



# Hybrid surgery in excision of a Shamblin II glomus tumor

## *Cirurgia híbrida na exérese de tumor glômico Shamblin II*

Alexandre Campos Moraes Amato<sup>1,2</sup> , Diego Daniel Gomes Ferreira<sup>3</sup>, Fernanda Teixeira Fonseca da Silva<sup>3</sup>, Marielly Ayako Uemura<sup>3</sup>, Thais de Oliveira Stucchi<sup>3</sup>, Ricardo Virgínio dos Santos<sup>2</sup>

### Abstract

Glomus tumors are rare benign neoplasms originating from paraganglionic cells of the neural crest developing in the adventitious layer of the vessel. They are nonencapsulated and highly vascularized. A 64-year-old female patient was identified with a hypervascularized glomus tumor measuring 5 cm, posterior to the left carotid bifurcation and contralateral carotid occlusion. We performed preoperative embolization via endovascular access followed by direct percutaneous puncture, guided by angiography, to fill the remaining area. After embolization, surgical excision of the tumor was performed with reduced bleeding and it was easier to find the cleavage planes to adjacent structures. At late follow-up, the patient is free from tumor recurrence. The tumor was classified as Shamblin II, measuring 4 to 6 cm with moderate arterial insertion. Through this double approach we observed a relative reduction in intraoperative bleeding and improved identification of the cleavage plane, facilitating excision and avoiding surgical clamping.

**Keywords:** glomus jugulare; carotid body tumor; paraganglioma; carotid artery diseases.

### Resumo

O tumor glômico é uma neoplasia benigna rara originada de células paraganglionares da crista neural que se desenvolve na camada adventícia do vaso. São tumores não encapsulados e altamente vascularizados. Paciente feminina, 64 anos, foi diagnosticada com tumor glômico hipervascularizado com 5 cm posteriormente à bifurcação carotídea esquerda e oclusão de carótida contralateral. Optou-se por realizar embolização através de acesso endovascular seguida de punção percutânea direta, guiada por angiografia, para preenchimento da área remanescente. Após embolização, realizou-se a exérese cirúrgica do tumor com menor sangramento e maior facilidade para encontrar o plano de clivagem das estruturas adjacentes. Em acompanhamento tardio, a paciente apresenta-se sem recidiva tumoral. O tumor foi classificado como pertencente ao grupo Shamblin II, o qual inclui tumores apresentando de 4 a 6 cm com inserção arterial moderada. Através dessa dupla abordagem, foi possível notar uma redução relativa do sangramento intraoperatório e facilitação de identificação do plano de clivagem, colaborando para sua exérese e evitando o pinçamento cirúrgico.

**Palavras-chave:** glomo jugular; tumor do corpo carotídeo; paraganglioma; doenças das artérias carótidas.

**How to cite:** Amato ACM, Ferreira DDG, Silva FTF, Uemura MA, Stucchi TO, Santos RV. Hybrid surgery in excision of a Shamblin II glomus tumor. J Vasc Bras. 2019;18:e20180122. <https://doi.org/10.1590/1677-5449.012218>

<sup>1</sup>Instituto de Medicina Avançada – Amato, Departamento de Cirurgia Vascular, São Paulo, SP, Brasil.

<sup>2</sup>Universidade de Santo Amaro – UNISA, Faculdade de Medicina, Departamento de Cirurgia Vascular, São Paulo, SP, Brasil.

<sup>3</sup>Universidade de Santo Amaro – UNISA, Faculdade de Medicina, São Paulo, SP, Brasil.

Financial support: None.

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

Submitted: November 07, 2018. Accepted: January 10, 2019.

The study was carried out at Amato - Instituto de Medicina Avançada, São Paulo, SP, Brazil.

## INTRODUCTION

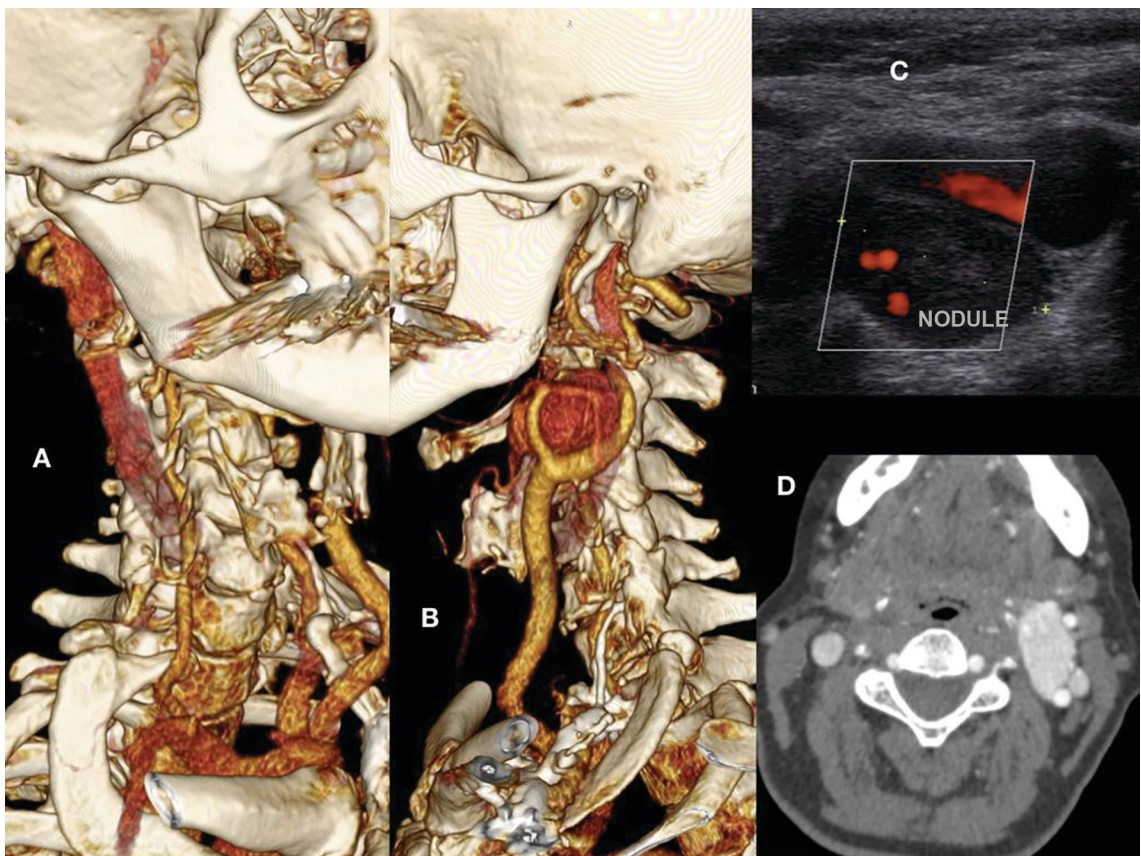
Glomus tumors are rare benign neoplasms that originate from paraganglionic neural crest cells developing in the paravertebral region and can affect cervical blood vessels, cranial nerves, and the autonomic nervous system, with an incidence of 1:30,000.<sup>1,2</sup> This type of tumor accounts for 60-70% of paragangliomas of the head and neck, they are highly vascularized and, although well-delineated, they are not encapsulated and proximity with important structures, such as nerves, combined with dense vascularization make resection difficult.<sup>2-4</sup> Diagnostic suspicion is aroused by clinical assessment, with autonomic symptoms, and/or imaging exams such as angiogram (gold standard), with presence of the lyre sign and intense vascularization at the lesion site, while Doppler ultrasonography shows a vascularized mass in the region of the carotid bifurcation. Additionally, angiogram and magnetic resonance angiography can identify location, extent, correlations with adjacent structures, and the vascular nature of the tumor.<sup>5</sup> Diagnosis of this comorbidity is

confirmed by immunohistochemical assay revealing the presence of several hormonal neuropeptides such as serotonin, gastrin, substance P, somatostatin, and neuron-specific enolase, the last of which is the most trustworthy enzyme for diagnosis.

