

Prikaz primera/Case report

CISTIČNA DEGENERACIJA ADVENTICIJE ARTERIJE POPLITEJE IN KOMUNIKACIJA S KOLENSKIM SKLEPOM – PRIKAZ PRIMERA

CYSTIC ADVENTITIAL DEGENERATION OF POPLITEAL ARTERY AND
COMMUNICATION WITH THE KNEE JOINT – CASE REPORT

Franc Kozar

Oddelek za splošno in abdominalno kirurgijo, Splošna bolnišnica Slovenj Gradec, Gosposvetska ulica
2, 2380 Slovenj Gradec

Prispelo 2006-06-06, sprejeto 2006-08-22; ZDRAV VESTN 2006; 75: 847-50

Ključne besede *cistična degeneracija adventicije; poplitealna arterija; intermitentna klavdikacija; komunikacija s kolenskim sklepom*

Izvleček

Izhodišča *V razvitem svetu je najpogostejši vzrok ishemije spodnjih udov ateroskleroza. Pri mlajših bolnikih brez dejavnikov tveganja moramo razmišljati o drugih možnih boleznih, ki prizadenejo žilje. V to skupino spada tudi cistična degeneracija adventicije arterije popliteje, redka bolezen neznane etiologije.*

Bolniki in metode *27-letni moški je obiskal našo ambulanto zaradi znakov intermitentne klavdikacije ob odsotnosti dejavnikov tveganja. Po opravljeni diagnostiki smo se odločili za operativni poseg, pri katerem smo odkrili cistično tvorbo v notranjosti arterije, ki je komunicirala s kolenskim sklepom. Cisto smo odstranili, zaprli smo fistulo, ki je vodila v notranjost sklepa. Bolnik je po operativnem zdravljenju brez težav.*

Zaključki *Pri mlajšem bolniku z znaki ishemije spodnjih udov je potrebno pomisliti na bolezni žil, ki niso aterosklerotskega izvora; med te spada tudi cistična degeneracija adventicije poplitealne arterije. Zdravljenje je kirurško, rezultati praviloma dobri brez ponavljanja cist.*

Key words *cystic adventitial disease; popliteal artery; intermittent claudication; communication with knee joint*

Abstract

Background *Atherosclerosis is the most common cause of lower limb ischemia in developed world. Other nonatherosclerotic causes must be considered in a young patient without specific risk factors, among them cystic adventitial degeneration of popliteal artery, a rare disease with unknown etiology.*

Patients and methods *A 27-year-old male patient presented with symptoms of intermittent claudication. He had no risk factors. After prompt diagnosis a surgical procedure was performed. A cystic formation was found in popliteal artery which communicated with knee joint. We evacuated the cyst and closed the communication with the joint. Patient is symptom-free at the moment.*

Conclusions *When dealing with a younger patient with signs of intermittent claudication, we have to consider nonatherosclerotic causes of disease, among them cystic adventitial degeneration of popliteal artery. Therapy is surgical, obtained results are very good without recurrence of cysts.*

Uvod

Cistična degeneracija adventicije arterije popliteje (CDAAP) je redka bolezen, ki povroča stenozo in okluzijo prizadete žile (1). Podobno bolezen lahko najdemo tudi na drugih žilah, ki potekajo v bližini velikih sklepov, kot so kolčni, kolenski, ramenski, komolčni, ali v področju zapestja. Prisotnost cist je opisana tudi v venah in v nekaterih živcih (2).

Entiteto sta prvič opisala Atkins in Key leta 1947; opisala sta prizadetost arterije iliake eksterne zaradi miksomatozne tvorbe (3), prizadetost poplitealne arterije pa sta prva opisala Ejrup in Hierton leta 1954 (4). Incidenca CDAAP pri bolnikih s klavdikacijo je 0,01 % (2), pogosteje so prizadeti moški kot ženske (razmerje 15:1), starost, pri kateri se bolezen najpogosteje pojavlja, je od 30–40 let (2).

Glavni simptom bolezni je torej intermitentna klavdikacija. Slednja lahko nastane akutno ali praviloma postopno, bolečina v mirovanju pa nastopi redko (5).

Opis primera

27 let star moški je obiskal našo ambulanto zaradi težav z levim spodnjim udom. Pet mesecev pred prihodom v ambulanto je opazil krče v levih mečih, dva meseca kasneje pa so se v prizadetem predelu pojavile tope bolečine, ki so bile hujše ob telesnem naporu in so se stopnjevale. Najdaljša razdalja, ki jo je lahko prehodil brez počitka, je bila 50 metrov. Opazil je tudi, da je bil prizadeti ud bolj hladen in bled, predvsem v področju prstov. Bolnik je bil nekadilec in do pregleda sicer zdrav. Poškodbo levega spodnjega uda je zanikal.

