

Idiopathic right common iliac artery aneurysm in a three-year-old child - case report

Aneurisma idiopático de artéria ilíaca comum direita em criança de três anos - relato de caso

Loraine Entringer Falqueto¹ , Gabriela Caetano Lopes Martins² , Arthur Akio Konno Saito² ,
Ayrton Alves Aranha Junior² , Ziliane Caetano Lopes Martins² 

Abstract

The incidence of iliac aneurysms in children is unknown and there are only a small number of case reports in the literature on the subject. This article describes the case of a 3-year-old male patient with an isolated saccular aneurysm at the bifurcation of the right common iliac artery, of idiopathic origin, which was repaired by resection, ligation of the internal iliac artery and end-to-end vascular anastomosis. After 1 month of follow-up, he was diagnosed with asymptomatic occlusion of the anastomosis. The occlusion had no clinical repercussions because of collateral circulation and the child has had a favorable clinical course over the medium term.

Keywords: congenital aneurysm; iliac aneurysm; pediatrics; child.

Resumo

A incidência de aneurismas ilíacos em crianças não é conhecida, havendo apenas alguns relatos de casos na literatura sobre o tema. Neste estudo, é relatado o caso de um paciente masculino, 3 anos, com aneurisma sacular isolado na bifurcação da artéria ilíaca comum direita de origem idiopática, que foi submetido a ressecção, ligadura da artéria ilíaca interna e anastomose vascular término-terminal. Após 1 mês de seguimento, foi diagnosticada oclusão assintomática da anastomose. Devido à presença de circulação colateral, não houve repercussões clínicas da oclusão, e a criança apresentou evolução clínica favorável a médio prazo.

Palavras-chave: aneurisma congênito; aneurisma ilíaco; pediatria; criança.

How to cite: Falqueto LE, Martins GCL, Saito AAK, Aranha Junior AA, Martins ZCL. Idiopathic right common iliac artery aneurysm in a three-year-old child - case report. J Vasc Bras. 2021;20:e20200195. <https://doi.org/10.1590/1677-5449.200195>

¹Hospital Pequeno Príncipe – HPP, Curitiba, PR, Brasil.

²Universidade Federal do Paraná – UFPR, Curitiba, PR, Brasil.

Financial support: None.

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

Submitted: October 08, 2020. Accepted: January 30, 2021.

The study was carried out at Hospital Pequeno Príncipe (HPP), Curitiba, PR, Brazil.



Copyright© 2021 The authors. This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License, which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

■ INTRODUCTION

The incidence of iliac aneurysms in children is unknown and there are only a small number of case reports on the subject in the literature.¹ The most common etiologies of arterial aneurysms include infection, arterites, connective tissue diseases, fibromuscular dysplasia, and trauma, and idiopathic aneurysms are the least frequent.²

When diagnosed, iliac artery aneurysms should be treated immediately, because of the high risk of rupture, thrombosis, or distal embolization.³ Treatment is challenging in the pediatric population because of the smaller size of anatomic structures, the patient's growth, and the long life expectancy.⁴

This article describes the case of a three-year-old male patient with an isolated aneurysm of the right common iliac artery of idiopathic origin. It covers clinical work-up, treatment, and the medium-term results of the case, with the aim of contributing to improvements in treatment of aneurysms of major vessels in children.

■ CASE DESCRIPTION

This report was approved by the Research Ethics Committee (ruling number 4.306.931) and the patient's guardians gave their consent to publication. The patient was male, aged 3 years and 7 months, weighed 17 kg, had brown skin, and a history of recurrent pharyngotonsillitis. He had presented at an Urgent Care Center with fever (axillary temperature of 39.5 °C), myalgia, odynophagia, headaches, vomiting, and diarrhea around 9 days previously. He had no history of prior surgery, comorbidities, or allergies. Abdominal physical examination found a palpable pulsating mass of around 6 cm was in the

right iliac fossa. The patient had no family history of aneurysmal disease.

Computed tomography (CT) with contrast of the abdomen and pelvis showed an expansive, saccular formation at the bifurcation of the right common iliac artery, measuring 6.5 x 5.6 x 4.8 cm (Figure 1). In view of this diagnosis, the patient was referred as an emergency case to a specialist pediatric vascular surgery center.

