítea. Relato de dois casos. *AMB Rev Ass Med Bras*. 1982; 28:79-81.
8. Bakstrom CG, Linell F, Östberg B. Cystic, mixomatous adventitial degeneration of the radial artery with development of ganglion in the connective tissue. Report of two cases. *Acta Chir Scand*. 1965;129:447-51
9. Miranda Junior F, Francisco Jr J, Burihan E. Cisto de artéria poplítea. *Rev Bras Cir*. 1982;72:4:221-2.
10. Albernaz DTS, Albernaz LFL, Eggers EE. Doença cística da artéria poplítea: relato de caso. *J Vasc Bras*. 2010;9(3):168-72.
11. Lie JT, Juergens JL. Degenerative arterial disease other than atherosclerosis. In: J.L. Juergens JL, Spittell Jr JA, Fairbairn II JF, editors. *Allen-Barker-Hines Peripheral Vascular Diseases*. Philadelphia: WB Saunders Company, 1980. p. 237-53.
12. Shute K, Rothnie NG. The aetiology of cystic arterial disease. *Br J Surg*. 1973;60:397-400.
13. Mark TM, Rywlin AM, Unger H. Cystic adventitial degeneration of the popliteal artery. Its occurrence in a patient with the nail-patella syndrome. *Arch Pathol Lab Med*. 1983;107:186-8.

14. Flanigan DP, Burnharn SJ, Goodreau JJ, Bergan JJ. Summary of cases of adventitial cystic disease of the popliteal artery. *Ann Surg.* 1979;189:165-75.
  15. Bourke BM, Appleberg M, Reeve TS, Hollings RM. Cystic adventitial disease of the popliteal artery: A report of two cases and a review of the literature. *Aust N Z J Surg.* 1982;52(2):171-3
  16. Lewis GJT, Douglas DM, Reid W, Watt JK. Cystic adventitial disease of the popliteal artery. *Br Med.* 1967;60:411-5.
  17. Ishikawa K. Cystic adventitial disease of the popliteal artery and of other stem vessels in the extremities. *Jpn J Surg.* 1987;17:221-9.
  18. Maffei FHA, Barbosa AG, Rollo HA, Naser A, Lastoria S. Adventitial cystic disease of the popliteal artery in Brazil: additional data on the geographical distribution of the disease. *Angiology.* 1982;33:339-42.
  19. Stapff M, Zoller W, Spengel F. Image-directed Doppler ultrasound findings in adventitial cystic disease of the popliteal artery. *J Clin Ultrasound.* 1989;17:689-91.
  20. Rizzo RJ, Flinn WR, Yao JS, McCarthy WJ, Vogelzang RL, Pearce WH. Computed tomography for evaluation of arterial disease in the popliteal fossa. *J Vasc Surg.* 1990;11(1):112-9.
  21. Crolla RMPH, Steyling JF, Hennipman A, Slootweg PJ, Taams A. A case of cystic adventitial disease of the popliteal artery demonstrated by magnetic resonance imaging. *J Vasc Surg.* 1993;18:1052-5.
  22. Miller A, Salenius J, 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;26:715-20.
  23. Maged IM, Turba UC, Housseini AM, Kern JA, Kron IL, Hagspiel KD. High spatial resolution magnetic resonance imaging of cystic adventitial disease of the popliteal artery. *J Vasc Surg.* 2010;51:471-4.
  24. 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;29:306-10.
  25. Rai S, Davies RS, Vohra RK. Failure of endovascular stenting for popliteal cystic disease. *Ann Vasc Surg.* 2009;23:410.e1-e5
  26. Do DD, Braunschweig M, Baumgartner I, Furrer M, Mahler F. Adventitial cystic disease of the popliteal artery: percutaneous US-guided aspiration. *Radiology.* 1997;203:743-6.
  27. Maged IM, Kron IL, Hagspiel KD. Recurrent cystic adventitial disease of the popliteal artery: successful treatment with percutaneous transluminal angioplasty. *Vas Endovasc Surg.* 2009;43:399-402.
  28. Sieunarine K, Lawrence-Brown MM, Kelsey P. Adventitial cystic disease of the popliteal artery: early recurrence after CT guided percutaneous aspiration. *J Cardiovasc Surg.* 1991;32(5):702-4.
  29. Mellièrè D, Ecollan P, Kassab M, Becqemin JP. Adventitial cystic disease of the popliteal artery: treatment by cyst removal. *J Vasc Surg.* 1988;8(5):638-42.
- 
- Correspondência**  
Michel Nasser  
Avenida Venício Bruneli 287 – Quinta dos Oitis  
CEP 14808-000 – Araraquara (SP), Brasil  
E-mail: nasser@ufscar.br
- Contribuições dos autores**  
Concepção e desenho do estudo: MN  
Análise e interpretação dos dados: LGAP, ESR  
Coleta de dados: ESR, AEB  
Redação do artigo: LGAP, JLTF, MN  
Revisão crítica do texto: LGAP, MN  
Aprovação final do artigo\*: MN, ANB, LGAP, ESR, JLTF  
Análise estatística: N/A  
Responsabilidade geral pelo estudo: MN
- \*Todos os autores leram e aprovaram a versão final submetida ao J Vasc Bras.