A carotid glomus tumor is difficult to diagnosis, because of its slow growth and asymptomatic course.<sup>1,2</sup> Treatment is surgical and should be performed early and with embolization prior to surgery, in order to optimize the procedure by devascularization of the tumor.<sup>6</sup>

## CASE DESCRIPTION

The patient was a 64-year-old female who sought care for a cervical nodule. Color Doppler ultrasonography revealed a large nodule posterior to the left carotid bifurcation and ligation of the right common carotid artery that had been performed during a previous surgical procedure. The patient was nevertheless asymptomatic neurologically. Arteriography (Figure 1A) identified a hypervascularized glomus tumor with a maximum



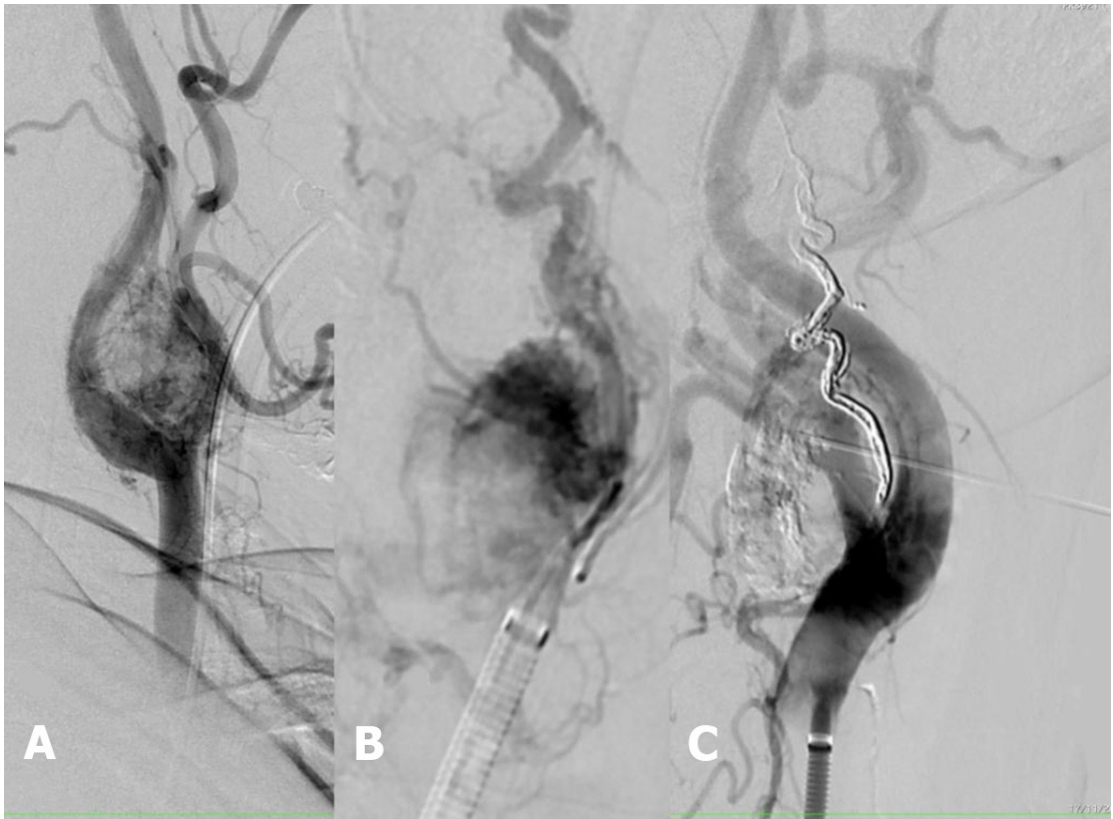
**Figure 1.** (A) 3D angiogram reconstruction showing occlusion of the right carotid artery and vicarious vertebral artery; (B) 3D angiogram reconstruction showing glomus tumor at the left carotid bifurcation; (C) Doppler ultrasonography showing a hypervascularized nodule between the left internal and external carotids; (D) Axial angiogram slice showing hypervascularized glomus tumor on the left and carotid occlusion on the right.

diameter of 5 cm, located posterior to the left carotid bifurcation and primarily fed by the ascending pharyngeal artery, in addition to occlusion of the right carotid artery (Figures 1B, 1C, and 1D). Furthermore, a 4 mm saccular aneurysm was observed involving the left ophthalmic artery. The patient reported having had dermatological surgery previously in the right cervical area, which had involved complications causing her to be admitted to intensive care. However, she had no report or history providing details of that event. Having diagnosed the glomus tumor and contralateral carotid occlusion on the basis of imaging findings, the decision was taken to perform resection of the tumor after preoperative embolization.

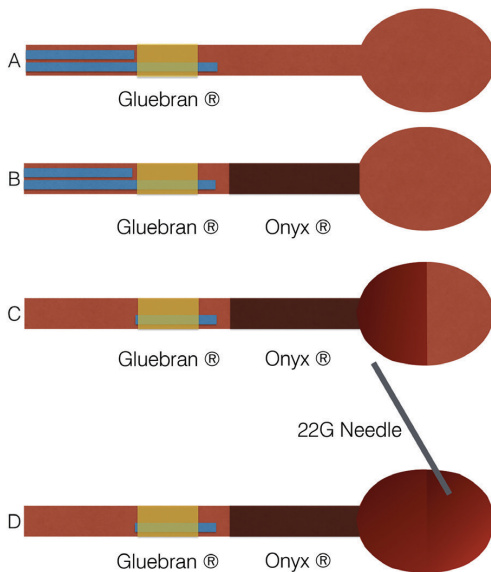
Embolization was conducted by infusion of the Onyx® copolymer embolic agent (Covidien, Irvine, CA, USA) 2 days before surgery, via superselective catheterization of the artery feeding the tumor, located at the carotid bifurcation.

The “pressure cooker” technique (Figures 2B and 3) was employed via a femoral artery puncture, with selective catheterization of the left common carotid artery (Figure 2A). Next, a 1.3-F Marathon® microcatheter

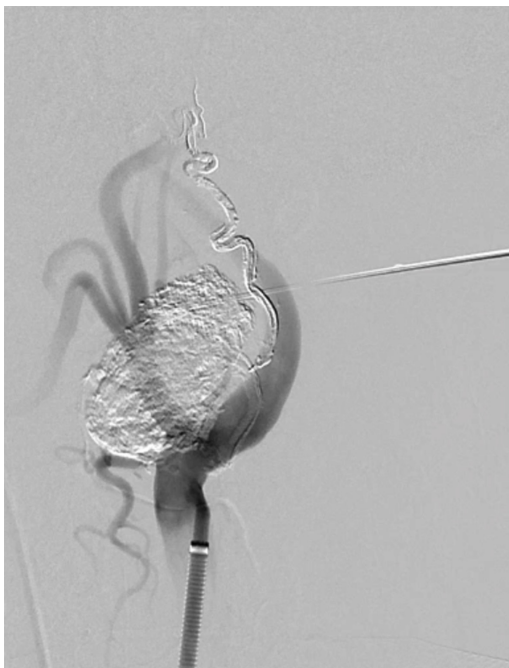
(Covidien, Irvine, CA, USA) was positioned in the ascending pharyngeal artery, occluding the proximal region. A 1.5-F Apollo® microcatheter (Covidien, Irvine, CA, USA) was then positioned distal of the Marathon® catheter. The Apollo® microcatheter has a mechanically detachable distal tip. It was used to inject Onyx® until arterial reflux was identified on fluoroscopy (Figure 2B). Next, Gluebran® was injected via the 1.3-F microcatheter to secure the tip of the Apollo® microcatheter and achieve arterial occlusion to prevent reflux into the carotid artery. Once the ascending pharyngeal artery had been obstructed, infusion of copolymer was resumed via the Marathon® catheter, to progress in the anterograde direction and fill the hypervascularized lesion (Figures 3A, 3B, and 3C). Since the hypervascularized tumor had not been completely filled (Figure 3C) by endovascular embolization, the unfilled part of the glomus tumor was directly punctured, percutaneously with a 22G needle, guided by the roadmap and fluoroscopy, and percutaneous polymer embolization was used to fill the remaining space (Figures 2C, 4, and 3D).



**Figure 2.** (A) Pre-embolization angiography showing the hypervascularized tumor and a left carotid lyre sign; (B) Superselective catheterization of the glomus tumor and “pressure cooker” embolization; (C) Direct external puncture of the glomus tumor and embolization.