At admission, the patient was hemodynamically stable, with no right lower limb skin changes, free from edema, and strength, musculature, and peripheral pulses were all symmetrical with the contralateral limb. No additional findings were recorded beyond the palpable pulsating abdominal mass. He was assessed by the rheumatology team to investigate inflammatory or autoimmune etiologies, and by the infectiology team to rule out a hypothesis of mycotic aneurysm. No additional genetic investigation was conducted because of the absence of family history or suspicious phenotypical abnormalities.

Supplementary examinations conducted included transthoracic echocardiogram, which was normal, abdominal ultrasonography (USG), which showed absence of the left kidney and aneurysmal dilatation of the right iliac artery (4.4 x 4.2 cm) with an associated mural thrombus and a 3.1 cm thrombus-free lumen, and CT of the head which was normal. Cultures of urine, blood, and oropharyngeal swab samples were all negative. General laboratory tests were ordered and the results were all normal except for erythrocyte sedimentation rate (ESR), at 108 mm/h, and C-reactive protein (CRP), at 29.4 mg/L, both of which are elevated levels. On the basis of these results, assays to test for vasculitis were ordered, including immunoglobulins (IgA and IgG were elevated and IgM was normal: 572, 1,308, and 90 mg/dL, respectively)

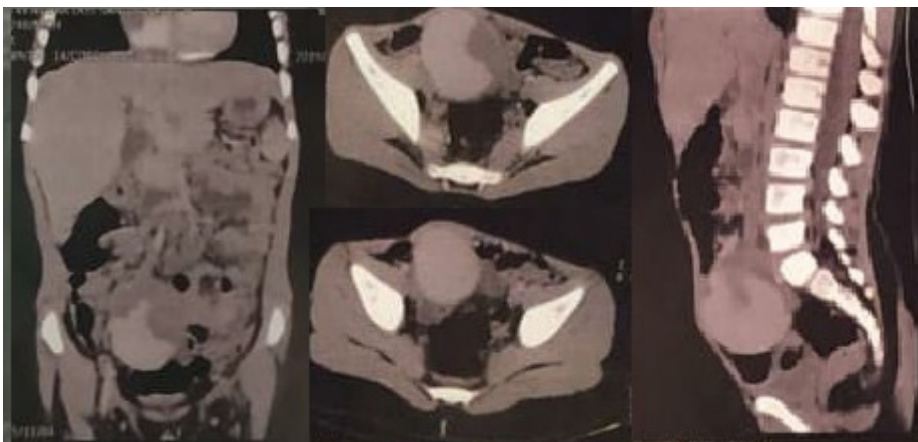


Figure 1. Coronal, axial, and sagittal tomographic images with contrast showing the aneurysm of the right common iliac artery.

and antineutrophil cytoplasmic antibodies (ANCA), which was negative. Serum tests for hepatitis B and C, tuberculin testing with purified protein derivative (PPD), and the anti-HIV test were all negative.

Despite the elevated inflammatory and total immunoglobulin results, it was not possible to determine an etiology (autoimmune or infectious). In an attempt to reduce the systemic inflammatory response and improve the surgical results, the pediatric rheumatology team prescribed a therapeutic test with methylprednisolone (30 mg/kg/day) for 5 days. Prior to the pulse therapy, prophylaxis was administered with albendazol. The tests were repeated after the corticoid course and there were improvements in ESR (32 mm/h) and CRP (< 5 mg/L). In order to contribute to a diagnosis by biopsy and culture of the aneurysm and to avert complications such as rupture, thromboembolism, and dissection, surgical treatment was initiated.

The surgical approach chosen was a J-shaped incision in the right iliac fossa and dissection of the extraperitoneal space (a Gibson incision). After proximal repair of the common iliac artery and distal repair of the external iliac artery (Figure 2), the saccular aneurysm was opened and the ostium of the internal iliac artery was hemostatically sutured. The thrombi were removed and the aneurysmal segment was resected. Vascular reconstruction was performed with an end-to-end anastomosis between the common iliac artery and the external iliac artery, with separate 6.0 polypropylene sutures (Figure 3) and the aid of a surgical loupe at 2.5 times magnification. The procedure lasted 4 hours, with no intercurrent conditions and without a need for blood transfusion. The anatomopathological report of analysis of the aneurysm wall and thrombi described fibrous mural and intimal thickening with focal calcified atheroma and recent thrombi in the process of organization. The culture was negative. The aneurysm was classified as congenital/idiopathic.

The patient was kept under observation in the intensive care unit for 48 hours. He remained in hospital for the first 6 postoperative days, on 10 mg/day enoxaparin. Daily physical examinations found symmetrical, well-perfused lower limbs with symmetrical peripheral pulses. Doppler USG showed that the anastomosis was patent. After hospital discharge, the patient was kept on acetylsalicylic acid at 50 mg per day.

