

## CASOS CLINICOS

### Recurrencia de enfermedad quística adventicial de arteria poplítea tras resección del quiste

### (Recurrence of cystic adventitial disease of the popliteal artery after resection of the cyst)

S. Gimena Funes - E. Cano Trigueros - A. Egido Sabador - M. Baquer Mirabete - J. A. Carnicero Martínez - A. Arruabarrena Oyarbide - V. Rico Romero - A. Recio Cabrero - V. Pobo Ruiz - J. Revuelta Mirones - G. Pastor Mena - M. A. Marco Luque

**Servicio de Angiología y Cirugía Vascular**  
**Jefe del Servicio: Dr. Miguel Angel Marco Luque**  
**Hospital Miguel Servet, Zaragoza (España)**

#### RESUMEN

*La enfermedad quística adventicial de la arteria poplítea es una rara causa de claudicación gemelar en pacientes jóvenes. Se expone un caso que recidió tras resección quirúrgica del quiste. Fue reintervenido, practicándose resección del quiste y arteria afecta con interposición de injerto de safena, con buen resultado. Se comentan las teorías etiológicas de la enfermedad, el diagnóstico y su tratamiento.*

**Palabras clave:** Enfermedad quística adventicial, arteria poplítea, recidiva.

#### SUMMARY

*Cystic adventitial disease of the popliteal artery is a rare cause of calf claudication in young patients. We report a case which recurred after surgical resection of the cyst. He was reoperated with excision of the cyst and affected artery and interposition of a saphenous graft, with good results. We comment on the etiologic theories of the disease, its diagnosis and treatment.*

**Key words:** Cystic adventitial disease, popliteal artery, recurrence.

#### Introducción

La enfermedad quística adventicial (EQA) es una rara enfermedad que se presenta habitualmente

como claudicación gemelar de inicio brusco debido a la estenosis u oclusión de la luz arterial producida por el quiste. Han pasado ya más de 50 años desde la primera descripción (1), que afectaba a la arteria ilíaca, y se han publicado más de 325 casos. La localización más frecuente es la arteria poplítea, seguida a distancia por la iliofemoral. Los demás casos se han dado en otras arterias y venas cercanas a alguna articulación. La incidencia aproximada es de 1:1.200 pacientes con claudicación. Afecta a 15 hombres por cada mujer y se puede dar desde la infancia hasta la vejez, predominando en la 4.<sup>a</sup> y 5.<sup>a</sup> décadas. Aunque la causa exacta es desconocida, se han descrito varias teorías al respecto. Presentamos un caso de recurrencia tras resección del Quiste, discutiendo la etiología, el diagnóstico y el manejo terapéutico.

#### Caso clínico

Paciente varón de 65 años, con antecedentes de gonartrosis bilateral y fumador de 10 cigarrillos al día, que presenta cuadro de claudicación intermitente de pantorrilla derecha a 50 metros, de comienzo brusco 7 días antes de su consulta. En la exploración clínica existía una tumoración dura no pulsátil en hueso poplítico derecho, con pulso proximal a la masa y soplo, y ausencia de pulsos distales en dicho miembro. El índice tobillo/brazo derecho era de 0,48. El resto del examen vascular fue normal. Se realiza estudio duplex-color que confirma la existencia de una lesión quística que desplaza y comprime la arteria poplítea estando ésta permeable pero estenosada. El estudio arteriográfico (Fig. 1) revela imágenes de estenosis por compresión extrínseca de arteria poplítea dere-