**Figure 3.** "Pressure cooker" embolization technique: (A) Advancing two microcatheters, one with a detachable tip, up to the artery feeding the tumor, and release of glue via the more distal catheter to secure the tip of the proximal catheter to the lesion, creating a "cork" effect; (B) Embolization of the vascularized tumor with Onyx® via the catheter proximal of the lesion; (C) Withdrawal of both catheters. The tip of the more proximal catheter has been detached and glued where it remains inside the vessel; (D) Percutaneous puncture of the glomus tumor to fill the remaining area with polymer.



**Figure 4.** Arteriography showing the glomus tumor punctured percutaneously, soon after embolization with polymer. The arteriographic image is used to guide safe puncture of the tumor.

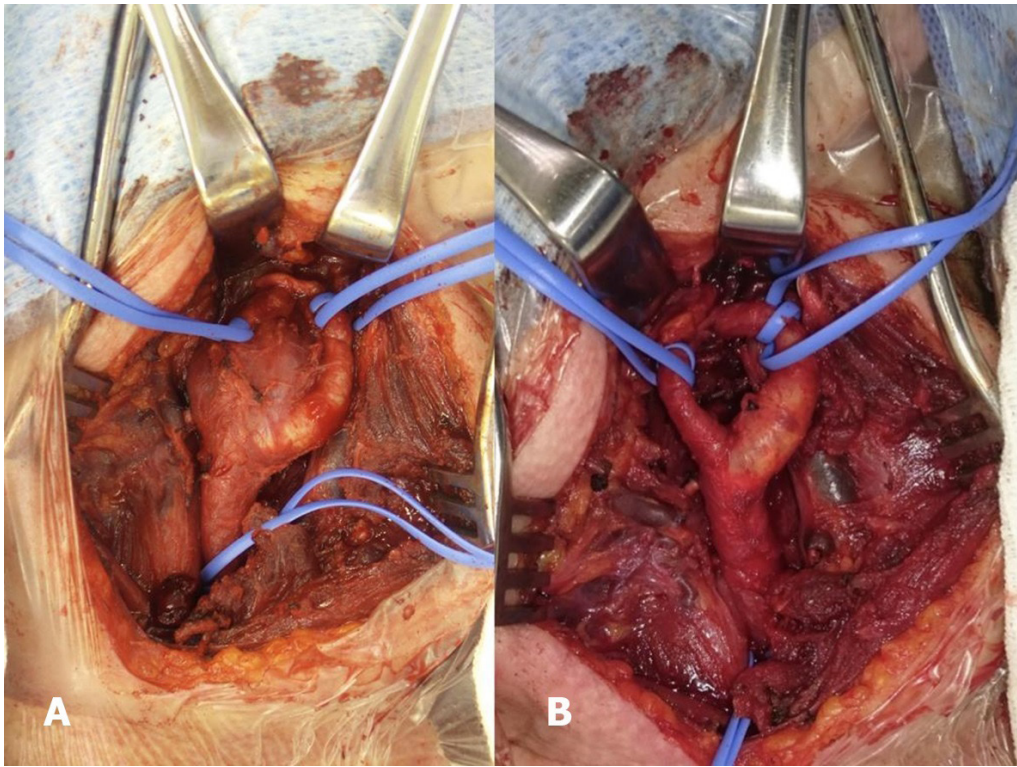
Three days after embolization, surgical excision was performed through the longitudinal cervical incision typical of carotid endarterectomy, exposing an enlarged ganglion with a great deal of adherent tissues and signs of inflammation. After identification and isolation of arteries and nerves, a tumor with approximate dimensions of 3 cm x 2 cm was dissected without major bleeding or arterial damage, the dissection planes were identified, and rigorous hemostasis was achieved by ligation of the tumoral vessels and the ascending pharyngeal artery (Figure 5). After excision, a soft silicone vacuum drain was attached and the dissection planes were drawn together. The results of pathology and immunohistochemical assays provided evidence of a paraganglioma with follicular lymphoid hyperplasia and reaction pattern.

Initially, during the immediate postoperative period, systemic pressure was difficult to control, with hypertensive peaks, and intensive monitoring was needed for 5 days. After this period, the patient began to recover gradually, with a reduced need for antihypertensives, and was discharged 7 days after the surgical procedure. The late postoperative period went well, with no neurological events, good wound healing, no stenosis or expansive lesions, and no swellings. Imaging exams conducted as part of a reevaluation 3 years after the procedure did not show any sign of relapse whatsoever (Figure 6).

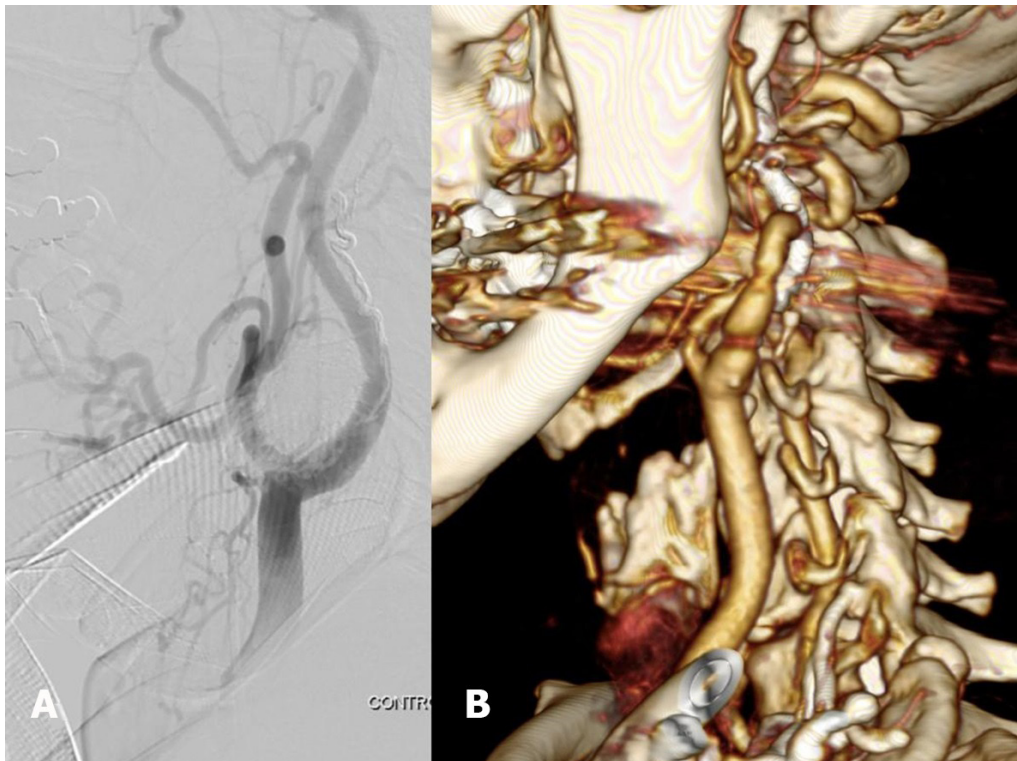
## ■ DISCUSSION

The diversity of glomus bodies in the human body means that tumors involving these structures can be found in many different sites. They have been reported in subungual regions,<sup>7,8</sup> and, more rarely, in other areas such as the liver, stomach, lungs, bones, joints, genital organs, central nervous system, and blood vessels. Carotid glomus tumors arise from paraganglion cells and develop in the adventitial layer of the vessel, at the bifurcation of the common carotid artery, in a posteromedial position. Although well-delineated, they are nonencapsulated tumors that are highly vascularized by branches of the external carotid artery and its vasa vasorum.<sup>3,4,9-11</sup>

Generally, the initial manifestation reported by patients is presence of a painless mass palpable in the lateral neck. Imaging exams such as computed tomography and color Doppler ultrasonography of the cervical region will show the tumor and its limits, providing information for staging and helping with choice of treatment. After a series of case studies, in 1971, Shamblin et al. published a classification of glomus tumors, categorized by size and degree of invasion of the vessel wall.<sup>12,13</sup> Tumors classified as belonging to group I are relatively small (< 4 cm)



**Figure 5.** (A) Intraoperative image showing the glomus tumor adhering between the internal and external carotids; (B) Image after excision of the glomus tumor.



