



Laparoscopic treatment of celiac axis compression by the median arcuate ligament and endovascular repair of a pancreaticoduodenal artery aneurysm: case report

Tratamento laparoscópico da compressão do tronco celíaco pelo ligamento arqueado do diafragma associado a correção endovascular do aneurisma de artéria pancreatoduodenal: relato de caso

Marcio Miyamoto^{1,2,3}, Cecilia Naomi Kanegusuku⁴, Carla Mariko Okabe⁴, Christiano Marlo Paggi Claus⁵,
Fernanda Zandavalli Ramos³, Ágata Rother⁴, Ana Paula Nudelmann Gubert⁶, Ricardo César Rocha Moreira³

Abstract

Compression of the celiac axis by the median arcuate ligament of the diaphragm can cause nonspecific symptoms such as abdominal pain, vomiting, and weight loss. There is a known association between stenosis or occlusion of the celiac trunk and aneurysms of the pancreaticoduodenal artery. Treatment strategies for patients who have this association should be selected on a case-by-case basis. We describe the case of a patient with pancreaticoduodenal artery aneurysm associated with compression of the celiac trunk by the arcuate ligament, which were managed with endovascular and laparoscopic techniques, respectively.

Keywords: median arcuate ligament syndrome; pancreaticoduodenal artery aneurysm; celiac plexus compression.

Resumo

A compressão do tronco celíaco pelo ligamento arqueado mediano do diafragma pode causar sintomas inespecíficos como dor abdominal, vômitos e emagrecimento. Existe uma associação comprovada entre estenoses ou oclusões do tronco celíaco e aneurismas da artéria pancreatoduodenal. Nas situações em que essa associação ocorre, a estratégia de tratamento deve ser individualizada. Relatamos o caso de uma paciente com aneurisma de artéria pancreatoduodenal associado à compressão do tronco celíaco pelo ligamento arqueado, manejados, respectivamente, por técnicas endovasculares e laparoscópicas.

Palavras-chave: síndrome do ligamento arqueado mediano; aneurisma de artéria pancreatoduodenal; compressão do plexo celíaco.

¹ Pontifícia Universidade Católica do Paraná – PUC-PR, Hospital Universitário Cajuru – HUC, Serviço de Cirurgia Vascular e Endovascular, Curitiba, PR, Brasil.

² Instituto VESSEL de Aperfeiçoamento Endovascular de Curitiba, Curitiba, PR, Brasil.

³ Hospital Nossa Senhora das Graças – HNSG, Serviço de Cirurgia Vascular e Endovascular Elias Abrão, Curitiba, PR, Brasil.

⁴ Pontifícia Universidade Católica do Paraná – PUC-PR, Hospital Universitário Cajuru – HUC, Liga Acadêmica de Medicina Vascular – LAMEV, Curitiba, PR, Brasil.

⁵ Hospital Nossa Senhora das Graças – HNSG, Serviço de Cirurgia Geral, Curitiba, PR, Brasil.

⁶ Hospital Santa Cruz, Serviço de Cirurgia Vascular, Curitiba, PR, Brasil.

Financial support: None.

Conflicts of interest: No conflicts of interest declared concerning the publication of this article.

Submitted: January 03, 2018. Accepted: June 08, 2018.

The study was carried out at Hospital Universitário Cajuru (HUC), Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR), Curitiba, PR, Brazil.

INTRODUCTION

The median arcuate ligament is formed by fibrous bands that connect the right and left crura of the diaphragm around the aortic hiatus. The ligament may exert extrinsic compression on the celiac trunk if its location is low, or if the origin of the vessel is high.¹

The association between stenosis or occlusions of the celiac trunk (irrespective of whether or not they are caused by extrinsic compression by the arcuate ligament) and aneurysms of the pancreaticoduodenal arcade is well defined in the literature.² Regardless of the association, these aneurysms account for less than 2% of all visceral aneurysms. It is estimated that 63 to 80% of patients with pancreaticoduodenal artery aneurysm have stenosis or occlusion of the celiac trunk³ and the majority of these aneurysms (around 80%) are diagnosed after rupture.⁴

We describe the case of a patient with saccular pancreaticoduodenal artery aneurysm associated with stenosis of the celiac trunk secondary to compression by the median arcuate ligament.

CASE DESCRIPTION

A 39-year-old woman with hepatitis C was being seen by the gastroenterology service to monitor a liver nodule. Abdominal ultrasonography identified a visceral artery aneurysm as an incidental finding. Angiotomography revealed that it was a saccular aneurysm of the pancreaticoduodenal artery, with a diameter of 40 mm, and showed subocclusive stenosis of the celiac trunk compatible with extrinsic compression (Figure 1).

The patient underwent laparoscopic relief of celiac trunk compression (Figure 2), thereby averting the possibility of mesenteric ischemia, as the pancreaticoduodenal artery is an important collateral route between the celiac trunk and the superior mesenteric artery and an undiscovered occlusion of this artery can cause visceral ischemia. The laparoscopic procedure was performed using a 10 mm trocar for the camera, in an umbilical position, and a further four trocars; in the right and left hypochondrium, the left flank, and a subxiphoid position. The gastrohepatic ligament, phrenoesophageal membrane, esophagus, and crura of the diaphragmatic were dissected, with inferior sectioning of the crura to enable the arcuate ligament to be viewed. Relief of celiac trunk compression was achieved by sectioning the arcuate ligament by electrocautery and the crura were drawn back together to prevent gastroesophageal reflux. Doppler ultrasonography conducted before hospital discharge showed that there was no longer compression of the celiac trunk and revealed some residual stenosis

and post-stenotic dilation (the pre-stenotic celiac trunk diameter was 10 mm and at the stenosis it was 3.5 mm) (Figure 3).

The patient returned 2 months later for pancreaticoduodenal artery aneurysm repair, which was performed under local anesthesia and sedation,

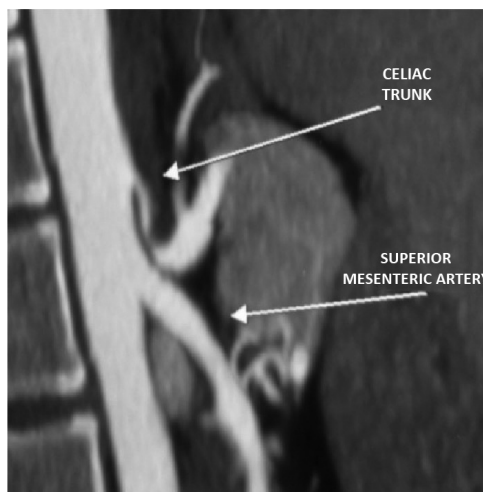


Figure 1. Angiotomography showing a pancreaticoduodenal artery aneurysm and compression of the origin of the celiac trunk by the arcuate ligament of the diaphragm, causing stenosis exceeding 90%.

