

## SÍNDROME DO DESFILADEIRO TORÁCICO COMPLICADA POR DUPLO ANEURISMA SUBCLÁVIO – UMA ABORDAGEM HÍBRIDA

### *THORACIC OUTLET SYNDROME COMPLICATED BY DOUBLE SUBCLAVIAN ARTERY ANEURYSMS – AN HYBRID APPROACH*

Ricardo Castro-Ferreira<sup>1,2</sup>, Paulo Gonçalves Dias<sup>1</sup>, Sérgio Moreira Sampaio<sup>1</sup>, Dalila Rolim<sup>1</sup>, José Fernando Teixeira<sup>1</sup>

1. Serviço de Angiologia e Cirurgia Vascular, Centro Hospitalar de São João, Porto, Portugal

2. Departamento de Cirurgia e Fisiologia, Unidade de Investigação Cardiovascular, Faculdade de Medicina da Universidade do Porto, Portugal

Recebido a 11 de abril de 2017

Aceite a 14 de fevereiro de 2018

### RESUMO

**Introdução:** Aneurismas da artéria subclávia (AAS) são uma complicação extremamente rara da síndrome do desfiladeiro torácico (SDT). A dilatação arterial ocorre normalmente distalmente ao local de compressão que está na base do SDT. Descrevemos um caso particularmente raro de um doente com SDT neurológico com dois volumosos AAS proximal e distal ao triângulo interescaleno.

**Caso Clínico:** Mulher, 55 anos, sem antecedentes de relevo. Actividade profissional desde a adolescência implica transporte manual de caixas pesadas diversas vezes ao dia. Foi referenciada à consulta de cirurgia vascular por sintomas neurológicos compatíveis com SDT. Angio-TC revelou a presença de dois volumosos AAS, de 31 e 42mm, separados pelo musculo escaleno anterior.

Os aneurismas foram excluídos com *stent* recoberto (Viabahn) após ter sido comprovada patência do polígono de Willis por Doppler transcraniano. Subsequentemente a doente foi submetida a escalenotomia anterior. Constatou-se reversão total dos sintomas, tendo a doente tido alta 2 dias após a cirurgia. Angio-TC de controlo comprovou exclusão dos 2 AAS. Doente mantém-se assintomática aos 6 meses de *follow-up*.

**Discussão:** O termo SDT foi originalmente utilizado em 1956 por RM Peet para descrever a compressão do feixe neurovascular ao nível do *outlet* torácico. O desenvolvimento de AAS é uma complicação rara, mas potencialmente perigosa da SDT. Embora historicamente tenha sido abordado por cirurgia aberta, os novos métodos endovasculares afirmam-se como uma opção elegante e de menor risco no tratamento de AAS. Embora a exérese da primeira costela se esteja a assumir como o tratamento a oferecer para a descompressão do desfiladeiro torácico, neste caso particular, a imagem e a história clínica foram altamente sugestivas de compressão pelo músculo escaleno. Este caso demonstra como as abordagens endovascular e aberta se podem conjugar para oferecer resultados aliantes. Do nosso conhecimento, esta é a primeira descrição na literatura de dois aneurismas em série da artéria subclávia no contexto de SDT.

### Palavras-chave

Síndrome do Desfiladeiro Torácico, Aneurisma da Artéria Subclávia, Abordagem Híbrida

---

\*Autor para correspondência.

Correio eletrónico: cferreira.ricardo@gmail.com (R. Castro-Ferreira).

## ABSTRACT

**Introduction:** Subclavian artery aneurysm (SAA) can be an extremely rare complication of thoracic outlet syndrome (TOS)<sup>1</sup>. The arterial dilation usually occurs distal to the stenosis site causing TOS<sup>2</sup>. We describe a rare case of a patient with neurological TOS with two voluminous SAA proximal and distal to interscalene triangle.

**Case report:** A 55 years-old female patient, with no prior medical conditions, was referred to vascular surgery clinic with symptoms of neurological TOS. The radial pulses were absent in the affected limb but the patient had no arterial complains. In the work-up angio-CT two consecutive SAA (31 and 42mm) divided by anterior scalenus muscle were diagnosed. The aneurysms were excluded by covered stent angioplasty after circle of Willis flow assessment by transcranial Doppler. Subsequently the patient was submitted to anterior scalenectomy in operating theatre. The symptoms completely reversed and the patient was discharged two days after surgery. Follow-up angio-CT confirmed SAA exclusion. Patient remains asymptomatic 6 months after the treatment.