**Figure 6.** (A) Control angiography showing the final result of embolization; (B) Late 3D angiotomography reconstruction, 3 years after the surgical procedure.

and minimally linked to the carotid vessels and can therefore generally be resected without difficulty. Group II encompasses larger neoplasms (4-6 cm) with moderate arterial insertion. Tumors classified as group III are large (> 6 cm) and imprison the carotids, requiring resection en bloc with the carotid bifurcation and revascularization with saphenous vein or prostheses.<sup>13,14</sup> The tumor in the case described here was classified as belonging to group II, because of the size of the neoplasm and its intermediate degree of adherence, but with an additional degree of difficulty caused by the contralateral carotid occlusion.

In 1980, Schick et al. reported the first successful embolization of a glomus tumor followed by surgical removal. They embolized the occipital and posterior auricular arteries and the thyrocervical trunk; post-embolization arteriography showed a 30% reduction in tumor size.<sup>15,16</sup> As an alternative to arterial embolization, studies have demonstrated that direct puncture of the hypervascularized tumor can also be considered safe.<sup>17</sup> Although embolization is not a definitive treatment, the literature indicates that removal of the tumor is more precise after embolization, because of devascularization of the neoplasm, reducing intraoperative bleeding, which improves the ability to see adjacent structures, avoiding damage to them and revealing the cleavage plane. While subjective, reduced intraoperative bleeding and easier dissection were noted by the surgeons. Sahin et al. performed a study with 12 patients operated for tumors of the carotid body (five Shamblin I and seven Shamblin II) who underwent preoperative direct percutaneous embolization, enabling better excision.<sup>12</sup>

Carotid glomus tumors are rare, hypervascularized, benign neoplasms that in certain cases cause compressive symptoms. Management is a technical challenge because of the size, location, and vascularization. Preoperative embolization of Shamblin II tumors can therefore be considered beneficial, since it reduces tumor vascularization. In the case described here, the strategy adopted avoided carotid clamping, preventing temporary cerebral ischemia and enabling the surgical technique to be performed safely, following the cleavage planes. This double approach reduced bleeding and facilitated excision of the tumor, thereby reducing surgical risk and achieving a satisfactory postoperative outcome.

Nevertheless, the decision to employ embolization should be made on a case-by-case basis, according to patient needs, taking into consideration risks and benefits, in addition to the experience of the professionals who will perform the procedure.

## REFERENCES

- Ferrante AM, Boscarino G, Crea MA, Minelli F, Snider F. Cervical paragangliomas: single centre experience with 44 cases. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2015;35(2):88-92. PMID:26019391.
- Naik SM, Shenoy AM, Nanjundappa, et al. Paragangliomas of the carotid body: current management protocols and review of literature. *Indian J Surg Oncol.* 2013;4(3):305-12. <http://dx.doi.org/10.1007/s13193-013-0249-4>. PMID:24426745.
- Sousa AA, Fagundes-Pereyra WJ, Santos LD, Marques JA, Carvalho GT. Tumores do corpo carotídeo: revisão de oito casos e abordagem cirúrgica. *Arq Neuropsiquiatr.* 2000;58(2-A):315-23. <http://dx.doi.org/10.1590/S0004-282X2000000200019>. PMID:10849634.
- Meyer FB, Sundt TM Jr, Pearson BW. Carotid body tumors: a subject review and suggested surgical approach. *J Neurosurg.* 1986;64(3):377-85. <http://dx.doi.org/10.3171/jns.1986.64.3.0377>. PMID:3950716.
- Mesquita N Jr, Silva RS, Ribeiro JHA, et al. Carotid body tumor (paraganglioma): report of two cases treated surgically. *J Vasc Bras.* 2016;15(2):158-64. PMID:29930583.
- Sahin MA, Jahollari A, Guler A, et al. Results of combined preoperative direct percutaneous embolization and surgical excision in treatment of carotid body tumors. *Vasa.* 2011;40(6):461-6. <http://dx.doi.org/10.1024/0301-1526/a000149>. PMID:22090179.
- Montandon C, Costa JC, Dias LA, et al. Subungual glomus tumors: imaging findings. *Radiol Bras.* 2009;42(6):371-4. <http://dx.doi.org/10.1590/S0100-39842009000600010>.
- Freitas F, Luís NM, Ramos A, Correia AR, Oliveira M, Palma L. Tumor glômico subungueal. *Rev Port Ortop Traumatol.* 2012;20(2):249-54.
- Mullis WF, Rosato FE, Rosato EF, Butler CJ, Mayer LJ. The glomus tumor. *Surg Gynecol Obstet.* 1972;135(5):705-7. PMID:4343508.
- Lahey FH, Warren KW. A long term appraisal of carotid body tumors with remarks on their removal. *Surg Gynecol Obstet.* 1951;92(4):481-91. PMID:14835205.
- Schudder CL. Tumor of the intercarotid body. A report of one case, together with all cases in literature. *Am J Med Sci.* 1903;126:1384-9.
- Shamblin WR, ReMine WH, Sheps SG, Harrison EG Jr. Carotid body tumor (chemodectoma). Clinicopathologic analysis of ninety cases. *Am J Surg.* 1971;122(6):732-9. [http://dx.doi.org/10.1016/0002-9610\(71\)90436-3](http://dx.doi.org/10.1016/0002-9610(71)90436-3). PMID:5127724.
- Sanlı A, Oz K, Ayduran E, Aydın S, Altın G, Eken M. Carotid body tumors and our surgical approaches. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2012;64(2):158-61. <http://dx.doi.org/10.1007/s12070-011-0461-x>. PMID:23730577.
- Pantanowitz D, Davidge-Pitts K, Gaylis H, Hale MJ. Are carotid body tumours malignant? *S Afr J Surg.* 1990;28(3):97-9. PMID:2218758.
- Schick PM, Hieshima GB, White RA, et al. Arterial catheter embolization followed by surgery for large chemodectoma. *Surgery.* 1980;87(4):459-64. PMID:6245477.
- Maia M, Vidoedo J, Pinto JA. Embolização pré-operatória de tumor do corpo carotídeo. *Angiol Cir Vasc.* 2012;8(4):186-94.
- Elhammady MS, Peterson EC, Johnson JN, Aziz-Sultan MA. Preoperative onyx embolization of vascular head and neck tumors by direct puncture. *World Neurosurg.* 2012;77(5-6):725-30. <http://dx.doi.org/10.1016/j.wneu.2011.02.033>. PMID:22079824.

---

**Correspondence**

Alexandre Campos Moraes Amato  
Av. Brasil, 2283 - Jardim América  
CEP 01431-001 - São Paulo (SP), Brasil  
Tel.: +55 (11) 5053-2222  
E-mail: alexandre@amato.com.br

**Author information**

ACMA - PhD in Sciences, Universidade de São Paulo (USP); Professor,  
Vascular Surgery, Faculdade de Medicina, Universidade Santo Amaro  
(UNISA).  
DDGF, FTFS, MAU and TOS - Medical students (5th year), Faculdade  
de Medicina, Universidade Santo Amaro (UNISA).  
RVS - MSc in Sciences, Universidade de São Paulo (USP); Professor,  
Vascular Surgery, Faculdade de Medicina, Universidade Santo Amaro  
(UNISA).

**Author contributions**

Conception and design: ACMA, RVS  
Analysis and interpretation: ACMA, RVS  
Data collection: ACMA, DDGF, FTFS, MAU, TOS, RVS  
Writing the article: ACMA, DDGF, FTFS, MAU, TOS, RVS  
Critical revision of the article: ACMA, RVS  
Final approval of the article\*: ACMA, DDGF, FTFS, MAU, TOS, RVS  
Statistical analysis: N/A.  
Overall responsibility: ACMA

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



# Cirurgia híbrida na exérese de tumor glômico Shamblin II

## *Hybrid surgery in excision of a Shamblin II glomus tumor*

Alexandre Campos Moraes Amato<sup>1,2</sup> , Diego Daniel Gomes Ferreira<sup>3</sup>, Fernanda Teixeira Fonseca da Silva<sup>3</sup>, Marielly Ayako Uemura<sup>3</sup>, Thais de Oliveira Stucchi<sup>3</sup>, Ricardo Virgínio dos Santos<sup>2</sup>

### Resumo

O tumor glômico é uma neoplasia benigna rara originada de células paraganglionares da crista neural que se desenvolve na camada adventícia do vaso. São tumores não encapsulados e altamente vascularizados. Paciente feminina, 64 anos, foi diagnosticada com tumor glômico hipervascularizado com 5 cm posteriormente à bifurcação carotídea esquerda e oclusão de carótida contralateral. Optou-se por realizar embolização através de acesso endovascular seguida de punção percutânea direta, guiada por angiografia, para preenchimento da área remanescente. Após embolização, realizou-se a exérese cirúrgica do tumor com menor sangramento e maior facilidade para encontrar o plano de clivagem das estruturas adjacentes. Em acompanhamento tardio, a paciente apresenta-se sem recidiva tumoral. O tumor foi classificado como pertencente ao grupo Shamblin II, o qual inclui tumores apresentando de 4 a 6 cm com inserção arterial moderada. Através dessa dupla abordagem, foi possível notar uma redução relativa do sangramento intraoperatório e facilitação de identificação do plano de clivagem, colaborando para sua exérese e evitando o pinçamento cirúrgico.