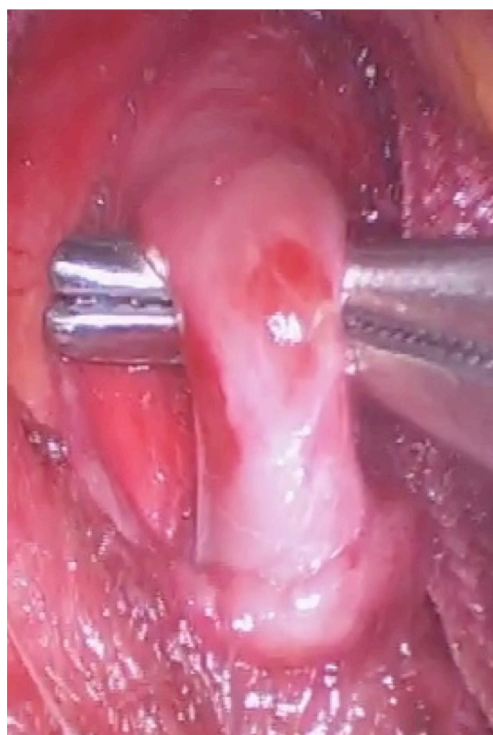


Figure 2. Relieving compression of the celiac trunk by sectioning the arcuate ligament via videolaroscopy.

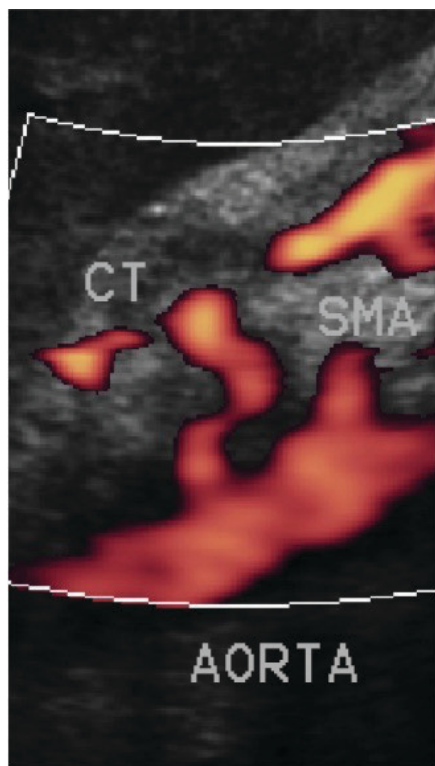


Figure 3. Doppler ultrasonography conducted after sectioning the arcuate ligament, showing absence of compression of the celiac trunk, leaving only residual stenosis with post-stenotic dilation. CT = celiac trunk; SMA = superior mesenteric artery.

via a left brachial access with selective catheterization of the superior mesenteric artery and selective embolization of the aneurysm sac with microcoils, with no intercurrent conditions (Figure 4). Four 20 mm to 25 mm x 50 cm Axium 3D microcoils and two Axium Helical microcoils 18 mm x 40 cm and 12 mm x 40 cm were used. Follow-up Doppler ultrasonography after 3 months showed thrombosis of the aneurysm and a patent pancreaticoduodenal artery, in addition to absence of extrinsic compression of the celiac trunk.

DISCUSSION

Compression of the celiac trunk by the median arcuate ligament is not an uncommon situation, but arcuate ligament syndrome is a rare entity with varied and nonspecific clinical presentation, so diagnosis is by exclusion.¹ One of the first descriptions of compression of the celiac trunk by the arcuate ligament was in 1917, observed during cadaveric dissections.^{1,5} In 1963, the syndrome was described in a patient whose symptoms were relieved after surgical section of the ligament.⁶ In 1967, a series of cases of this syndrome with similar symptoms was published.⁷

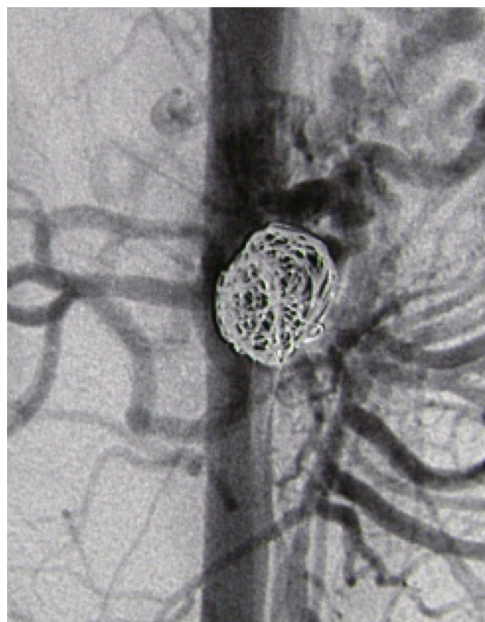


Figure 4. Embolization of the pancreaticoduodenal artery aneurysm with controlled release coils.

Clinical presentation can include postprandial or post exercise abdominal pain, nausea, vomiting, weight loss, and epigastric bruit.^{1,5,8} Occurrence of symptoms may be caused by restricted blood flow in situations of greater demand and by concomitant compression of the fibers of the periaortic celiac plexus.^{1,8} Differential diagnosis should be conducted to rule out gastrointestinal diseases such as peptic ulcer, cholecystitis, pancreatitis, and chronic mesenteric ischemia.