Pri kliničnem pregledu smo ugotovili hladno levo stopalo z bledico prstov leve noge in slabšo kapilarno polnitev levo. Periferni pulzi desnega spodnjega uda (a. femoralis, a. poplitea, a. dorsalis pedis, a. tibialis posterior) so bili dobro tipni, medtem ko je bil na levem spodnjem udu tipen samo pulz a. femoralis, drugi pulzi perifernih arterij pa so bili odsotni.

Ob pregledu je bilo v ostalem stanje pri bolniku v mejah normale.

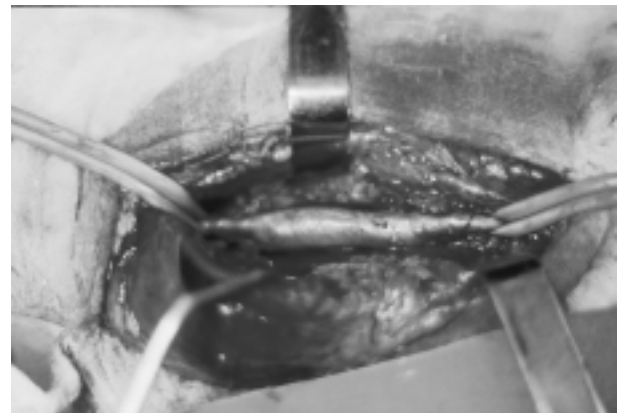
Pri bolniku smo opravili arteriografijo, ki je pokazala 1,5 cm dolgo zožitev začetnega dela poplitealne arterije, ki ji je sledila 1 cm dolga zapora le-te (Sl. 1).

Na podlagi izvida smo se odločili za operativni poseg v splošni anesteziji in z lego bolnika na trebuhu. Skozi kožni rez v obliki črke S smo za pripravo pristopili v poplitealno jamo. Sledila je preparacija poplitealnega žilja. Poplitealna arterija je bila na meji med proksimalno in srednjo tretjino vretenasto zadebeljena v dolžini približno šestih centimetrov (Sl. 2). Zadebelitev je bila na dotik mehka, elastična in je dajala vtis ciste. Aplicirali smo heparin, pretok v poplitealni arteriji smo distalno in proksimalno od zadebelitve prekinili z žilnimi prijemalkami. Z lateralne strani smo čisto ob prehodu v žilno steno po dolžini odprli: iztekla je želatinasta vlecljiva tekočina. Ob reviziji notranjosti ciste smo na medialni strani žile našli fistulasti kanal, ki je vstopal v globino (Sl. 3). Ko smo sledili fistuli, smo ugotovili, da le-ta skozi fibrozno kapsulo vstopa v kolenski sklep. Ob vstopišču v kolenski sklep smo fistulo ligirali ter resecirali, s posameznimi šivi pa zaprli fibrozno ovojnico sklepa. Resecirali smo fistulasto komunikacijo s sklepom ter odvečni del zunanje stene ciste, epitelij preostale ciste pa deloma ostro, deloma topo izjedrili, zunanjo steno ciste pa prešili preko razgaljenega dela žilne stene. Sledilo je zapiranje operativne rane po plasteh.



Sl. 1. Arteriografija pred operacijo – segmentna okluzija brez aterosklerotskih oblog na žilni steni.

Figure 1. Preoperative arteriography-segmental occlusion without atherosclerotic plaques on vessels.



Sl. 2. Vretenasta razširitev poplitealne arterije.

Figure 2. Spindle-shaped dilatation of popliteal artery.



Sl. 3. Pinceta v fistulasti komunikaciji s kolenskim sklepom.

Figure 3. Pincette placed in fistula, extending to knee joint.



Sl. 4. Arteriografija 3 mesece po posegu.

Figure 4. Postoperative arteriography (3 months after the procedure).

Pooperativni potek je bil brez zapletov. Takoj po operaciji je bledica stopala izginila, noga je postala normalno topla, periferni pulzi pa normalno tipni; rana se je hitro zacelila. Bolnika smo osmi pooperativni dan odpustili iz bolnišnice.

Tri mesece po operativnem posegu smo ponovno opravili arteriografijo (Sl. 4).

Razpravljanje

CDAAP je redka bolezen z neznano etiologijo.

Hipoteze govorijo o ponavljajočih se poškodbah arterije, ki vodijo v cistično degeneracijo adventicije (6), neposredni komunikaciji s kolenskim sklepom, kjer se tvorijo ciste (1, 7), sistemski motniji veziva (8) in o embrionalni etiologiji motnje (9).