**Palavras-chave:** glomo jugular; tumor do corpo carotídeo; paraganglioma; doenças das artérias carótidas.

### Abstract

Glomus tumors are rare benign neoplasms originating from paraganglionic cells of the neural crest developing in the adventitious layer of the vessel. They are nonencapsulated and highly vascularized. A 64-year-old female patient was identified with a hypervascularized glomus tumor measuring 5 cm, posterior to the left carotid bifurcation and contralateral carotid occlusion. We performed preoperative embolization via endovascular access followed by direct percutaneous puncture, guided by angiography, to fill the remaining area. After embolization, surgical excision of the tumor was performed with reduced bleeding and it was easier to find the cleavage planes to adjacent structures. At late follow-up, the patient is free from tumor recurrence. The tumor was classified as Shamblin II, measuring 4 to 6 cm with moderate arterial insertion. Through this double approach we observed a relative reduction in intraoperative bleeding and improved identification of the cleavage plane, facilitating excision and avoiding surgical clamping.

**Keywords:** glomus jugulare; carotid body tumor; paraganglioma; carotid artery diseases.

**Como citar:** Amato ACM, Ferreira DDG, Silva FTF, Uemura MA, Stucchi TO, Santos RV. Cirurgia híbrida na exérese de tumor glômico Shamblin II. J Vasc Bras. 2019;18:e20180122. <https://doi.org/10.1590/1677-5449.012218>

<sup>1</sup>Instituto de Medicina Avançada – Amato, Departamento de Cirurgia Vascular, São Paulo, SP, Brasil.

<sup>2</sup>Universidade de Santo Amaro – UNISA, Faculdade de Medicina, Departamento de Cirurgia Vascular, São Paulo, SP, Brasil.

<sup>3</sup>Universidade de Santo Amaro – UNISA, Faculdade de Medicina, São Paulo, SP, Brasil.

Fonte de financiamento: Nenhuma.

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

Submetido em: Novembro 07, 2018. Aceito em: Janeiro 10, 2019.

O estudo foi realizado no Amato - Instituto de Medicina Avançada, São Paulo, SP, Brasil.



## ■ INTRODUÇÃO

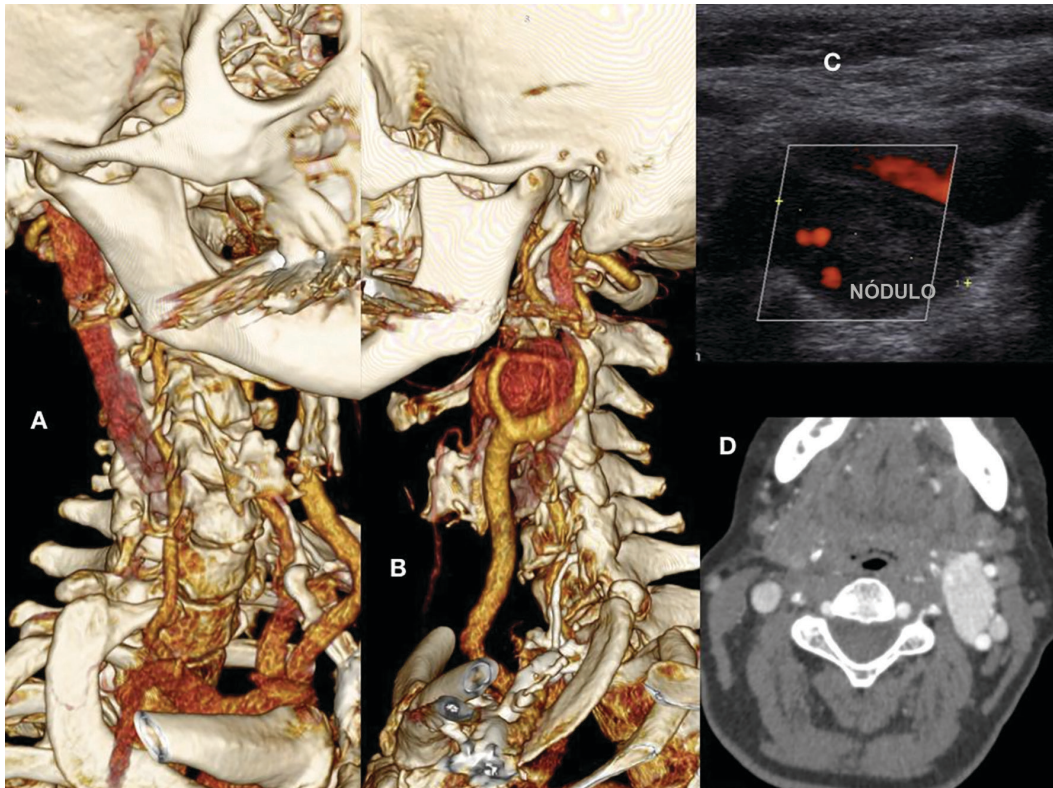
O tumor glômico é uma neoplasia benigna rara originada de células paraganglionares da crista neural e desenvolve-se na região paravertebral, podendo afetar vasos sanguíneos cervicais, nervos cranianos e o sistema nervoso autônomo, com incidência de 1:30.000<sup>1,2</sup>. Esse tumor representa 60-70% dos paragangliomas de cabeça e pescoço, é altamente vascularizado e, embora seja bem delimitado, não é encapsulado; além disso, a proximidade com estruturas importantes como nervos e a vascularização intensa dificulta sua ressecção<sup>2-4</sup>. A suspeita diagnóstica ocorre através da avaliação clínica, com alterações autonômicas, e/ou de exames de imagem como angiotomografia (padrão ouro), com a presença do sinal da lira e intensa vascularização no local da lesão, e eco-Doppler evidenciando uma massa vascularizada na região da bifurcação carotídea. Além disso, a angiotomografia e a angiorressonância identificam a localização, a extensão, a correlação com estruturas adjacente e a natureza vascular do tumor<sup>5</sup>. A confirmação dessa comorbidade é realizada através de exame imuno-histoquímico revelando a

presença de múltiplos neuropeptídeos hormonais como serotonina, gastrina, substância P, somatostatina, e a enolase neurônio-específica, sendo esta última a enzima mais fidedigna para o diagnóstico.

O tumor glômico carotídeo é de difícil diagnóstico, devido ao seu lento crescimento e à sua progressão assintomática<sup>1,2</sup>. O tratamento é cirúrgico e deve ser realizado de forma precoce e associado a embolização pré-cirúrgica, a fim de otimizar o procedimento através da desvascularização do tumor<sup>6</sup>.

## ■ DESCRIÇÃO DO CASO

Paciente do sexo feminino, 64 anos, queixando-se de nódulo cervical, apresentou ao eco-Doppler colorido um nódulo grande posterior à bifurcação carotídea esquerda e uma ligadura da artéria carótida comum direita realizada em procedimento cirúrgico prévio; apesar disso, a paciente era assintomática neurologicamente. Foi realizada arteriografia (Figura 1A), que identificou um tumor glômico hipervascularizado medindo 5 cm em seu maior diâmetro, de localização posterior à bifurcação carotídea esquerda e nutrido



**Figura 1.** (A) Reconstrução 3D de angiotomografia evidenciando oclusão de carótida direita e artéria vertebral vicariante; (B) Reconstrução 3D de angiotomografia evidenciando tumor glômico à esquerda em bifurcação carotídea; (C) Eco-Doppler mostrando nódulo hipervascularizado entre carótida interna e externa esquerda; (D) Corte axial de angiotomografia evidenciando tumor glômico hipervascularizado à esquerda e oclusão de carótida à direita.