Celiac trunk compression can be diagnosed by Doppler ultrasonography, which shows compression of the vessel and reverse flow in the hepatic artery, suggesting proximal stenosis or occlusion. An elevated systolic peak velocity in the celiac trunk only during expiration is indicative of dynamic compression.^{1,5,8}

Angiography is the gold standard for diagnosis and the classic findings are an asymmetrical focal narrowing of the celiac trunk, more pronounced during expiration, with or without post-stenotic dilation.^{1,5} Even though angiotomography is not a dynamic examination, it offers the possibility of assessing adjacent, non-vascular structures.¹

The association between compression of the celiac trunk by the arcuate ligament (or stenosis or occlusion of any other etiology) and aneurysms of the pancreaticoduodenal artery was first described in the 1970s.^{9,10} Pathophysiology is related to the increased blood flow through the pancreaticoduodenal arteries,⁹ at the stenosis or occlusion of the celiac trunk, since

flow through the territory of the superior mesenteric artery is diverted through collaterals to those with reduced flow.^{1,8}

These aneurysms may be asymptomatic or may manifest symptoms related to extrinsic compression of the gastrointestinal or biliary tracts.⁹ Intestinal bleeding can occur if the aneurysm ruptures into the duodenum and/or pancreatic ducts.^{2,11} Diagnosis can be made by angiogramography.⁶

The risk of rupture does not appear to be related to size with these types of aneurysm.² The rupture-related mortality rate is high and can range from 50 to 90%.^{2,12} Considering these two facts, there is no doubt of the need for treatment in the case described, despite the lack of a consensus on the minimum size at which treatment is indicated.

There is also no consensus on the need for treatment of celiac trunk compression in asymptomatic patients with pancreaticoduodenal artery aneurysms.⁵ However, it seems logical that it would be necessary to relieve the compression of the celiac trunk before attempting to treat the aneurysm, in case embolization of the aneurysm is planned, in order to avoid the possibility of ischemia and recurrence of the aneurysm because the flow remains elevated.¹³ However, there are no reports of recurrence of a pancreaticoduodenal artery aneurysm after embolization, even in the absence of prior treatment of the celiac trunk.²

Traditionally, treatment for arcuate ligament syndrome, via a midline surgical access or laparoscopy, consists of sectioning the ligament to relieve compression of the celiac trunk and eliminate irritation caused by compression of nerve fibers.⁸ More recently, there has been a trend to use endovascular and laparoscopic techniques.¹

The open procedure for treatment of this syndrome is well-documented,¹⁴ and the patients that most benefit from the treatment are those with postprandial pain, age between 40 and 60 years, and with significant weight loss.¹⁴ A group of 18 patients with arcuate ligament syndrome underwent open surgical treatment to section the ligament and resection of the adjacent periaortic tissues. After three and a half years of follow-up, 73.3% of the patients were asymptomatic.⁵

Treatment of arcuate ligament syndrome with videolaparoscopy was documented in 16 patients. Just two of these patients did not exhibit relief from symptoms during the postoperative period (improvement in 87.5%), because of fixed stenosis of the celiac trunk, which was managed with balloon angioplasty and stent placement. Even so, in one of these cases an aortoceliac bypass was necessary.⁸

The difficulty in treating arcuate ligament syndrome resides in the patients with nonspecific gastrointestinal

symptoms. The difficulty in establishing a causal link between the anatomic condition and the presence of symptoms can result in a low level of treatment effectiveness.

Recent publications have demonstrated improvement in videolaparoscopic techniques, such as introduction of an ultrasonography probe, as a means of documenting the increased blood flow after the ligament is resected, and use of robots.^{15,16} It has been demonstrated that treatment of the vascular injury in isolation does not produce good long-term results, and it is necessary to lyse the ligament fibers.¹⁷

As for the pancreaticoduodenal artery aneurysms, endovascular treatment tends to be indicated when the diameter exceeds two centimeters, there is rapid growth and symptoms. Other factors that should be considered are a sacular shape and location in collateralization arteries. Aneurysms that are morphologically favorable for endovascular techniques are those with narrow necks, adequate collateral flow and non-terminal vessels. Endovascular management is the preferred option for pancreaticoduodenal aneurysms.¹¹ There are still indications for open surgical treatment of visceral aneurysms, but the endovascular approach offers several advantages, such as being less invasive, having fewer serious complications, and enabling selective embolization.

Embolization can be achieved with a variety of different materials, although microcoils are the most widely used.² There are certain limitations related to the technique when using covered stents to exclude aneurysms, such as to the release system and difficulty of fitting in more tortuous arteries, and to the risk of intra-stent thrombosis. Use of covered stents is more appropriate in arteries with diameters exceeding six millimeters and to prevent migration of microcoils in sacular aneurysms with wide necks.²

It is also important to point out that endovascular treatment can be used with patients who have a ruptured aneurysm.¹³ Open surgical treatment is subject to technical difficulties primarily related to access to the pancreaticoduodenal arcade and to bleeding control. These difficulties have stimulated development of endovascular techniques. Notwithstanding, there are reports of successful open treatment.¹⁸

CONCLUSIONS

When a patient has both compression of the celiac trunk by the arcuate ligament and a pancreaticoduodenal artery aneurysm, the treatment of both conditions is necessary. However, it is clear that less invasive treatments such as videolaparoscopy and endovascular techniques offer advantages over open surgery,

considering the morbidity and mortality related to the procedure.