Predhodna poročila se razlikujejo med sabo glede na prisotnost epitela v cisti, anamnezi o poškodbi ali komunikaciji s kolenskim sklepom, zato je enotna hipoteza za nastanek te bolezni manj verjetna (7).

Primer, ki ga opisujemo, prikazuje komunikacijo s kolenskim sklepom. Komunikacijo takšne vrste sta prva opisala Shute in Rothnie leta 1973 (7). Po nam dostopnih podatkih je do sedaj opisanih 5 primerov komunikacije med intramuralno arterijsko cisto in sklepom. V slovenski medicinski literaturi podobnega primera nismo zasledili.

Etiologija komunikacij ravno tako kot etiologija bolezni same ni pojasnjena. CDAAP naj bi nastala iz ganglionu ali burzi podobnega ektopičnega tkiva, ki se embrionalno razvije iz skleroplasteme in je odgovorno za normalen razvoj sklepnih ovojnic in burz. Ciste, ki so v steni adventicije, kasneje rastejo zaradi kopičenja muciformne tekočine, ki jo izločajo sinovij-skim celicam podobne mezotelne celice v notranjosti ciste. Zaradi motnje v embrionalnem razvoju lahko obstaja tudi odprta povezava s sklepom. V tem pri-

meru raven tekočine v cisti variira in povzroča intermitentne ishemične simptome glede na pretisnjenje svetline žile (10). Po drugi hipotezi naj bi obstajala neposredna komunikacija med sklepom in prizadeto žilo, cista pa naj bi izvirala iz kolenskega sklepa. Navadno so take ciste okoli arterije, v notranjost same žile pa naj bi cisto pripeljala ponavljajoča se mikrotravma (1, 9). Te teorije niso podprle študije, ker je sama bolezen enako pogosta pri športnikih ter fizičnih delavcih in pri populaciji, ki kolenskega sklepa ne obremenjuje bolj kot normalno; ravno tako pa se ciste pojavljajo pri otrocih (11, 12).

Anamnestični podatki in klinična slika pri našem bolniku podajajo sum na okvaro arterijskega sistema. Tipičen bolnik s simptomi zaradi CDAAP je mlajši moški, star okoli štirideset let. Simptomi klavdikacije nastanejo v kratkem obdobju, če bolezen primerjamo z aterosklerotsko prizadetostjo žilja. Redko se jim pridruži ishemična nevropatija in posledične parestezije, huda, pekoča bolečina in hladnost prizadetega uda. (2, 13–15)

Diagnoza temelji na anamnestičnih podatkih in klinični sliki, v kateri izstopajo slabo ali netipni periferni pulzi, lahko slišimo tudi šum nad prizadeto arterijo. Pri 2/3 bolnikov najdemo stenozo arterije, pri ostalih je motnja napredovala v okluzijo (2).

V diferencialni diagnozi bolezni moramo upoštevati subakutno patologijo arterij (ateroskleroza, anevrizma poplitealne arterije, poškodba, embolija arterije popliteje, utesnitveni sindrom poplitealne arterije).

Poškodba, utesnitveni sindrom in CDAAP so najpogostejši vzrok nastanka intermitentne klavdikacije pri mlajših bolnikih (5).

Na poškodbo žile posumimo na podlagi anamnestičnih podatkov.

Utesnitveni sindrom poplitealne arterije je posledica razvojne anomalije ali funkcijske motnje (2).

Klavdikacija, ki tipično nastopi v mečih in/ali stopalu, je nenadna in je povezana s telesno dejavnostjo ali s hudo obremenitvijo spodnjega uda (16–18).

Pri kliničnem pregledu se tipljejo pulzi na stopalu, ki pa izginejo z aktivno plantarno fleksijo proti upor ali s pasivno dorzifleksijo; ob tem lahko nad prizadeto žilo slišimo sistolni šum (2).

Dokončna diagnoza CDAAP je radiološka. Med metodami sodobne radiologije trenutno najbolj priporočajo uporabo magnetne resonance (5, 13). Sami smo v diagnostiki uporabili arteriografijo, ki je indicirana pri bolniku pod 40 leti, kadar pulzi v mirovanju niso tipni in če izključimo utesnitveni sindrom poplitealne arterije (1, 2, 5, 13).

Smisel zdravljenja bolezni je obnoviti pretok v prizadeti žili. Trenutno je zdravljenje kirurško: aspiracija vsebine ciste (19), cistotomija, ablacija ali izjedritev (enukleacija) ciste in resekcija prizadete arterije z venskim graftom (2, 8); v primeru komunikacije s kolenskim sklepom ligacija in odstranitev fistule ter restavracija sklepne kapsule v celoti. V primeru sekundarne tromboze prihaja v poštev predhodna intraarterijska tromboliza, ki ji sledi kirurško zdravljenje (20).