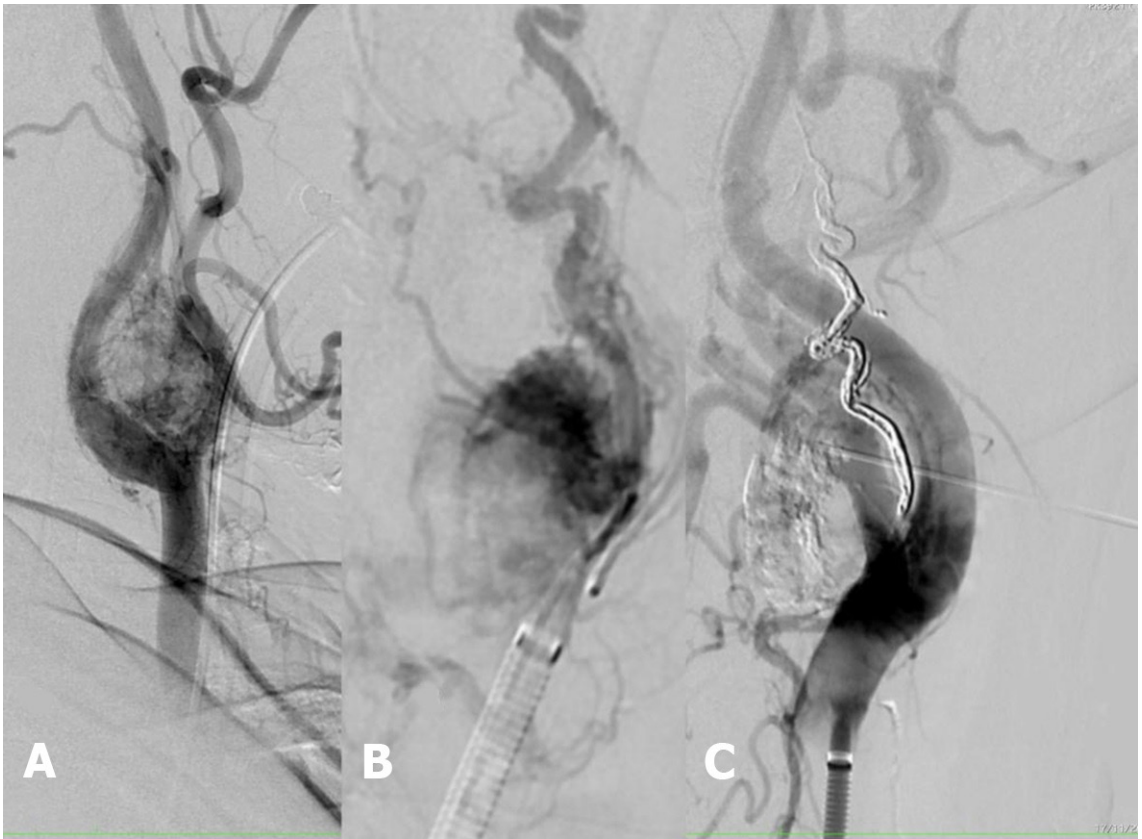
preferencialmente pela artéria faríngea ascendente, concomitante com oclusão de artéria carótida direita (Figuras 1B, 1C e 1D). Além disso, foi observado um aneurisma sacular de 4 mm na artéria oftálmica esquerda. A paciente relatou cirurgia cervical dermatológica prévia à direita, em que teve complicações e ficou internada em regime de terapia intensiva; porém, não possuía relatório ou histórico detalhado do evento. Com o diagnóstico imageológico de tumor glômico e oclusão carotídea contralateral, optou-se pela ressecção do tumor precedida por embolização pré-operatória.

Foi realizada embolização com infusão do agente embólico/copolímero Onyx® (Covidien, Irvine, CA, USA) 2 dias antes da cirurgia, por cateterização superseletiva da artéria nutridora do tumor, localizada na bifurcação carotídea.

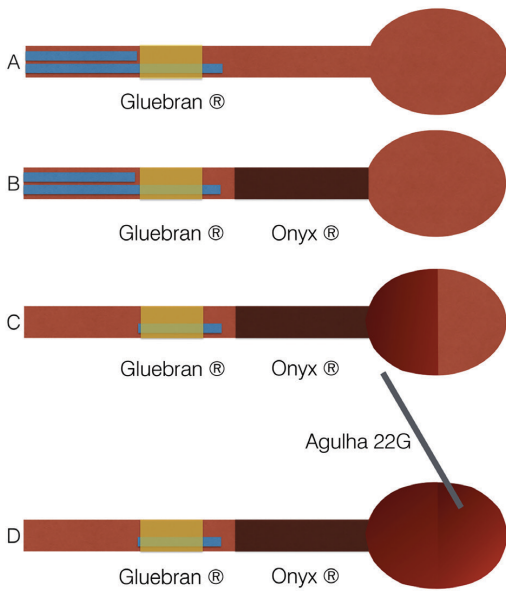
A técnica da “panela de pressão” (Figuras 2B e 3) foi realizada através da punção da artéria femoral, sendo cateterizada seletivamente a artéria carótida comum esquerda (Figura 2A). Em seguida, posicionou-se um microcateter 1.3-F Marathon® (Covidien, Irvine, CA, USA) na artéria faríngea ascendente, ocluindo-a na região proximal. Distalmente a esse microcateter, foi

posicionado outro microcateter 1.5-F Apollo® (Covidien, Irvine, CA, USA), que tem como característica o destacamento mecânico de sua ponta distal. A partir deste último, foi realizada a injeção de Onyx® até a ocorrência de refluxo arterial identificado na fluoroscopia (Figura 2B). Em seguida, foi injetada cola Gluebran® pelo microcateter 1.3-F para fixação da ponta do microcateter Apollo® e oclusão arterial para evitar o refluxo para artéria carótida. Assim, com a obstrução da artéria faríngea ascendente, foi retomada a infusão do copolímero pelo cateter Marathon® para progressão anterógrada e preenchimento da lesão hipervascular (Figuras 3A, 3B e 3C). Como não houve preenchimento completo do tumor hipervascularizado (Figura 3C) após a embolização endovascular, foi realizada punção percutânea direta do tumor glômico em área não preenchida, com agulha 22G, guiada por *roadmap* e fluoroscopia, sendo realizada nova embolização de polímero, agora percutânea direta, preenchendo os espaços remanescentes (Figuras 2C, 4 e 3D).

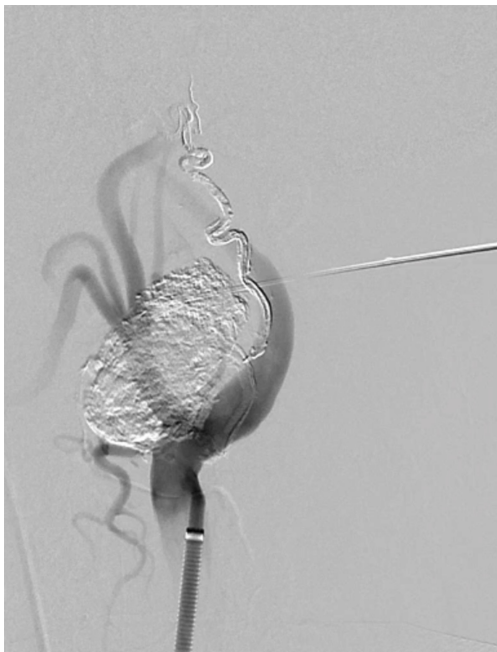
Três dias após a embolização, procedeu-se com exérese cirúrgica, que ocorreu através de uma incisão cervical longitudinal esquerda típica de endarterectomia



**Figura 2.** (A) Angiografia pré-embolização evidenciando tumor hipervascularizado e sinal da lira em carótida esquerda; (B) Cateterização superseletiva de tumor glômico e embolização pela técnica da “panela de pressão”; (C) Punção direta externa de tumor glômico com embolização.



**Figura 3.** Técnica da “panela de pressão” para embolização: (A) Passagem de dois microcateteres, sendo um de ponta destacável até artéria nutridora do tumor, e liberação de cola pelo cateter mais distal para fixação da ponta do cateter proximal à lesão e criação de efeito “rolha”; (B) Embolização de tumor vascularizado com Onyx® através de cateter proximal à lesão; (C) Retirada de ambos cateteres, sendo que a ponta do cateter mais proximal à lesão, fixada pela cola, é destacada e permanece no vaso; (D) Punção percutânea de tumor glômico com preenchimento de área restante por polímero.