■ REFERENCES

- Duffy AJ, Panait L, Eisenberg D, Bell RL, Roberts KE, Sumpio B. Management of median arcuate ligament syndrome: a new paradigm. *Ann Vasc Surg.* 2009;23(6):778-84. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2008.11.005>. PMID:19128929.
- Kallamadi R, DeMoya MA, Kalva SP. Inferior pancreaticoduodenal artery aneurysms in association with celiac stenosis/occlusion. *Semin Intervent Radiol.* 2009;26(3):215-23. <http://dx.doi.org/10.1055/s-0029-1225671>. PMID:21326566.
- Murata S, Tajima H, Fukunaga T, et al. Management of pancreaticoduodenal artery aneurysms: results of superselective transcatheter embolization. *AJR Am J Roentgenol.* 2006;187(3):290-8. <http://dx.doi.org/10.2214/AJR.04.1726>. PMID:16928907.
- Thevenet A, Domergue J, Joyeux A. Surgical treatment of stenoses of the celiac trunk caused by the arcuate ligament of the diaphragm. Long-term results. *Chirurgie.* 1985;111(10):851-6. PMID:3836803.
- Grotemeyer D, Duran M, Iskandar F, Blondin D, Nguyen K, Sandmann W. Median arcuate ligament syndrome: vascular surgical therapy and follow-up of 18 patients. *Langenbecks Arch Surg.* 2009;394(6):1085-92. <http://dx.doi.org/10.1007/s00423-009-0509-5>. PMID:19506899.
- Harjola PT. A rare obstruction of the coeliac artery. Report of a case. *Ann Chir Gynaecol Fenn.* 1963;52:547-50. PMID:14083857.
- Dunbar JD, Molnar W, Beman FF, Marable SA. Compression of the celiac trunk and abdominal angina. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med.* 1965;95(3):731-44. <http://dx.doi.org/10.2214/ajr.95.3.731>. PMID:5844938.
- Baccari P, Civilini E, Dordoni L, Melissano G, Nicoletti R, Chiesa R. Celiac artery compression syndrome managed by laparoscopy. *J Vasc Surg.* 2009;50(1):134-9. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2008.11.124>. PMID:19563961.
- Sutton D, Lawton G. Coeliac stenosis or occlusion with aneurysm of the collateral supply. *Clin Radiol.* 1973;24(1):49-53. [http://dx.doi.org/10.1016/S0009-9260\(73\)80114-X](http://dx.doi.org/10.1016/S0009-9260(73)80114-X). PMID:4723494.
- Kadir S, Athanasoulis CA, Yune HY, Wilkov H. Aneurysms of the pancreaticoduodenal arteries in association with celiac axis occlusion. *Cardiovasc Radiol.* 1978;1(3):173-7. <http://dx.doi.org/10.1007/BF02552029>. PMID:743713.
- Chadha M, Ahuja C. Visceral artery aneurysms: diagnosis and percutaneous management. *Semin Intervent Radiol.* 2009;26(3):196-206. <http://dx.doi.org/10.1055/s-0029-1225670>. PMID:21326564.
- Hildebrand P, Esnaashari H, Franke C, Bürk C, Bruch HP. Surgical management of pancreaticoduodenal artery aneurysms in association with celiac trunk occlusion or stenosis. *Ann Vasc Surg.* 2007;21(1):10-5. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2006.05.001>. PMID:17349329.
- Iwazawa J, Hamuro M, Sakai Y, Nakamura K. Successful embolization of a ruptured pancreaticoduodenal artery aneurysm associated with the median arcuate ligament syndrome. *Indian J Radiol Imaging.* 2008;18(2):171-4. <http://dx.doi.org/10.4103/0971-3026.40305>.
- Reilly LM, Ammar AD, Stoney RJ, Ehrenfeld WK. Late results following operative repair for celiac artery compression syndrome. *J Vasc Surg.* 1985;2(1):79-91. [http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214\(85\)90177-6](http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214(85)90177-6). PMID:3965762.
- Roayaie S, Jossart G, Gitlitz D, Lamparello P, Hollier L, Gagner M. Laparoscopic release of celiac artery compression syndrome facilitated by laparoscopic ultrasound scanning to confirm restoration of flow. *J Vasc Surg.* 2000;32(4):814-7. <http://dx.doi.org/10.1067/mva.2000.107574>. PMID:11013046.
- Jaik NP, Stawicki SP, Weger NS, Lukaszczuk JJ. Celiac artery compression syndrome: successful utilization of robotic-assisted laparoscopic approach. *J Gastrointest Liver Dis.* 2007;16(1):93-6. PMID:17410294.
- Cina CS, Safar H. Successful treatment of recurrent celiac axis compression syndrome. A case report. *Panminerva Med.* 2002;44(1):69-72. PMID:11887094.
- Golarz SR, Hohmann S. Obstruction of the celiac axis resulting in a pancreaticoduodenal artery aneurysm. *Proc Bayl Univ Med Cent.* 2009;22(4):330-1. <http://dx.doi.org/10.1080/08998280.2009.11928548>. PMID:19865503.

Correspondence

Marcio Miyamoto
Rua Francisco Juglair, 77/505 - Mossunguê
CEP 81200-230 - Curitiba (PR), Brasil
Tel.: +55 (41) 99961-0486
E-mail: miyamoto@gmail.com

Author information

MM - Vascular surgeon and chief, Serviço de Cirurgia Vascular, Hospital Universitário Cajuru (HUC), Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR); Vascular and endovascular surgeon, Serviço de Cirurgia Vascular e Endovascular Elias Abrão, Hospital Nossa Senhora das Graças, Curitiba; Tutor, Liga Acadêmica de Medicina Vascular, Hospital Universitário Cajuru (LAMEV); Director, Instituto VESSEL de Aperfeiçoamento Endovascular.
CNK and CMO - Medical students, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR); Members, Liga Acadêmica de Medicina Vascular, Hospital Universitário Cajuru, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (LAMEV).
CMPC - General and laparoscopic surgeon, Serviço de Cirurgia Geral, Hospital Nossa Senhora das Graças (HNSG).
FZR - Vascular surgeon and former resident physician, Serviço de Cirurgia Vascular e Endovascular Elias Abrão, Hospital Nossa Senhora das Graças (HNSG).
AR - Medical student, Universidade Federal do Paraná (UFPR); Member, Liga Acadêmica de Medicina Vascular, Hospital Universitário Cajuru, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (LAMEV).
APNG - Vascular surgeon, Serviço de Cirurgia Vascular, Hospital Santa Cruz.
RCRM - Vascular surgeon and chief, Serviço de Cirurgia Vascular e Endovascular Elias Abrão, Hospital Nossa Senhora das Graças (HNSG); PhD in Surgical Medicine, Universidade Federal do Paraná (UFPR).

Author contributions

Conception and design: MM, RCRM
Analysis and interpretation: MM, RCRM
Data collection: MM, CNK, CMO, CMPC, FZR, AR, APGN
Writing the article: MM, CNK, CMO, CMPC, FZR, AR, APGN
Critical revision of the article: MM
Final approval of the article*: MM, CNK, CMO, CMPC, FZR, AR, APNG, RCRM
Statistical analysis: N/A
Overall responsibility: MM

*All authors have read and approved of the final version of the article submitted to *J Vasc Bras.*

Tratamento laparoscópico da compressão do tronco celíaco pelo ligamento arqueado do diafragma associado a correção endovascular do aneurisma de artéria pancreatoduodenal: relato de caso

Laparoscopic treatment of celiac axis compression by the median arcuate ligament and endovascular repair of a pancreaticoduodenal artery aneurysm: case report

Marcio Miyamoto^{1,2,3}, Cecília Naomi Kanegusuku⁴, Carla Mariko Okabe⁴, Christiano Marlo Paggi Claus⁵, Fernanda Zandavalli Ramos³, Ágata Rothert⁴, Ana Paula Nudelmann Gubert⁶, Ricardo César Rocha Moreira³

Resumo

A compressão do tronco celíaco pelo ligamento arqueado mediano do diafragma pode causar sintomas inespecíficos como dor abdominal, vômitos e emagrecimento. Existe uma associação comprovada entre estenoses ou oclusões do tronco celíaco e aneurismas da artéria pancreatoduodenal. Nas situações em que essa associação ocorre, a estratégia de tratamento deve ser individualizada. Relatamos o caso de uma paciente com aneurisma de artéria pancreatoduodenal associado à compressão do tronco celíaco pelo ligamento arqueado, manejados, respectivamente, por técnicas endovasculares e laparoscópicas.