cha. Es intervenido mediante abordaje posterior encontrando un quiste en 2.<sup>a</sup> porción de poplítea de unos 7-8 cms, que parece depender de la propia arteria, sin apreciarse ningún tracto de comunicación con la articulación de la rodilla. Se abre el quiste (Fig.2) saliendo abundante contenido gelatinoso amarillento tabicado de la cavidad y se realiza la exéresis del mismo, quedando la arteria indemne. El informe anatomo-patológico fue de degeneración mixoide adventicial. El paciente recuperó pulsos distales e índice tobillo/brazo de 1, permaneciendo asintomático durante 4 meses, cuando acude de nuevo por gran masa pulsátil en hueco poplíteo derecho y claudicación a 800 metros (con índice basal de 0'9 que cae a 0'3), estando los pulsos distales presentes pero débiles. La resonancia magnética (Fig.3) demostró un quiste que desplazaba posteriormente arteria y vena poplíticas. En la arteriografía se observó un desplazamiento de 2.<sup>a</sup> porción de poplítea con buena salida distal. Se interviene de nuevo al paciente, practicando la resección del quiste (con contenido mucoide a presión) (Fig.4) y del segmento involucrado de arteria y se sustituye por un injerto de vena safena externa invertida. Histológicamente informado como degeneración quística adventicial, se realiza estudio bioquímico simple del contenido, donde destaca la alta proporción de ácido hialurónico. El paciente está asintomático, con pulsos distales presentes e índice de 1 desde entonces, sin cambios patológicos en el dúplex color tras un seguimiento de 10 meses después de la 2.<sup>a</sup> operación.

## Discusión

No está aún clara la etiología de la EQA. Existen varias teorías al respecto. Según la teoría traumática, pequeños traumatismos pueden contribuir a la destrucción de la pared arterial y degeneración quística de la adventicia. Varios autores han apoyado esta teoría, modificándola en algunos aspectos, pero no existe clara evidencia para ella.

La «teoría del ganglión», de que los quistes son verdaderos gangliones de los vasos, que se originan de la degeneración de la cápsula articular adyacente o vaina tendinosa, ha sido apoyada por muchos autores, entre los que se encuentra Flanigan (2), según

él, esta degeneración produce un cambio en el tejido conectivo donde hay células que segregan una sustancia, formando quistes que invaden la adventicia, se unen formando cavidades multiloculares, pudiendo producir una compresión de la luz tras una ruptura de una cavidad en otra, lo que daría lugar al inicio repentino de los síntomas que se constata en muchos pacientes. Esta teoría es apoyada por el rico contenido en ácido hialurónico del quiste, por la existencia de una comunicación entre el quiste y la articulación adyacente (confirmada en muchos casos, aunque no en el nuestro) y por ser bioquímica e histológicamente similares a los gangliones (similitud no constatada en otros estudios).

Otra teoría es la de la «incorporación o inclusión celular» o teoría embriológica, según la cual durante el período embrionario hay una inclusión de células sinoviales en la adventicia, también apoyada por la demostración de una comunicación con la articulación. Una combinación de teorías es la del «implante traumático», propuesta por Powis y cols. (3) en la que células del endotelio articular invaden la adventicia por traumatismos adquiridos.

Finalmente, se ha descrito una «hipótesis unificadora» (4), en la que células mesenquimales indiferenciadas, no de estirpe sinovial pero destinadas a formar tejido articular, se incorporarían a los vasos como un error en el desarrollo en el período embrionario, al mismo tiempo en el que se forma la articulación de la rodilla. El hecho del mucho mayor contenido del quiste adventicial en ácido hialurónico que el fluido sinovial, apoya esta última hipótesis, y es contrario al concepto de que los quistes son formados y mantenidos por comunicación con un espacio sinovial.

El diagnóstico de esta patología se establece tras sospecha clínica en la que es típica la claudicación corta de inicio brusco, la presencia de un soplo en hueco poplíteo a la flexión de la rodilla y el signo de Ishikawa (palidez, frialdad y ausencia de pulsos) al realizar esta misma maniobra en casos de no oclusión. En la arteriografía se puede observar una estenosis en «reloj de arena» o el signo de la cimitarra. No da un diagnóstico de certeza. A veces sólo se observa en proyecciones laterales. Cuando hay obstrucción suele ser corta con afilamiento de la zona de re-



Fig. 1. Arteriografía: estenosis por compresión extrínseca de arteria poplítea derecha.