**Discussion:** The term thoracic outlet syndrome was originally used in 1956 by RM Peet to designate compression of the neurovascular bundle at the thoracic outlet<sup>3</sup>. Since its original description, a multitude of clinical entities was associated with TOS<sup>1</sup>. SAA is a rare but potential dangerous complication of TOS<sup>2</sup>. Whereas historically SAA have been managed by open surgery, the novel endovascular methods offer an elegant and safer approach to this condition. Although first rib resection is emerging as the regular method of thoracic outlet decompression<sup>4</sup>, this particular case imaging was highly suggestive of scalenus muscle compression. This case exemplifies how endovascular and open approaches can elegantly work together with remarkable results. To the best of our knowledge, this is the first description of a double subclavian artery aneurysm in the context of TOS.

### Keywords

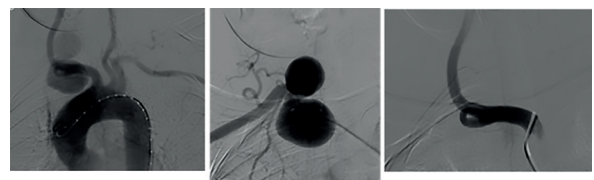
Thoracic Outlet Syndrome, Subclavian Artery Aneurysm, Hybrid Approach

## INTRODUÇÃO

O atingimento arterial na síndrome do desfiladeiro torácico (SDT) é extremamente raro, ocorrendo em menos de 1% dos casos<sup>5</sup>. O desenvolvimento de aneurismas da artéria subclávia corresponde apenas a uma pequena porção deste já raro subgrupo de doentes<sup>6</sup>. De facto, de todos os territórios vasculares, o sistema axilo-subclávio é dos locais onde menos frequentemente se desenvolvem aneurismas<sup>7</sup>. Os aneurismas neste local anatómico associam-se a elevado risco de complicações, nomeadamente embolização distal para o membro superior ou retrograda para o sistema vertebro-basilar, compressão do plexo braquial e rutura<sup>8</sup>. Embora o seu tratamento *gold standard* seja historicamente a cirurgia aberta<sup>8,9</sup>, o advento e massificação dos novos métodos endovasculares poderão conduzir a uma mudança de paradigma<sup>10</sup>. Descrevemos um caso particularmente raro de um doente com SDT neurológico com dois volumosos aneurismas da artéria subclávia (AAS) proximal e distal ao triângulo interescaleno.

## CASO CLÍNICO

Mulher, 55 anos, sem antecedentes de relevo. Atividade profissional desde a adolescência que implica transporte manual de caixas pesadas diversas vezes ao dia. Foi referenciada à consulta de cirurgia vascular por sintomas neurológicos compatíveis com SDT – parestesias importantes referidas ao antebraço e mão direita após movimentos do membro com carga. O exame objectivo demonstrou ausência de pulso radial e cubital do membro afectado, sem outras alterações. Angio-TC revelou a presença de dois volumosos AAS direita, de 31 e 42mm, separados pelo músculo escaleno anterior. A anatomia dos aneurismas foi melhor avaliada por angiografia (Fig 1).



**Figura 1** Angiografia diagnóstica: é possível observar 2 volumosos aneurismas na artéria subclávia (A e B), estando o primeiro aneurisma separado da artéria carótida direita por um colo de 15mm (C).



Foi decidida a exclusão endovascular dos aneurismas, após ter sido comprovada patência do polígono de Willis por Doppler transcraniano. A intervenção programada consistia em, por punção braquial retrograda, fazer progredir um guia rígido até ao arco aórtico com subsequente deposição de *stent* revestido entre artéria subclávia saudável proximal e distal aos aneurismas. Contudo, intraoperatoriamente não foi possível a progressão direta por punção braquial isolada, tendo sido necessário fazer progredir um *snare* (Indy, Cook) por acesso femoral, com subsequente *snaring* do guia dentro do aneurisma subclávio (Fig 2). Realizou-se posteriormente, com sucesso, a exclusão dos dois aneurismas com deposição de um *stent* recoberto 7x100mm (Viabahn, Gore) (Fig 2).