Palavras-chave: síndrome do ligamento arqueado mediano; aneurisma de artéria pancreatoduodenal; compressão do plexo celíaco.

Abstract

Compression of the celiac axis by the median arcuate ligament of the diaphragm can cause nonspecific symptoms such as abdominal pain, vomiting, and weight loss. There is a known association between stenosis or occlusion of the celiac trunk and aneurysms of the pancreaticoduodenal artery. Treatment strategies for patients who have this association should be selected on a case-by-case basis. We describe the case of a patient with pancreaticoduodenal artery aneurysm associated with compression of the celiac trunk by the arcuate ligament, which were managed with endovascular and laparoscopic techniques, respectively.

Keywords: median arcuate ligament syndrome; pancreaticoduodenal artery aneurysm; celiac plexus compression.

¹ Pontifícia Universidade Católica do Paraná – PUC-PR, Hospital Universitário Cajuru – HUC, Serviço de Cirurgia Vascular e Endovascular, Curitiba, PR, Brasil.

² Instituto VESSEL de Aperfeiçoamento Endovascular de Curitiba, Curitiba, PR, Brasil.

³ Hospital Nossa Senhora das Graças – HNSG, Serviço de Cirurgia Vascular e Endovascular Elias Abrão, Curitiba, PR, Brasil.

⁴ Pontifícia Universidade Católica do Paraná – PUC-PR, Hospital Universitário Cajuru – HUC, Liga Acadêmica de Medicina Vascular – LAMEV, Curitiba, PR, Brasil.

⁵ Hospital Nossa Senhora das Graças – HNSG, Serviço de Cirurgia Geral, Curitiba, PR, Brasil.

⁶ Hospital Santa Cruz, Serviço de Cirurgia Vascular, Curitiba, PR, Brasil.

Fonte de financiamento: Nenhuma.

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

Submetido em: Janeiro 03, 2018. Aceito em: Junho 08, 2018.

O estudo foi realizado no Hospital Universitário Cajuru (HUC), Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR), Curitiba, PR, Brasil.

INTRODUÇÃO

O ligamento arqueado mediano é formado por bandas fibrosas de conexão entre os pilares direito e esquerdo do diafragma ao redor do hiato aórtico. Esse ligamento pode gerar compressão extrínseca do tronco celíaco por sua implantação mais inferior ou pela origem mais alta desse vaso¹.

A associação entre estenoses ou oclusões do tronco celíaco, causadas ou não pela compressão do ligamento arqueado, e aneurismas da arcada pancreatoduodenal é bem descrita na literatura². Independentemente da associação, esses aneurismas representam menos de 2% de todos os aneurismas viscerais. Estima-se que 63 a 80% dos pacientes com aneurisma de artéria pancreatoduodenal têm estenose ou oclusão de tronco celíaco³, sendo que a maioria dos aneurismas (cerca de 80%) são diagnosticados após a ruptura⁴.

Relatamos o caso de paciente com aneurisma sacular de artéria pancreatoduodenal associado a estenose do tronco celíaco por compressão pelo ligamento arqueado mediano.

DESCRIÇÃO DO CASO

Paciente do sexo feminino, 39 anos, portadora de hepatite C, estava em acompanhamento com a gastroenterologia devido a nódulo hepático. A ultrassonografia abdominal apresentou como achado incidental um aneurisma de artéria visceral. A angiotomografia evidenciou aneurisma sacular com diâmetro de 40 mm na artéria pancreatoduodenal e estenose suboclusiva de tronco celíaco compatível com compressão extrínseca (Figura 1).

A paciente foi submetida previamente a liberação laparoscópica da compressão do tronco celíaco (Figura 2), prevenindo assim uma eventual isquemia mesentérica, já que a artéria pancreatoduodenal é uma importante via colateral entre o tronco celíaco e a artéria mesentérica superior, e a oclusão inadvertida dessa artéria poderia ocasionar um quadro de isquemia visceral. O procedimento laparoscópico foi realizado através de um trocarte de 10 mm para câmera em posição umbilical e outros quatro trocartes no hipocôndrio direito e esquerdo, no flanco esquerdo e em posição subxifoide. Foram dissecados o ligamento gastro-hepático, a membrana frenoesofágica, o esôfago e os pilares diafragmáticos, com secção inferior desses últimos para visibilização do ligamento arqueado. A descompressão do tronco celíaco foi realizada pela secção do ligamento arqueado com eletrocautério e os pilares diafragmáticos foram reaproximados para prevenir o refluxo gastroesofágico. O eco-Doppler realizado antes da alta hospitalar demonstrou ausência de compressão do tronco celíaco, restando uma estenose

residual com dilatação pós-estenótica (o tronco celíaco pré-estenose tem 10 mm e, na estenose, passa a ter 3,5 mm) (Figura 3).

A paciente retornou em dois meses para correção de aneurisma de artéria pancreatoduodenal, realizada sob anestesia local e sedação, através de acesso braquial esquerdo com cateterização seletiva da artéria mesentérica superior e embolização seletiva do saco

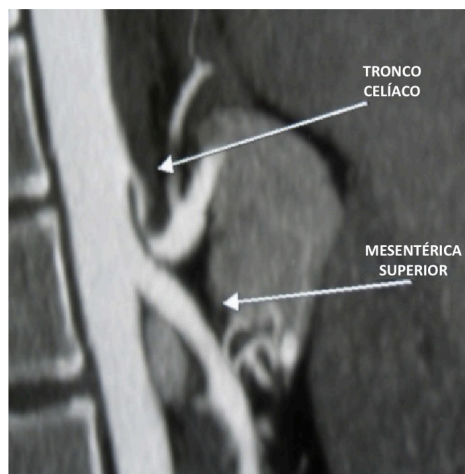


Figura 1. Angiotomografia evidenciando a presença de aneurisma de artéria pancreatoduodenal e compressão da origem do tronco celíaco pelo ligamento arqueado do diafragma, gerando estenose acima de 90%.