**Figura 4.** Arteriografia evidenciando tumor glômico punccionado percutaneamente, logo após embolização com polímero. A imagem arteriográfica é utilizada como guia para punção segura do tumor.

carotídea, a partir da qual foi possível identificar gânglio aumentado de tamanho e tecidos muito aderidos, com sinais inflamatórios. Com a identificação e o isolamento de artérias e nervos, o tumor com aproximadamente 3 cm x 2 cm foi dissecado sem grandes sangramentos ou lesões arteriais, foram encontrados os planos de dissecção, e foi realizada uma hemostasia rigorosa com ligaduras de vasos tumorais e de artéria faríngea ascendente (Figura 5). Após a exérese, fixou-se um dreno a vácuo de silicone maleável e realizou-se a aproximação dos planos de dissecção. O exame anatomopatológico, em conjunto com a avaliação imuno-histoquímica, evidenciou paraganglioma e hiperplasia linfoide folicular de padrão reacional.

Inicialmente, no pós-operatório imediato houve um descontrole pressórico sistêmico com picos hipertensivos, sendo necessária monitorização intensiva por 5 dias. Após esse período, a paciente apresentou melhora gradual, com redução da necessidade de anti-hipertensivos, recebendo alta 7 dias após o procedimento cirúrgico. Seu pós-operatório tardio mostrou-se bom, sem eventos neurológicos, com boa cicatrização, sem estenose ou lesões expansivas, assim como ausência de abaulamentos. Em reavaliação após 3 anos do procedimento, exame de imagem não mostrou qualquer sinal de recidiva (Figura 6).

## DISCUSSÃO

Devido à diversidade de corpos glômicos em nosso organismo, os tumores dessas estruturas podem ser encontrados em variados locais, sendo relatados na região subungueal<sup>7,8</sup> e mais raramente em outras regiões como fígado, estômago, pulmões, ossos, articulações, órgãos genitais, sistema nervoso central e vasos sanguíneos. O tumor glômico carotídeo surge de células paraganglionares e desenvolve-se na camada adventícia do vaso, na bifurcação da artéria carótida comum, em localização posteromedial. Embora sejam bem delimitados, são tumores não encapsulados e altamente vascularizados por ramos da artéria carótida externa e seus *vasa vasorum*<sup>3,4,9-11</sup>.

Geralmente, os pacientes relatam a presença de massa indolor palpável na região lateral do pescoço como manifestação inicial. Exames de imagem como tomografia computadorizada e eco-Doppler colorido da região cervical mostram o tumor e seus limites, fornecendo informações sobre o estadiamento e auxiliando na escolha do tratamento. Após uma série de estudos de casos, em 1971, Shamblyn et al. publicaram uma classificação para os tumores glômicos de acordo com o seu tamanho e a sua invasão na parede do vaso<sup>12,13</sup>. Tumores classificados como pertencentes ao grupo I são relativamente pequenos (< 4 cm) e minimamente ligados aos vasos carotídeos; portanto,

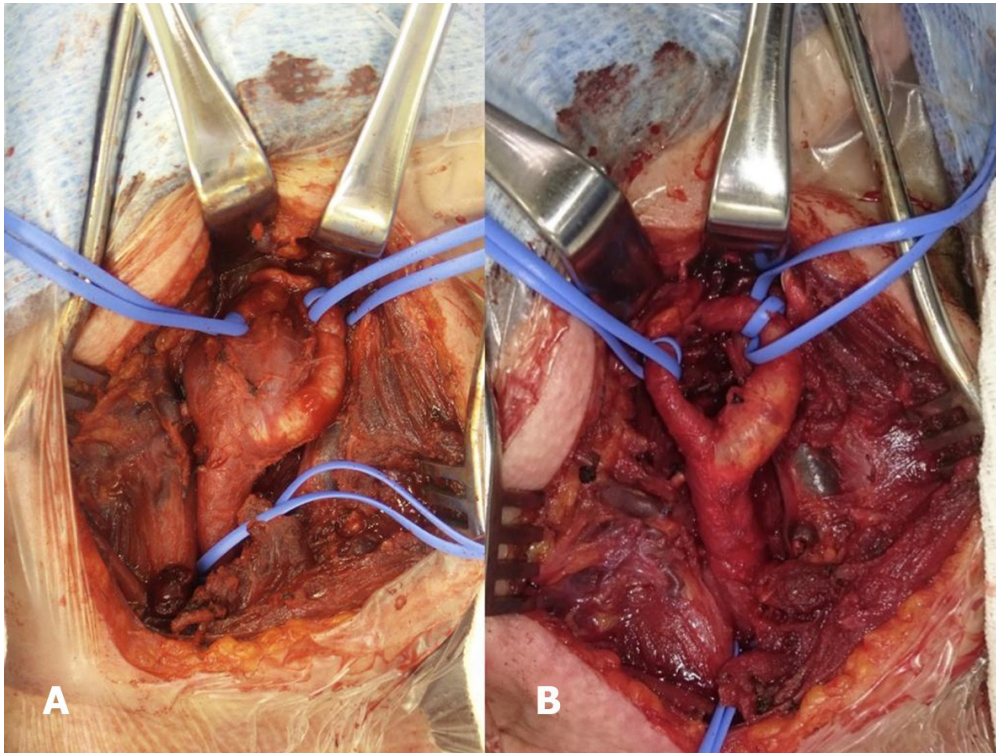


Figura 5. (A) Imagem intraoperatória mostrando tumor glômico aderido entre carótida interna e externa; (B) Imagem após exérese de tumor glômico.

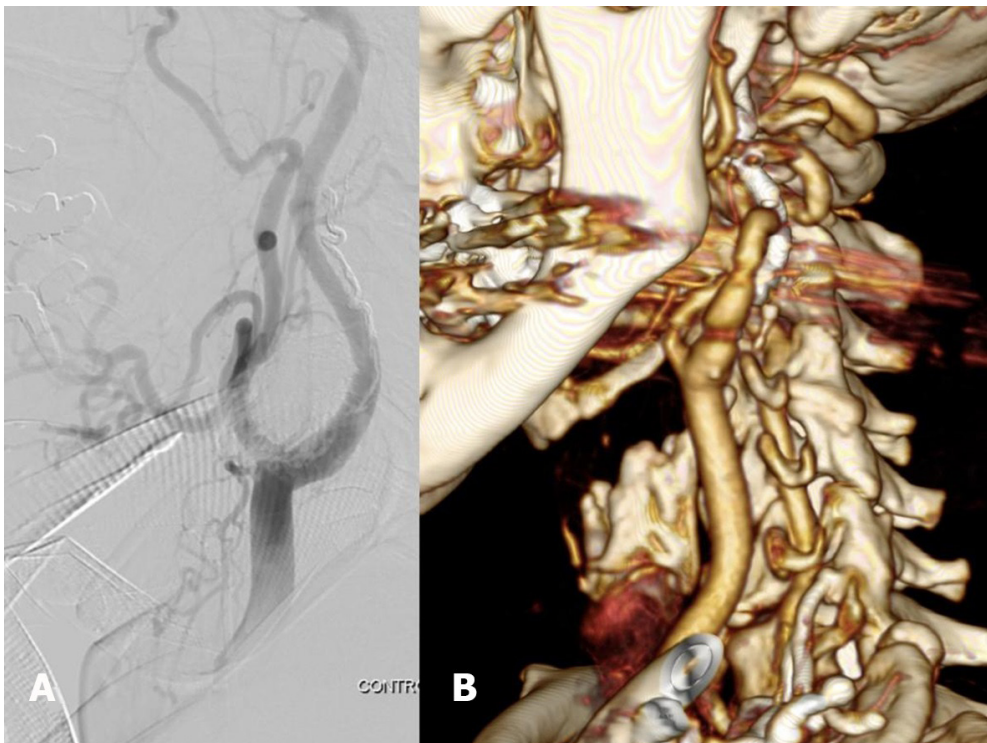


Figura 6. (A) Angiografia de controle evidenciando resultado final da embolização; (B) Reconstrução 3D de angiotomografia tardia após 3 anos do procedimento cirúrgico.

comumente podem ser ressecados sem dificuldades. O grupo II engloba neoplasias maiores (4-6 cm) que apresentam inserção arterial moderada. Os tumores classificados como grupo III são grandes (> 6 cm) e encarceram as carótidas, sendo necessária a ressecção em bloco com bifurcação carotídea e a realização de revascularização com veia safena ou prótese<sup>13,14</sup>. No caso apresentado, o tumor foi classificado como pertencente ao grupo II, devido ao tamanho da neoplasia e ao seu grau intermediário de aderência, porém com a dificuldade adicional da oclusão de carótida contralateral.