At a 1-month outpatients follow-up consultation, the right lower limb was free from edema and skin changes, but the peripheral pulse was not palpable. Control Doppler USG showed occlusion at the level of the anastomosis, but with collateral circulation and without clinical repercussions. Over 13 months of conservative follow-up, no differences in muscle growth were observed between the two lower limbs.

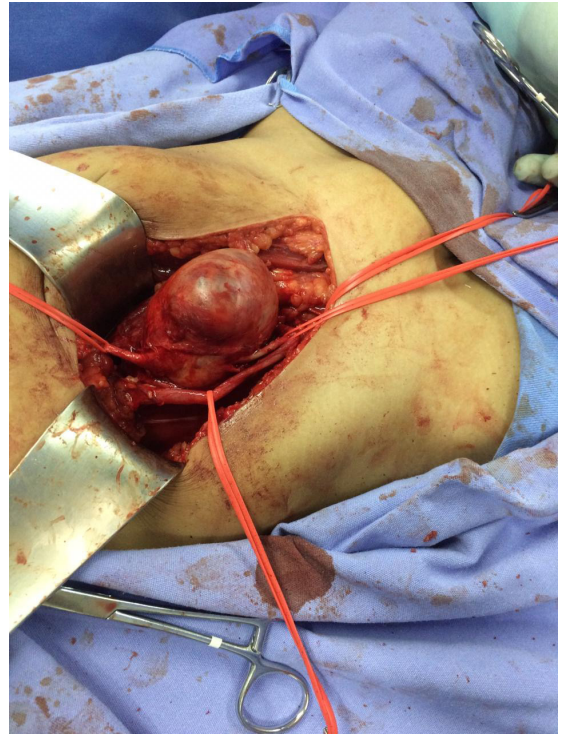


Figure 2. Intraoperative photograph of the idiopathic isolated right common iliac artery aneurysm, with proximal and distal control.

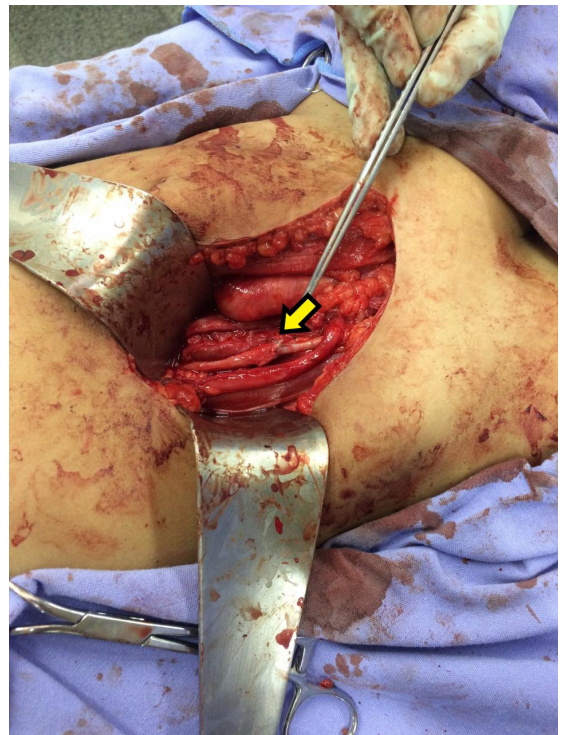


Figure 3. Intraoperative photograph showing the final appearance of the end-to-end anastomosis of the common iliac right external iliac (arrow) arteries after resection of the aneurysm.

■ DISCUSSION

Aneurysms are rare pathologies in pediatrics, particularly isolated aneurysms involving large vessels.⁵ Sarkar et al.² classified arterial aneurysms in children into nine types: I) caused by arterial infection; II) giant-cell aortoarteritis; III) autoimmune connective tissue disease; IV) Kawasaki disease; V) involving degeneration of the tunica media (Ehlers-Danlos syndrome or Marfan's syndrome); VI) associated with other forms of noninflammatory medial degeneration; VII) associated with arterial dysplasia; VIII) congenital/idiopathic aneurysms; and IX) pseudoaneurysms caused by vascular injury.

Congenital/idiopathic aneurysms are uncommon and demand detailed investigation to rule out other causes.³ In the case described here, the aneurysm was classified as congenital/idiopathic because of an absence of clinical, laboratory, or pathology findings indicative of other etiologies such as infection, trauma, vascular malformation, or connective tissue diseases.