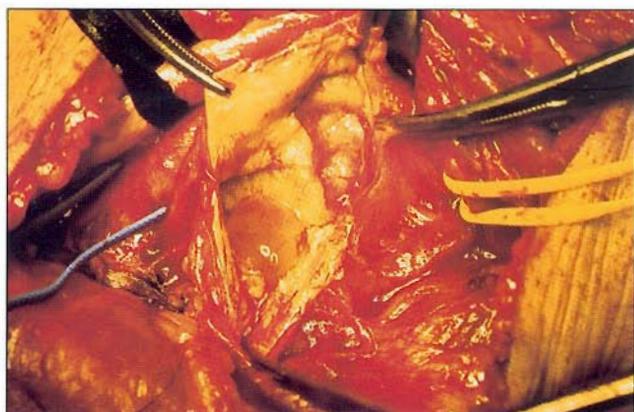


Fig. 2. Imagen intraoperatoria: Arteria poplítea controlada con vessel-loops. Quiste abierto sujeto por pinzas, restos de contenido gelatinoso en el interior.

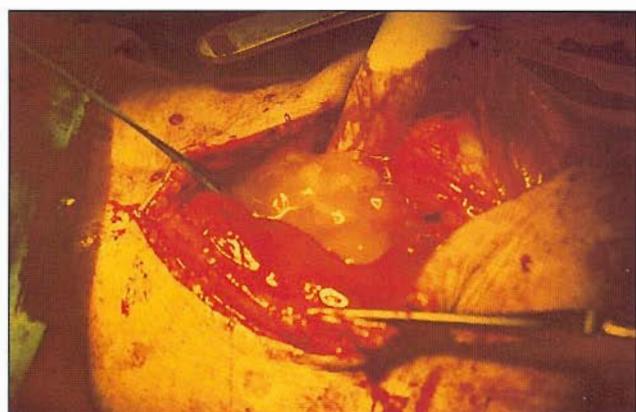
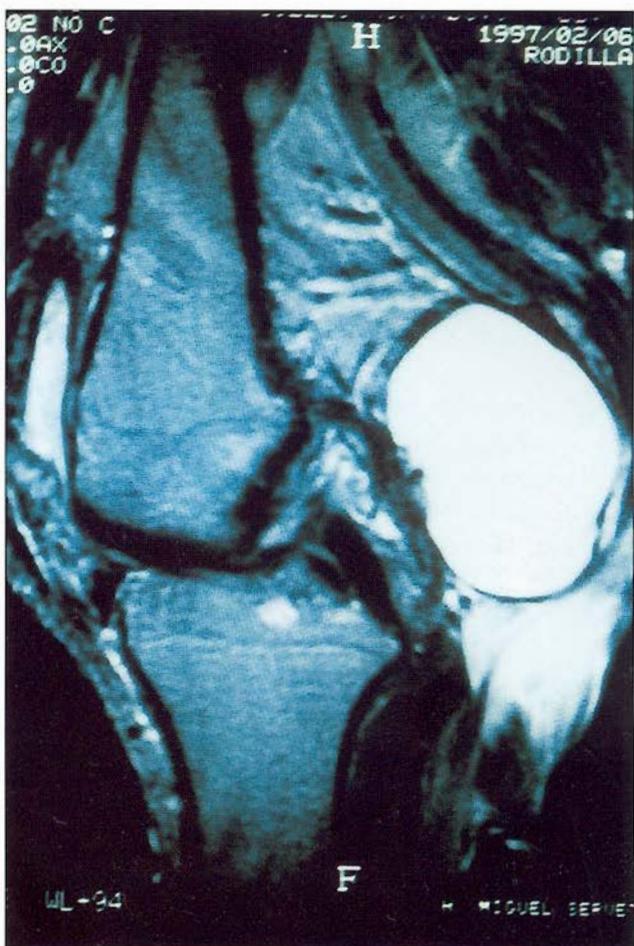


Fig. 4. Imagen intraoperatoria: Salida de material mucoide amarillento a presión al abrir el quiste.

Fig. 3. Recidiva: Resonancia magnética de rodilla derecha: imagen quística que comprime vasos poplíticos.

canalización. En los últimos años se ha propugnado el empleo del Eco-doppler-color seguida de la angiorresonancia en T2 como mejor método para el diagnóstico, con lo que nos ahorraríamos la arteriografía convencional. El duplex-color es útil para descartar otras causas y debería ser usado como primera línea, pero a veces da falsos negativos. Parece ser más sensible que la arteriografía para detectar pseudooclusión. La angiorresonancia aporta datos morfológicos del quiste y a veces demuestra comunicación con la articulación, dando un mapa arterial comparable a la arteriografía.