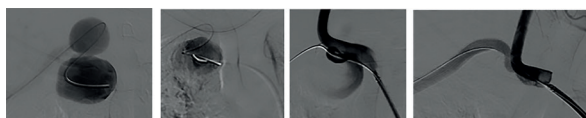


Figura 2 Exclusão endovascular dos AAS

Subsequentemente a doente foi submetida a escalenotomia anterior por abordagem supraclavicular (dois dias após o *stenting*). Constatou-se reversão total dos sintomas, tendo a doente tido alta 2 dias após a cirurgia. Angio-TC de controlo comprovou exclusão dos 2 AAS (fig 3). A doente mantém-se assintomática e com pulso radial palpável aos 6 meses de *follow-up*, tendo cumprido 2 meses de dupla antiagregação, seguido de terapêutica isolada com ácido acetilsalicílico.



Figura 3 Angio-TC 6 meses após o procedimento. É possível constatar a exclusão total dos aneurismas, sem aparentes endofugas.

## DISCUSSÃO / CONCLUSÃO

O termo SDT foi originalmente utilizado em 1956 por RM Peet para descrever a compressão do feixe neurovascular ao nível do *outlet* torácico<sup>3</sup>. O desenvolvimento de aneurismas da AS é uma complicação rara, mas potencialmente perigosa da SDT<sup>6</sup>. Embora historicamente tenha sido abordado por cirurgia aberta, os novos métodos endovasculares afirmam-se como uma opção elegante e de menor risco no tratamento de AAS<sup>10</sup>. Neste caso foi possível constatar a versatilidade da abordagem endovascular, com a possibilidade da realização de *snaring* do guia dentro do aneurisma como *bailout* de uma situação potencialmente complicada. Embora a exérese da primeira costela se este-

ja a assumir como o tratamento a oferecer para a decompressão do desfiladeiro torácico<sup>11</sup>, neste caso particular, a imagem e a história clínica foram altamente sugestivas de compressão pelo músculo escaleno, pelo que se optou pela escalenotomia isolada, tendo sido obtida resolução total do quadro. Em caso de recorrência dos sintomas ou imagem de compressão do *stent* a doente poderá ser submetida posteriormente a exérese da primeira costela. Este caso demonstra como as abordagens endovascular e aberta se podem conjugar para oferecer resultados aliantes. Do nosso conhecimento, esta é a primeira descrição na literatura de dois aneurismas em série da artéria subclávia no contexto de SDT.

## REFERÊNCIAS

1. Grunebach H, Arnold MW, Lum YW. Thoracic outlet syndrome. *Vascular medicine* 2015;20:493-5.
2. Gruss JD, Geissler C. [Aneurysms of the subclavian artery in thoracic outlet syndrome]. *Zentralblatt fur Chirurgie* 1997;122:730-4.
3. Peet RM, Henriksen JD, Anderson TP, et al. Thoracic-outlet syndrome: evaluation of a therapeutic exercise program. *Proceedings of the staff meetings Mayo Clinic* 1956;31:281-7.
4. Rochlin DH, Orlando MS, Likes KC, et al. Bilateral first rib resection and scalenectomy is effective for treatment of thoracic outlet syndrome. *J Vasc Surg* 2014;60:185-90.
5. Sanders RJ, Hammond SL, Rao NM. Diagnosis of thoracic outlet syndrome. *J Vasc Surg* 2007;46:601-4.
6. Durham JR, Yao JS, Pearce WH, et al. Arterial injuries in the thoracic outlet syndrome. *J Vasc Surg* 1995;21:57-69; discussion 70.
7. Salo JA, Ala-Kulju K, Heikkinen L, et al. Diagnosis and treatment of subclavian artery aneurysms. *European journal of vascular surgery* 1990;4:271-4.
8. Davidovic LB, Markovic DM, Pejic SD, et al. Subclavian artery aneurysms. *Asian journal of surgery / Asian Surgical Association* 2003;26:7-11; discussion 2.
9. Patton GM. Arterial thoracic outlet syndrome. *Hand clinics* 2004;20:107-11, viii.
10. Malliet C, Fourneau I, Daenens K, et al. Endovascular stent-graft and first rib resection for thoracic outlet syndrome complicated by an aneurysm of the subclavian artery. *Acta chirurgica Belgica* 2005;105:194-7.
11. Sheth RN, Campbell JN. Surgical treatment of thoracic outlet syndrome: a randomized trial comparing two operations. *Journal of neurosurgery Spine* 2005;3:355-63.