Based on the patient's prior history of recurrent tonsillitis, the primary hypothesis was a mycotic aneurysm. However, this was not confirmed by the biopsy and the patient had no further infections after receiving appropriate treatment. Auto-antibody tests are useful for preoperative diagnosis of autoimmune vasculitis. During the physical examination, assessment of stature, joint hypermobility, skin, and facial and limb characteristics are essential elements in identifying or ruling out of genetic and autoimmune abnormalities, guiding investigation. Previous pathologies, family history, and a complete physical examination are crucial to arrive at the correct diagnosis. Histological findings of intimal fibroplasia are common in idiopathic aneurysms and are probably secondary to the process rather than an etiologic factor.²

Surgical treatment is the standard option because of the natural history involving progression to rupture, thrombosis, and thromboembolism.^{2,3} There are reports in the literature describing use of grafts (prosthetic grafts, cryopreserved veins, and autologous grafts), embolization, plication, and resection with primary anastomosis.^{1,3,6-9} The last of these was chosen in this case. It is recommended that single sutures be used all around the anastomosis circumference, since continuous sutures can be a risk factor for stenosis as the child grows.^{6,10} There is also the endovascular approach, which is emerging as a promising option for pediatric vascular repair.¹¹

Patients with idiopathic aneurysms should be monitored because of the risk of relapse, new aneurysms, or complications related to repair. Doppler USG is the imaging exam of choice.¹⁰ Davis et al.¹² recommend

annual follow-up. Another recommendation is to use an antiplatelet drug for 6 months after intervention.

In this patient, platelet antiaggregation was maintained and occlusion at the level of the anastomosis was identified at 1 month follow-up, with no clinical repercussions. This was managed conservatively and no growth discrepancies between the limbs were observed up to the most recent consultation, at 13 months' follow-up. Nevertheless, long-term follow-up will be needed to rule out sequelae related to development of the child and the limb.

It is concluded that management of iliac artery aneurysms in children is challenging both because of the rarity of cases and because of anatomic limitations (dimensions) and the child's growth. Surgical management is the first choice, but there is no consensus on the exact moment to intervene or on the preferred surgical technique. In the case described, resection and primary anastomosis were chosen. Despite occlusion of the anastomosis at 1 month, treatment of the aneurysm was successful. To date, no sequelae have been observed that affect the patient's development, although long-term follow-up is essential.

■ ACKNOWLEDGMENTS

Special thanks should be addressed to the doctors from other specialties responsible for the care of the patient in the reported case. To Dr. Renato Pedro de Almeida Torres, Pediatric Cardiologist, and to Dr. Márcia Bandeira, Pediatric Rheumatologist, our thanks.

■ REFERENCES

1. Lee JH, Oh C, Youn JK, Han JW, Kim HY, Jung SE. Right iliac arterial aneurysm in a 4-year-old girl who does not have a right external iliac artery. *Ann Surg Treat Res.* 2016;91(5):265-8. <http://dx.doi.org/10.4174/ast.2016.91.5.265>. PMID:27847800.
2. Sarkar R, Coran AG, Cilley RE, Lindenauer SM, Stanley JC. Arterial aneurysms in children: clinicopathologic classification. *J Vasc Surg.* 1991;13(1):47-56. [http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214\(91\)90011-1](http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214(91)90011-1). PMID:1987396.
3. Zaidan LR, Siddique MT, Sharif MA, AlGarni S, Alomran F, Koussayer S. Isolated idiopathic right common iliac artery aneurysm presenting as acute appendicitis in a 9-year-old girl: a case report and literature review. *Ann Vasc Surg.* 2019;61:469.e13-9. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2019.05.026>. PMID:31382004.
4. Hoshiko FM, Zampieri EHS, Dalio MB, Dezotti NRA, Joviliano EE. Reparo de aneurisma de artéria ilíaca roto em criança. *J Vasc Bras.* 2017;16(1):48-51. <http://dx.doi.org/10.1590/1677-5449.008616>. PMID:29930623.
5. Brunkwall J, Hauksson H, Bengtsson H, Bergqvist D, Takolander R, Bergentz SE. Solitary aneurysms of the iliac arterial system: an estimate of their frequency of occurrence. *J Vasc Surg.* 1989;10(4):381-4. [http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214\(89\)90411-4](http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214(89)90411-4). PMID:2795762.
6. Zimmermann A, Kuehnl A, Seidl S, Eckstein HH. Idiopathic aneurysm of the common iliac artery in an 11-year-old child. *J Vasc*