La ruptura espontánea del quiste con resolución de la sintomatología es muy rara y, con respecto al tratamiento de la EQA, hay que diferenciar dos circunstancias:

1.º Cuando existe estenosis arterial y no oclusión: evacuar el quiste quirúrgicamente parece ser el tratamiento de elección. En la revisión de Flanigan (2) sólo 4 de 41 pacientes a los que se aplicó este procedimiento requirieron procedimientos adicionales debido a la recurrencia del quiste, como sucedió en nuestro caso. Se aconseja ser muy escrupuloso en realizar la exéresis de todo el quiste y la adventicia afecta para no dejar restos, aunque puede resultar difícil retirar todas las células que puedan dar lugar a recidivas. Hay autores (5) que dan importancia a la búsqueda e interrupción de la posible comunicación del quiste con la articulación, pues según ellos existe la posibilidad de recidivas si no se realiza. Un tratamiento alternativo es la aspiración percutánea bajo guía ultrasónica o TAC, pero da lugar a un índice de recidivas relativamente alto (6), aunque algunos lo consideran como la primera opción de tratamiento para pequeños quistes, necesitando un seguimiento a largo plazo para detectar recurrencias. Existe un estudio (7) en el que tras un seguimiento medio de 14,8 meses no se detectó recidiva en 7 casos tratados por aspiración percutánea.

2.º Cuando existe una oclusión arterial la técnica recomendada es la excisión del vaso afecto y la interposición de un injerto de safena. En nuestro caso, tras la recidiva se optó por este tratamiento como técnica con mejores resultados publicados y para evitar nuevas recidivas. Se empleó safena externa al ser ésta de mejor calibre que la interna. Curiosamente, existe un

caso publicado de recidiva de la enfermedad en un injerto de safena (8) y estos autores han sugerido, para explicar la afección de la arteria (o del injerto venoso en este caso) en vez de la vena poplítea (vaso con baja presión), que las pulsaciones continuas pueden ejercer influencia.

Finalmente, en casos en los que hay afectación de la capa media, aunque esté permeable la arteria, la simple enucleación del quiste puede ser imposible por la debilidad de la pared residual, y se aconseja resear también el segmento afecto.

## BIBLIOGRAFIA

1. ATKINS, H. J. B.; KEY, J. A.: A case of myxomatous tumor arising in the adventitia of the left external iliac artery. *Br. J. Surg.*, 1947; 34: 426-7.
2. FLANIGAN, D. P.; BURNHAM, S.; GOODREAU, J.; BERGAN, J.: Summary of cases of Adventitial Cystic Disease of the popliteal artery. *Am. Surg.*, 1979; 189:165-75.
3. POWIS, S. J. A.; MORRISSEY, D. M.; JONES, E. L.: Cystic degeneration of the popliteal artery. *Surgery*, 1970; 67:891-4.
4. LEVIEN, L. J.; BENN, C. A.: Adventitial cystic disease: A unifying Hypothesis. *J. Vasc. Surg.*, 1998; 28:193-205.
5. DUVERGER, V.; KHODJA, M.; SALIOU, C.; FRANCO, G.; PARET, F.; LAURIAN, C.: Kyste sousadventiciel de l'artère poplitée. Explorations non invasives. *J. Mal. Vasc.*, 1997; 21 (1):35-39.
6. SIENNARINE, K.; LAWRENCE-BROWN, M. M. D.; KELSEY, P.: Adventitial cystic disease of the popliteal artery: early recurrence after CT guided percutaneous aspiration. *J. Cardiovasc. Surg.*, 1996; 32:702-4.
7. DO, D.; BAUNSCHWEIG, M.; BAUMGARTNER, I; FURRER, M.; MAHLER, F.: Adventitial Cystic Disease of the Popliteal Artery: Percutaneous US-guided Aspiration. *Radiology*, 1997; 203:743-746.
8. OHTA, T.; KATO, R.; SUGIMOTO, I; KONDO, M.; TSUCHIOKA, H.: Recurrence of cystic adventitial disease in an interposed vein graft. *Surgery*, 1994; 116:587-92.