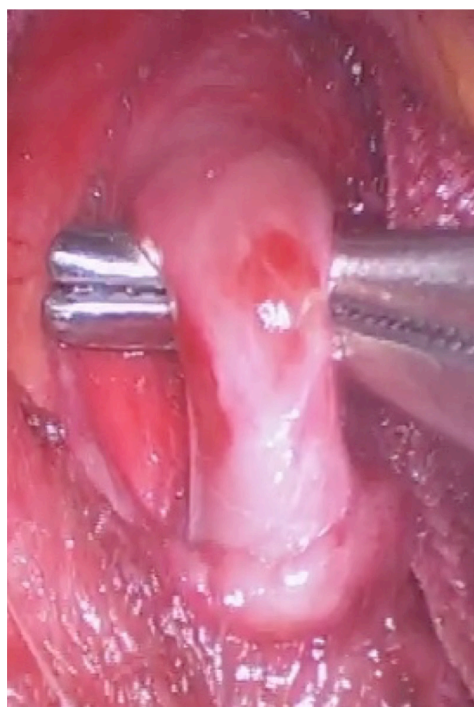


Figura 2. Liberação da compressão do tronco celíaco através da secção do ligamento arqueado por videolaparoscopia.

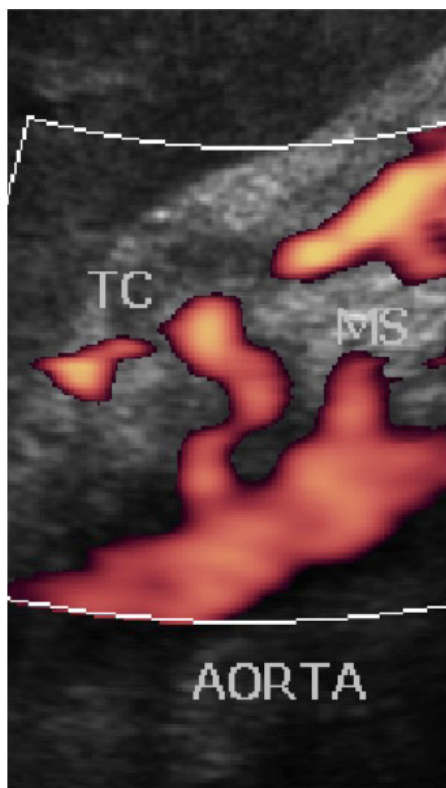


Figura 3. Eco-Doppler realizado após a secção do ligamento arqueado mostrando a ausência de compressão do tronco celíaco, restando apenas uma estenose residual com dilatação pós-estenótica. TC = tronco celíaco; MS = mesentérica superior.

aneurismático com micromolas, sem intercorrências (Figura 4). Foram utilizadas quatro micromolas Axiom 3D de 20 a 25 mm x 50 cm e duas Axiom Helical de 18 mm x 40 cm e 12 mm x 40 cm. O seguimento com eco-Doppler em três meses evidenciou trombose do aneurisma com perviedade da artéria pancreatoduodenal, além de ausência de compressão extrínseca do tronco celíaco.

DISCUSSÃO

A compressão do tronco celíaco pelo ligamento arqueado mediano não é uma situação incomum, mas a síndrome do ligamento arqueado é uma entidade rara e tem uma apresentação clínica variada e inespecífica, sendo um diagnóstico de exclusão¹. Uma das primeiras descrições da compressão do tronco celíaco pelo ligamento arqueado foi em 1917 através de disseções cadavéricas^{1,5}. Em 1963, a síndrome foi descrita em um paciente que apresentou alívio dos sintomas após a secção cirúrgica do ligamento⁶. Em 1967, foi publicada uma série de casos dessa síndrome com sintomas similares⁷.

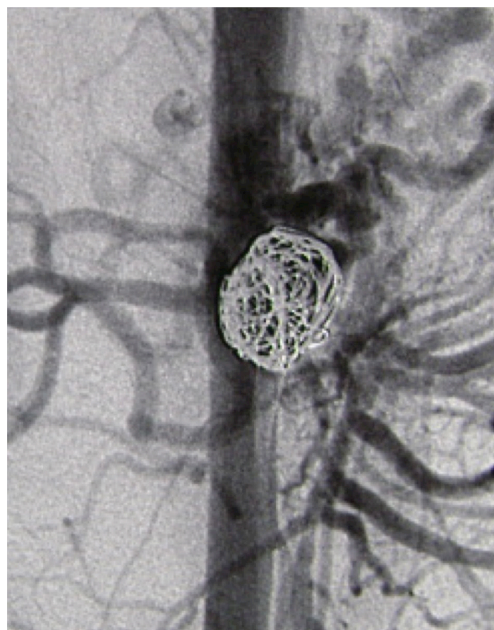


Figura 4. Embolização do aneurisma de artéria pancreatoduodenal com molas de liberação controlada.

A apresentação clínica pode incluir dor abdominal pós-prandial ou após exercícios, náusea, vômito, perda de peso e sopro epigástrico^{1,5,8}. A ocorrência dos sintomas pode ser explicada pela diminuição de fluxo em situações de maior demanda e pela compressão concomitante das fibras do plexo celíaco periaórtico^{1,8}. O diagnóstico diferencial deve ser realizado com doenças gastrointestinais como úlcera péptica, colecistite, pancreatite e isquemia mesentérica crônica.

O diagnóstico da compressão do tronco celíaco pode ser obtido por eco-Doppler evidenciando a compressão do vaso, além do fluxo reverso na artéria hepática, sugerindo estenose ou oclusão proximal. O achado da elevação do pico de velocidade sistólica no tronco celíaco somente durante a expiração é indicativo de compressão dinâmica^{1,5,8}.

A angiografia é o exame diagnóstico de excelência, e os achados clássicos são o estreitamento focal assimétrico no tronco celíaco, mais relevante à expiração, associado ou não a dilatação pós-estenótica^{1,5}. A angiotomografia, mesmo sendo um exame não dinâmico, permite avaliar estruturas não vasculares adjacentes¹.

A associação entre a compressão do tronco celíaco pelo ligamento arqueado, ou qualquer estenose ou oclusão de outra etiologia, e aneurismas da artéria pancreatoduodenal foi descrita inicialmente na década de 1970^{9,10}. A fisiopatologia está relacionada ao aumento de fluxo sanguíneo nas artérias pancreatoduodenais⁹, na estenose ou oclusão do tronco celíaco, já que o

fluxo do território da artéria mesentérica superior é desviado por colaterais para suprir aquele com baixo fluxo^{1,8}.