- Surg. 2009;50(3):663-6. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2009.04.056>. PMID:19576718.
7. Krysiak R, Żyłkowski J, Jaworski M, Brzewski M, Bober-Olesińska K. Neonatal idiopathic aneurysm of the common iliac artery. *J Vasc Surg Cases Innov Tech.* 2019;5(2):75-7. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvscit.2018.10.002>. PMID:31025026.
 8. Moritz MW. Primary iliac artery aneurysm in a two-year-old girl. *Ann Vasc Surg.* 1986;1(3):392-5. [http://dx.doi.org/10.1016/S0890-5096\(06\)60143-X](http://dx.doi.org/10.1016/S0890-5096(06)60143-X). PMID:3504354.
 9. Taketani S, Imagawa H, Kadoba K, Sawa Y, Sirakura R, Matsuda H. Idiopathic iliac arterial aneurysms in a child. *J Pediatr Surg.* 1997;32:1519. [http://dx.doi.org/10.1016/S0022-3468\(97\)90582-0](http://dx.doi.org/10.1016/S0022-3468(97)90582-0).
 10. Chithra R, Ajai Sundar R, Velladuraichi B, Sritharan N, Amalorpavanathan J, Vidyasagan T. Pediatric isolated bilateral iliac aneurysm. *J Vasc Surg.* 2013;58(1):215-6. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2012.11.036>. PMID:23433815.
 11. Başpınar O, Vuruşkan E, Coşkun S, Aldudak B. Transcatheter treatment of a symptomatic giant iliac artery aneurysm with a begraft peripheral stent in a 2-year-old child. *Pediatr Cardiol.* 2020;41(5):1067-70. <http://dx.doi.org/10.1007/s00246-019-02266-1>. PMID:31848637.
 12. Davis FM, Eliason JL, Ganesh SK, Blatt NB, Stanley JC, Coleman DM. Pediatric nonaortic arterial aneurysms. *J Vasc Surg.* 2016;63(2):466-76.e1. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2015.08.099>. PMID:26804218.

Correspondence

Loraine Entringer Falqueto
 Rua Desembargador Motta, 1070, 6º andar, Sala da COREME
 CEP 80250-060 - Curitiba (PR), Brasil
 Tel: +55 (11) 99860-6409
 E-mail: lorainevni@gmail.com

Author information

LEF - Pediatric surgery resident, Hospital Pequeno Príncipe (HPP).
 GCLM and AAKS - Medical students, Universidade Federal do Paraná (UFPR).
 AAAJ - PhD in Clínica Cirúrgica, Universidade Federal do Paraná (UFPR).
 ZCLM - Physician, Universidade Federal do Paraná (UFPR).

Author contributions

Conception and design: LEF, GCLM, ZCLM
 Analysis and interpretation: LEF, GCLM, AAKS
 Data collection: LEF, ZCLM
 Writing the article: LEF, GCLM, AAKS
 Critical revision of the article: LEF, ZCLM
 Final approval of the article*: LEF, GCLM, AAKS, AAAJ, ZCLM
 Statistical analysis: N/A.
 Overall responsibility: ZCLM

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

Aneurisma idiopático de artéria ilíaca comum direita em criança de três anos - relato de caso

Idiopathic right common iliac artery aneurysm in a three-year-old child - case report

Loraine Entringer Falqueto¹ , Gabriela Caetano Lopes Martins² , Arthur Akio Konno Saito² ,
Ayrton Alves Aranha Junior² , Ziliane Caetano Lopes Martins² 

Resumo

A incidência de aneurismas ilíacos em crianças não é conhecida, havendo apenas alguns relatos de casos na literatura sobre o tema. Neste estudo, é relatado o caso de um paciente masculino, 3 anos, com aneurisma sacular isolado na bifurcação da artéria ilíaca comum direita de origem idiopática, que foi submetido a ressecção, ligadura da artéria ilíaca interna e anastomose vascular término-terminal. Após 1 mês de seguimento, foi diagnosticada oclusão assintomática da anastomose. Devido à presença de circulação colateral, não houve repercussões clínicas da oclusão, e a criança apresentou evolução clínica favorável a médio prazo.

Palavras-chave: aneurisma congênito; aneurisma ilíaco; pediatria; criança.