Em 1980, Schick et al. relataram a primeira embolização bem sucedida de um tumor glômico seguida por remoção cirúrgica. Foi realizada embolização das artérias auriculares occipital e posterior e do tronco tireocervical; a arteriografia pós-embolização demonstrou 30% de diminuição no tamanho do tumor<sup>15,16</sup>. Como alternativa à embolização arterial, estudos demonstram que a punção direta de tumoração hipervascularizada também é considerada segura<sup>17</sup>. Embora a embolização não seja um tratamento definitivo, a literatura aponta que a retirada do tumor torna-se mais precisa após a embolização, devido à desvascularização da neoplasia, diminuindo o sangramento intraoperatório, fato que possibilita uma melhor visualização das estruturas adjacentes, evitando lesá-las e evidenciando o plano de clivagem. A diminuição do sangramento intraoperatório e a maior facilidade de dissecação, embora subjetiva, foi notada pelos cirurgiões. Sahin et al. realizaram um estudo com 12 pacientes operados para tumor do corpo carotídeo (cinco Shamblin I e sete Shamblin II) que foram submetidos a embolização pré-operatória percutânea direta permitindo uma melhor exérese<sup>12</sup>.

O tumor glômico carotídeo representa uma neoplasia benigna rara hipervascularizada, que em alguns casos apresenta sintomas compressivos, sendo sua abordagem um desafio técnico, devido ao seu tamanho, localização e vascularização. Portanto, a embolização prévia do tumor Shamblin II pode ser considerada benéfica, devido ao decréscimo da vascularização do tumor. Neste relato de caso, a estratégia adotada evitou o pinçamento carotídeo, prevenindo isquemia cerebral temporária e permitindo a execução segura da técnica cirúrgica em tumor aderido aos planos de clivagem. A dupla abordagem reduziu sangramentos e facilitou a exérese tumoral, diminuindo assim os riscos cirúrgicos e tornando o pós-operatório satisfatório.

Porém, a decisão de embolização deve ser individualizada de acordo com as necessidades do paciente, levando em consideração riscos e benefícios, além da experiência dos profissionais que irão participar do procedimento.

## REFERÊNCIAS

1. Ferrante AM, Boscarino G, Crea MA, Minelli F, Snider F. Cervical paragangliomas: single centre experience with 44 cases. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2015;35(2):88-92. PMID:26019391.
2. Naik SM, Shenoy AM, Nanjundappa, et al. Paragangliomas of the carotid body: current management protocols and review of literature. *Indian J Surg Oncol.* 2013;4(3):305-12. <http://dx.doi.org/10.1007/s13193-013-0249-4>. PMID:24426745.
3. Sousa AA, Fagundes-Pereyra WJ, Santos LD, Marques JA, Carvalho GT. Tumores do corpo carotídeo: revisão de oito casos e abordagem cirúrgica. *Arq Neuropsiquiatr.* 2000;58(2-A):315-23. <http://dx.doi.org/10.1590/S0004-282X2000000200019>. PMID:10849634.
4. Meyer FB, Sundt TM Jr, Pearson BW. Carotid body tumors: a subject review and suggested surgical approach. *J Neurosurg.* 1986;64(3):377-85. <http://dx.doi.org/10.3171/jns.1986.64.3.0377>. PMID:3950716.
5. Mesquita N Jr, Silva RS, Ribeiro JHA, et al. Carotid body tumor (paraganglioma): report of two cases treated surgically. *J Vasc Bras.* 2016;15(2):158-64. PMID:29930583.
6. Sahin MA, Jahollari A, Guler A, et al. Results of combined preoperative direct percutaneous embolization and surgical excision in treatment of carotid body tumors. *Vasa.* 2011;40(6):461-6. <http://dx.doi.org/10.1024/0301-1526/a000149>. PMID:22090179.
7. Montandon C, Costa JC, Dias LA, et al. Subungual glomus tumors: imaging findings. *Radiol Bras.* 2009;42(6):371-4. <http://dx.doi.org/10.1590/S0100-39842009000600010>.
8. Freitas F, Luís NM, Ramos A, Correia AR, Oliveira M, Palma L. Tumor glômico subungueal. *Rev Port Ortop Traumatol.* 2012;20(2):249-54.
9. Mullis WF, Rosato FE, Rosato EF, Butler CJ, Mayer LJ. The glomus tumor. *Surg Gynecol Obstet.* 1972;135(5):705-7. PMID:4343508.
10. Lahey FH, Warren KW. A long term appraisal of carotid body tumors with remarks on their removal. *Surg Gynecol Obstet.* 1951;92(4):481-91. PMID:14835205.
11. Schudder CL. Tumor of the intercarotid body. A report of one case, together with all cases in literature. *Am J Med Sci.* 1903;126:1384-9.
12. Shamblin WR, ReMine WH, Sheps SG, Harrison EG Jr. Carotid body tumor (chemodectoma). Clinicopathologic analysis of ninety cases. *Am J Surg.* 1971;122(6):732-9. [http://dx.doi.org/10.1016/0002-9610\(71\)90436-3](http://dx.doi.org/10.1016/0002-9610(71)90436-3). PMID:5127724.
13. Sanlı A, Oz K, Ayduran E, Aydın S, Altın G, Eken M. Carotid body tumors and our surgical approaches. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2012;64(2):158-61. <http://dx.doi.org/10.1007/s12070-011-0461-x>. PMID:23730577.
14. Pantanowitz D, Davidge-Pitts K, Gaylis H, Hale MJ. Are carotid body tumours malignant? *S Afr J Surg.* 1990;28(3):97-9. PMID:2218758.
15. Schick PM, Hieshima GB, White RA, et al. Arterial catheter embolization followed by surgery for large chemodectoma. *Surgery.* 1980;87(4):459-64. PMID:6245477.
16. Maia M, Vidoedo J, Pinto JA. Embolização pré-operatória de tumor do corpo carotídeo. *Angiol Cir Vasc.* 2012;8(4):186-94.
17. Elhammady MS, Peterson EC, Johnson JN, Aziz-Sultan MA. Preoperative onyx embolization of vascular head and neck tumors by direct puncture. *World Neurosurg.* 2012;77(5-6):725-30. <http://dx.doi.org/10.1016/j.wneu.2011.02.033>. PMID:22079824.

---

**Correspondência**

Alexandre Campos Moraes Amato  
Av. Brasil, 2283 - Jardim América  
CEP 01431-001 - São Paulo (SP), Brasil  
Tel: (11) 5053-2222  
E-mail: alexandre@amato.com.br

**Informações sobre os autores**

ACMA - Doutor em Ciências, Universidade de São Paulo (USP);  
Professor, Cirurgia Vascular, Faculdade de Medicina, Universidade  
Santo Amaro (UNISA).  
DDGF, FTFS, MAU e TOS - Acadêmicos de medicina do 5° ano,  
Faculdade de Medicina, Universidade Santo Amaro (UNISA).  
RVS - Mestre em Ciências, Universidade de São Paulo (USP);  
Professor, Cirurgia Vascular, Faculdade de Medicina, Universidade  
Santo Amaro (UNISA).

**Contribuições dos autores**

Concepção e desenho do estudo: ACMA, RVS  
Análise e interpretação dos dados: ACMA, RVS  
Coleta de dados: ACMA, DDGF, FTFS, MAU, TOS, RVS  
Redação do artigo: ACMA, DDGF, FTFS, MAU, TOS, RVS  
Revisão crítica do texto: ACMA, RVS  
Aprovação final do artigo\*: ACMA, DDGF, FTFS, MAU, TOS, RVS  
Análise estatística: N/A.  
Responsabilidade geral pelo estudo: ACMA

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