Esses aneurismas podem ser assintomáticos ou apresentar sintomas relacionados à compressão extrínseca do trato gastrointestinal ou biliar⁹. Sangramento intestinal pode ocorrer devido à ruptura do aneurisma no duodeno e/ou nos ductos pancreáticos^{2,11}. O diagnóstico pode ser realizado por angiotomografia⁶.

O risco de ruptura desses tipos de aneurisma parece não estar relacionado ao seu tamanho². A taxa de mortalidade associada à ruptura é alta e pode variar de 50 a 90%^{2,12}. Considerando essas duas informações, embora não haja consenso sobre o tamanho mínimo para indicação de tratamento, no caso apresentado não há dúvidas sobre a necessidade da abordagem.

Não existe consenso sobre a necessidade do tratamento da compressão do tronco celíaco nos pacientes assintomáticos com aneurisma de artéria pancreatoduodenal⁵. Entretanto, parece lógico que a descompressão prévia do tronco celíaco seja necessária para permitir o tratamento do aneurisma, caso a embolização do aneurisma esteja prevista, para evitar um possível quadro isquêmico e a recorrência do aneurisma pela manutenção do hiperfluxo¹³. Entretanto, não há relatos de recorrência do aneurisma de artéria pancreatoduodenal após a embolização, mesmo sem o tratamento prévio do tronco celíaco².

Tradicionalmente, o tratamento da síndrome do ligamento arqueado, por acesso cirúrgico mediano ou laparoscopia, consiste na secção do ligamento para descomprimir o tronco celíaco e, secundariamente, eliminar a irritação causada por compressão das fibras nervosas⁸. Recentemente, há a tendência da abordagem endovascular e laparoscópica¹.

O procedimento aberto para correção da síndrome supracitada é bem documentado¹⁴, e os pacientes que mais se beneficiam do tratamento são aqueles com dor pós-prandial, idade entre 40 e 60 anos e perda de peso significativa¹⁴. Um grupo de 18 pacientes com síndrome do ligamento arqueado foi submetido ao tratamento cirúrgico aberto por secção do ligamento e ressecção dos tecidos adjacentes periaórticos. Após três anos e meio de seguimento, 73,3% dos pacientes apresentavam-se assintomáticos⁵.

O tratamento da síndrome do ligamento arqueado foi documentado em 16 pacientes por via videolaparoscópica. Apenas dois pacientes não apresentaram alívio dos sintomas no pós-operatório (melhora de 87,5%) devido à presença de estenose fixa no tronco celíaco, manejada com angioplastia por balão e implante de stent. Mesmo assim, em um desses casos, houve necessidade de confecção de ponte aorta-tronco celíaco⁸.

A grande dificuldade no tratamento da síndrome do ligamento arqueado reside no grupo de pacientes com sintomas gastrointestinais inespecíficos. A dificuldade no estabelecimento de umnexo causal razoável entre a condição anatômica e a presença dos sintomas pode resultar em um baixo índice de efetividade do tratamento.

Publicações recentes têm demonstrado aprimoramento na técnica videolaparoscópica, como a introdução de probe de ultrassonografia, como forma de documentar o incremento de fluxo sanguíneo após a liberação do ligamento, e a utilização da robótica^{15,16}. Já foi demonstrado que o tratamento isolado da lesão vascular não produz bons resultados em longo prazo, sendo necessária a lise das fibras ligamentares¹⁷.

Com relação ao aneurisma de artéria pancreatoduodenal, o tratamento endovascular costuma ser indicado quando o diâmetro é maior que dois centímetros, com crescimento rápido ou sintomático. Outros fatores que devem ser considerados são o formato sacular e a localização em artérias de colateralização. Os aneurismas que são morfológicamente favoráveis à técnica endovascular são os de colo estreito, fluxo colateral adequado e vasos não terminais. O manejo endovascular é o preferencial em aneurismas pancreatoduodenais¹¹. O tratamento cirúrgico aberto dos aneurismas viscerais ainda tem indicações, mas a abordagem endovascular tem diversas vantagens, como ser menos invasiva, ter complicações menos graves e permitir embolização seletiva.

A embolização pode ser realizada com diversos materiais, sendo a embolização com micromolas a mais utilizada². O uso de stents recobertos para a exclusão dos aneurismas apresenta algumas dificuldades relacionadas à técnica, como limitações no sistema de liberação, dificuldade de acomodação em artérias mais tortuosas e risco de trombose intra-stent. A utilização de stents recobertos é mais indicada em artérias de diâmetro maior que seis milímetros e como prevenção da migração das micromolas em aneurismas saculares de colo largo².

É importante ressaltar que o tratamento endovascular é factível em pacientes na vigência de ruptura do aneurisma¹³. O tratamento cirúrgico aberto apresenta dificuldades técnicas relacionadas principalmente ao acesso à arcada pancreatoduodenal e ao controle do sangramento. Tais dificuldades estimularam o desenvolvimento da técnica endovascular. Ainda assim, há relatos bem sucedidos da abordagem aberta¹⁸.

CONCLUSÃO

Quando existe associação entre a compressão do tronco celíaco pelo ligamento arqueado e o aneurisma de artéria pancreatoduodenal, há necessidade do tratamento de ambas as condições. Entretanto, torna-se

claro que os tratamentos menos invasivos como a videolaparoscopia e a técnica endovascular apresentam vantagens sobre a cirurgia aberta, considerando a morbimortalidade relacionada ao procedimento.