Abstract

The incidence of iliac aneurysms in children is unknown and there are only a small number of case reports in the literature on the subject. This article describes the case of a 3-year-old male patient with an isolated saccular aneurysm at the bifurcation of the right common iliac artery, of idiopathic origin, which was repaired by resection, ligation of the internal iliac artery and end-to-end vascular anastomosis. After 1 month of follow-up, he was diagnosed with asymptomatic occlusion of the anastomosis. The occlusion had no clinical repercussions because of collateral circulation and the child has had a favorable clinical course over the medium term.

Keywords: congenital aneurysm; iliac aneurysm; pediatrics; child.

Como citar: Falqueto LE, Martins GCL, Saito AAK, Aranha Junior AA, Martins ZCL. Aneurisma idiopático de artéria ilíaca comum direita em criança de três anos - relato de caso. J Vasc Bras. 2021;20:e20200195. <https://doi.org/10.1590/1677-5449.200195>

¹Hospital Pequeno Príncipe – HPP, Curitiba, PR, Brasil.

²Universidade Federal do Paraná – UFPR, Curitiba, PR, Brasil.

Fonte de financiamento: Nenhuma.

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

Submetido em: Outubro 08, 2020. Aceito em: Janeiro 30, 2021.

O estudo foi realizado no Hospital Pequeno Príncipe (HPP), Curitiba, PR, Brasil.



■ INTRODUÇÃO

A incidência de aneurismas ilíacos em crianças não é conhecida, havendo apenas alguns relatos de casos na literatura sobre o tema¹. As etiologias mais frequentes de aneurismas arteriais incluem infecção, arterites, doenças do tecido conjuntivo, displasia fibromuscular e trauma, sendo os aneurismas idiopáticos os menos frequentes².

Quando diagnosticados, os aneurismas de artéria íliaca devem ser prontamente abordados devido ao alto risco de ruptura, trombose ou embolização distal³. O tamanho reduzido das estruturas anatômicas na população pediátrica, o crescimento do paciente e a longa expectativa de vida tornam o tratamento desafiador⁴.

Este artigo aborda um paciente masculino de 3 anos de idade com aneurisma isolado de artéria íliaca comum direita de origem idiopática. Serão detalhados a investigação clínica, o tratamento e a evolução do caso a médio prazo a fim de contribuir para os avanços no tratamento de aneurismas de grandes vasos em crianças.

■ DESCRIÇÃO DO CASO

Este relato foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa (número do parecer 4.306.931), e os responsáveis pelo paciente consentiram com a sua realização. O paciente era do sexo masculino, pardo, 3 anos e 7 meses, 17 kg, com antecedente de faringoamigdalite de repetição. Havia sido atendido em Pronto Atendimento com febre (temperatura axilar de 39,5 °C), mialgia, odinofagia, cefaleia, vômitos e diarreia há cerca de 9 dias. Ele não possuía histórico de cirurgias prévias, comorbidades ou alergias. Ao exame físico abdominal, foi palpada massa pulsátil com cerca de 6 cm em fossa íliaca direita. Além disso,

o paciente também não tinha antecedente familiar de doença aneurismática.

Foi realizada tomografia computadorizada (TC) de abdome e pelve com contraste, a qual evidenciou uma formação expansiva sacular na bifurcação da artéria íliaca comum direita de 6,5 x 5,6 x 4,8 cm (Figura 1). Devido ao diagnóstico, o paciente foi encaminhado com urgência a um centro de referência pediátrico com cirurgia vascular.

Na admissão, o paciente encontrava-se estável hemodinamicamente, com membro inferior direito sem lesões cutâneas, sem edema e com força, trofismo e pulsos periféricos simétricos ao contralateral. Não foram registrados outros achados além da massa abdominal palpável pulsátil. Ele foi avaliado pela reumatologia, para investigar etiologias inflamatórias ou autoimunes, e pela infectologia, sob hipótese de aneurisma micótico. Não foi realizada investigação genética adicional pela ausência de história familiar e alterações fenotípicas suspeitas.