Uspešnost posameznih metod ni poznana zaradi redkosti bolezni (2).

Sami smo se odločili za izjedritev ciste in ligacijo fistule. Bolnik med hospitalizacijo ni imel težav. Po nam znanih podatkih se podobne težave pri bolniku niso ponovile.

Zaključki

Z opisom tega primera želimo opozoriti na redke vzroke prizadetosti arterij spodnjih udov. CDAAP je redka bolezen, na katero moramo pomisliti pri mlajšem bolniku s simptomi intermitentne klavdikacije in z odsotnostjo dejavnikov tveganja. Pravočasna diagnoza in operativni poseg v celoti obnovita krvni obtok v prizadetem udu.

Literatura

1. Unno N, Kaneko H, Uchiyama T, Yamamoto N, Nakamura S. Cystic adventitial disease of popliteal artery: Elongation into the media of popliteal artery and communication with the knee joint capsule: Report of a case. *Surg Today* 2000; 30: 1026-9.
2. Levien LJ. Nonatheromatous causes of popliteal artery disease. In: Rutherford RB. *Vascular surgery*. Sixth edition. Vol 1. Philadelphia: Elsevier Saunders; 2005. p. 1236-55.
3. Atkins HJB, Key JA. A Case of myxomatous tumor arising in the adventitia of the left external iliac artery. *Brit J Surg* 1947; 34: 426-7.
4. Ejrup B, Hierton T. Intermittent claudication: Three cases treated by free vein graft. *Acta Chir Scand* 1954; 108: 217.
5. Wright LB, Matchett WJ, Cruz CP, James CA, Culp WC, Eidt JF, et al. Popliteal artery disease: Diagnosis and treatment. *RadioGraphics* 2004; 24: 467-79.
6. Hierton T, Lindberg K, Rob C. Cystic adventitial degeneration of popliteal artery. *Acta Chir Scand* 1957; 113: 72-7.
7. Shute K, Rothnie NG. The aetiology of cystic arterial disease. *Br J Surg* 1973; 60: 397-400.
8. Levien LJ, Benn CA. Adventitial cystic disease: a unifying hypothesis. *J Vasc Surg* 1998; 28: 193-205.
9. Crolla RMPH, Steyeling 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.
10. Leu HJ, Larijader J, Odermatt B. Pathogenesis of the so called cystic adventitial degeneration of peripheral blood vessels. *Virchows Arch (Pathol Anat)* 1984; 404: 289-300.
11. Powis SJA, Morissey DM, Jones EL. Cystic degeneration of popliteal artery. *Surgery* 1970; 67: 891-4.
12. Haid SP, Conn J, Bergan JJ. Cystic adventitial disease of popliteal artery. *Arch Surg* 1970; 101: 765-70.
13. Elias DA, White LM, Rubenstein JD, Christakis M, Merchant N. Clinical evaluation of MR imaging features of popliteal artery entrapment and cystic adventitial disease: pictorial essay. *AJR Am J Roentgenol* 2003; 180: 627-32.
14. de Klerk G, The RM, Zeeuwen WJ, Akkersdijk WL, van de Pauwoldt HD, de Vries JP. Cystic adventitial degeneration of the popliteal artery; an unexpected cause of intermittent claudication. *Ned Tijdschr Geneesk* 2005; 149 (32):1802-7.
15. Rispoli P, Moniaci D, Zan S, Cassatella R, Varetto G, Maselli M, et al. Cystic adventitial disease of popliteal artery. Report of 1 case and review of the literature. *J Cardiovasc Surg* 2003; 44: 255-8.
16. Carter AE, Eban RA. A case of bilateral developmental abnormality of the popliteal arteries and gastrocnemius muscles. *Br J Surg* 1964; 51: 518.
17. Love JW, Whelan TJ. Popliteal artery entrapment syndrome. *Am J Surg* 1965; 109: 602.
18. Clanton TO, Solcher BW. Chronic leg pain in the athlete. *Clin sports Med* 1994; 13: 743.
19. Nicolau H, Calen S, Gourul JC, Stoiber HP, Cesarini M, Videau J. Adventitial cysts of popliteal artery. *Ann Vasc Surg* 1988; 2: 196-9.
20. Samson RH, Willis PD. Popliteal artery occlusion caused by cystic adventitial disease: succesful treatment by urokinase followed by non resectional cystotomy. *J Vasc Surg* 1990; 12: 591-3.