REFERÊNCIAS

- Duffy AJ, Panait L, Eisenberg D, Bell RL, Roberts KE, Sumpio B. Management of median arcuate ligament syndrome: a new paradigm. *Ann Vasc Surg.* 2009;23(6):778-84. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2008.11.005>. PMID:19128929.
- Kallamadi R, DeMoya MA, Kalva SP. Inferior pancreaticoduodenal artery aneurysms in association with celiac stenosis/occlusion. *Semin Intervent Radiol.* 2009;26(3):215-23. <http://dx.doi.org/10.1055/s-0029-1225671>. PMID:21326566.
- Murata S, Tajima H, Fukunaga T, et al. Management of pancreaticoduodenal artery aneurysms: results of superselective transcatheter embolization. *AJR Am J Roentgenol.* 2006;187(3):290-8. <http://dx.doi.org/10.2214/AJR.04.1726>. PMID:16928907.
- Thevenet A, Domergue J, Joyeux A. Surgical treatment of stenoses of the celiac trunk caused by the arcuate ligament of the diaphragm. Long-term results. *Chirurgie.* 1985;111(10):851-6. PMID:3836803.
- Grotemeyer D, Duran M, Iskandar F, Blondin D, Nguyen K, Sandmann W. Median arcuate ligament syndrome: vascular surgical therapy and follow-up of 18 patients. *Langenbecks Arch Surg.* 2009;394(6):1085-92. <http://dx.doi.org/10.1007/s00423-009-0509-5>. PMID:19506899.
- Harjola PT. A rare obstruction of the coeliac artery. Report of a case. *Ann Chir Gynaecol Fenn.* 1963;52:547-50. PMID:14083857.
- Dunbar JD, Molnar W, Beman FF, Marable SA. Compression of the celiac trunk and abdominal angina. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med.* 1965;95(3):731-44. <http://dx.doi.org/10.2214/ajr.95.3.731>. PMID:5844938.
- Baccari P, Civilini E, Dordoni L, Melissano G, Nicoletti R, Chiesa R. Celiac artery compression syndrome managed by laparoscopy. *J Vasc Surg.* 2009;50(1):134-9. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2008.11.124>. PMID:19563961.
- Sutton D, Lawton G. Coeliac stenosis or occlusion with aneurysm of the collateral supply. *Clin Radiol.* 1973;24(1):49-53. [http://dx.doi.org/10.1016/S0009-9260\(73\)80114-X](http://dx.doi.org/10.1016/S0009-9260(73)80114-X). PMID:4723494.
- Kadir S, Athanasoulis CA, Yune HY, Wilkov H. Aneurysms of the pancreaticoduodenal arteries in association with celiac axis occlusion. *Cardiovasc Radiol.* 1978;1(3):173-7. <http://dx.doi.org/10.1007/BF02552029>. PMID:743713.
- Chadha M, Ahuja C. Visceral artery aneurysms: diagnosis and percutaneous management. *Semin Intervent Radiol.* 2009;26(3):196-206. <http://dx.doi.org/10.1055/s-0029-1225670>. PMID:21326564.
- Hildebrand P, Esnaashari H, Franke C, Bürk C, Bruch HP. Surgical management of pancreaticoduodenal artery aneurysms in association with celiac trunk occlusion or stenosis. *Ann Vasc Surg.* 2007;21(1):10-5. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2006.05.001>. PMID:17349329.
- Iwazawa J, Hamuro M, Sakai Y, Nakamura K. Successful embolization of a ruptured pancreaticoduodenal artery aneurysm associated with the median arcuate ligament syndrome. *Indian J Radiol Imaging.* 2008;18(2):171-4. <http://dx.doi.org/10.4103/0971-3026.40305>.
- Reilly LM, Ammar AD, Stoney RJ, Ehrenfeld WK. Late results following operative repair for celiac artery compression syndrome. *J Vasc Surg.* 1985;2(1):79-91. [http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214\(85\)90177-6](http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214(85)90177-6). PMID:3965762.
- Roayaie S, Jossart G, Gitlitz D, Lamparello P, Hollier L, Gagner M. Laparoscopic release of celiac artery compression syndrome facilitated by laparoscopic ultrasound scanning to confirm restoration of flow. *J Vasc Surg.* 2000;32(4):814-7. <http://dx.doi.org/10.1067/mva.2000.107574>. PMID:11013046.
- Jaik NP, Stawicki SP, Weger NS, Lukaszczuk JJ. Celiac artery compression syndrome: successful utilization of robotic-assisted laparoscopic approach. *J Gastrointest Liver Dis.* 2007;16(1):93-6. PMID:17410294.
- Cina CS, Safar H. Successful treatment of recurrent celiac axis compression syndrome. A case report. *Panminerva Med.* 2002;44(1):69-72. PMID:11887094.
- Golarz SR, Hohmann S. Obstruction of the celiac axis resulting in a pancreaticoduodenal artery aneurysm. *Proc Bayl Univ Med Cent.* 2009;22(4):330-1. <http://dx.doi.org/10.1080/08998280.2009.11928548>. PMID:19865503.

Correspondência

Marcio Miyamoto
Rua Francisco Juglair, 77/505 – Mossunguê
CEP 81200-230 – Curitiba (PR), Brasil
Tel: (41) 99961-0486
E-mail: miyamoto@gmail.com

Informações sobre os autores

MM - Cirurgião vascular chefe, Serviço de Cirurgia Vascular, Hospital Universitário Cajuru (HUC), Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR); Cirurgião vascular e endovascular, Serviço de Cirurgia Vascular e Endovascular Elias Abrão, Hospital Nossa Senhora das Graças de Curitiba; Tutor, Liga Acadêmica de Medicina Vascular, Hospital Universitário Cajuru (LAMEV); Diretor, Instituto VESSEL de Aperfeiçoamento Endovascular.
CNK e CMO - Acadêmicas, curso de Medicina, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR); Integrantes, Liga Acadêmica de Medicina Vascular, Hospital Universitário Cajuru, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (LAMEV).
CMPC - Cirurgião geral e laparoscópico, Serviço de Cirurgia Geral, Hospital Nossa Senhora das Graças (HNSG).
FZR - Cirurgiã vascular e ex-residente, Serviço de Cirurgia Vascular e Endovascular Elias Abrão, Hospital Nossa Senhora das Graças (HNSG).
AR - Acadêmica, curso de Medicina, Universidade Federal do Paraná (UFPR); Integrante, Liga Acadêmica de Medicina Vascular, Hospital Universitário Cajuru, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (LAMEV).
APNG - Cirurgiã vascular, Serviço de Cirurgia Vascular, Hospital Santa Cruz.
RCRM - Cirurgião vascular chefe, Serviço de Cirurgia Vascular e Endovascular Elias Abrão, Hospital Nossa Senhora das Graças (HNSG); Doutor em Clínica Cirúrgica, Universidade Federal do Paraná (UFPR).

Contribuição dos autores

Concepção e desenho do estudo: MM, RCRM
Análise e interpretação dos dados: MM, RCRM
Coleta de dados: MM, CNK, CMO, CMPC, FZR, AR, APGN
Redação do artigo: MM, CNK, CMO, CMPC, FZR, AR, APGN
Revisão crítica do texto: MM
Aprovação final do artigo*: MM, CNK, CMO, CMPC, FZR, AR, APNG, RCRM
Análise estatística: N/A.
Responsabilidade geral pelo estudo: MM

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