Entre os exames complementares realizados, o ecocardiograma transtorácico estava normal. A ultrassonografia (USG) de abdome demonstrou ausência do rim esquerdo e dilatação aneurismática da artéria íliaca direita (4,4 x 4,2 cm), com trombo mural associado e 3,1 cm de luz não trombosada. A TC de crânio estava normal. As culturas de urina, sangue e *swab* orofaríngeo foram negativas. Foram solicitados exames laboratoriais gerais, que estavam normais, exceto pela velocidade de hemossedimentação (VHS) — 108 mm/h — e pela proteína C reativa (PCR) — 29,4 mg/L —, as quais estavam aumentadas. Com base nessas alterações, para investigação de vasculites, foram dosados imunoglobulinas (IgA e IgG aumentados e IgM normal: 572, 1.308 e 90 mg/dL, respectivamente) e anticorpo anticitoplasmático de neutrófilo (ANCA), o qual foi negativo. As sorologias para hepatite B e C,

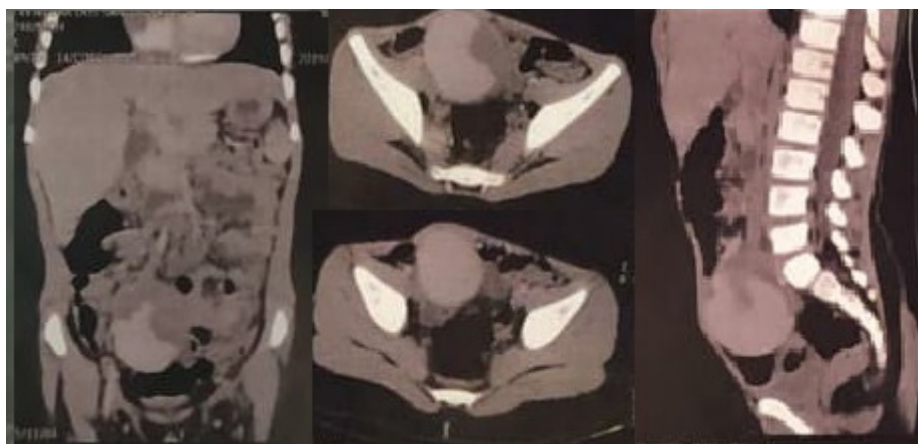


Figura 1. Imagens tomográficas com contraste do aneurisma de artéria íliaca comum direita – coronal, axial e sagital.

o teste tuberculínico com derivado proteico purificado (PPD) e o teste anti-HIV foram negativos.

Apesar do aumento de provas inflamatórias e das imunoglobulinas totais, não foi possível definir uma etiologia (autoimune ou infecciosa). Na tentativa de diminuir a resposta inflamatória sistêmica e melhorar os resultados cirúrgicos, a reumatologia pediátrica indicou teste terapêutico com metilprednisolona (30 mg/kg/dia) por 5 dias. Previamente à pulsoterapia, foi realizada profilaxia com albendazol. Após o uso do corticoide, foram repetidos os exames, com a melhora do VHS (32 mm/h) e do PCR (< 5 mg/L). Dessa forma, para auxiliar no diagnóstico através de biópsia e cultura do aneurisma, bem como para evitar complicações como rotura, tromboembolia e dissecação, foi realizado o tratamento cirúrgico.

O acesso cirúrgico escolhido foi incisão em J na fossa íliaca direita e dissecação do espaço extraperitoneal (incisão de Gibson). Após o reparo proximal da artéria íliaca comum e distal da artéria íliaca externa (Figura 2), foram realizadas abertura do aneurisma sacular e sutura hemostática do óstio da artéria íliaca interna. Foi feita a remoção dos trombos e ressecção do segmento aneurismático; a reconstrução vascular foi uma anastomose término-terminal entre a artéria íliaca comum e a artéria íliaca externa, com pontos separados de polipropileno 6.0 (Figura 3) com auxílio de lupa cirúrgica com aumento 2,5 vezes. O procedimento transcorreu em 4 horas, sem intercorrências e sem necessidade de transfusão sanguínea. A análise anatomopatológica da parede do aneurisma e dos trombos foi de espessamento fibroso mural e intimal com ateroma focalmente calcificado, trombos recentes e em organização. A cultura foi negativa. O aneurisma foi classificado como congênito/idiopático.

O paciente foi mantido em observação em unidade de terapia intensiva por 48 horas. Durante os primeiros 6 dias de pós-operatório, ficou internado e recebeu enoxaparina 10 mg/dia. No exame físico diário, constatou-se membros inferiores simétricos, bem perfundidos e pulsos periféricos também simétricos. A USG com Doppler demonstrou perviedade da anastomose. Após a alta hospitalar, o paciente permaneceu em uso de ácido acetilsalicílico 50 mg ao dia.

No seguimento ambulatorial, 1 mês após a cirurgia, o membro inferior direito estava sem edema, sem lesões cutâneas, mas com pulso periférico não palpável. Na USG com Doppler de controle, foi observada oclusão a nível da anastomose, porém com circulação colateral e sem repercussão clínica. Após 13 meses de seguimento com conduta expectante, não foi observada diferença de trofismo entre os membros.

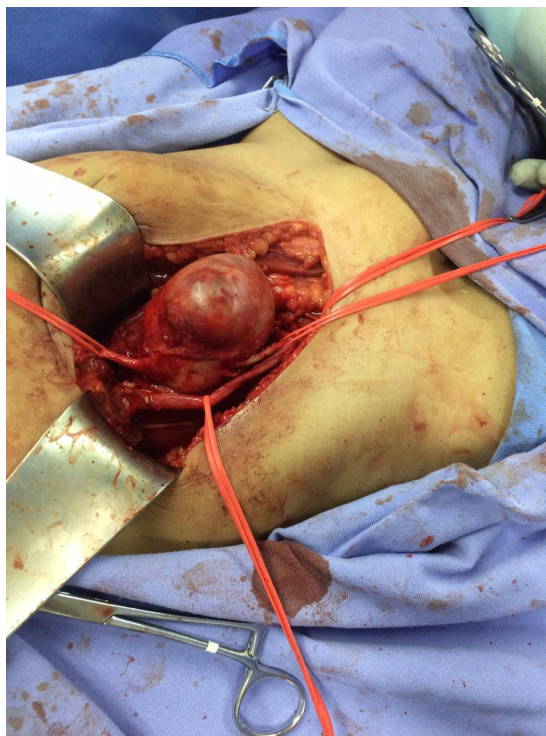


Figura 2. Foto intraoperatória do aneurisma idiopático de artéria íliaca comum direita isolado, com controle proximal e distal.

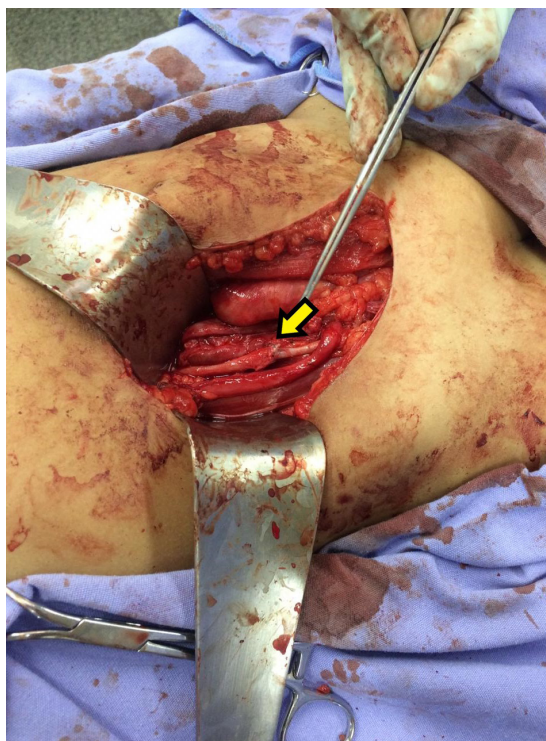


Figura 3. Foto intraoperatória mostrando o aspecto final da anastomose término-terminal das artérias íliaca comum e íliaca externa direita (seta) após a ressecção do aneurisma.

■ DISCUSSÃO

Os aneurismas são patologias raras em pediatria, principalmente de vasos de grande calibre e isolados⁵. Sarkar et al.² classificaram os aneurismas arteriais em crianças em nove tipos: I) causado por infecção arterial; II) aortoarterite de célula gigante; III) doença autoimune do tecido conjuntivo; IV) doença de Kawasaki; V) com degeneração da camada média (síndromes de Marfan e Ehlers-Danlos); VI) associados a outras formas não inflamatórias de degeneração da camada média; VII) associados a displasias vasculares; VIII) aneurismas congênitos/idiopáticos; IX) pseudoaneurismas devido a lesão vascular.

Os aneurismas congênitos/idiopáticos são incomuns e exigem uma investigação detalhada para exclusão de outras causas³. No caso relatado, o aneurisma foi assim classificado devido à ausência de achados clínicos, laboratoriais ou anatomopatológicos que indicassem outras etiologias, como infecção, trauma, malformação vascular ou doenças do tecido conjuntivo.

Com base na história pregressa de amigdalites de repetição, a principal hipótese era de aneurisma micótico. Todavia, não foi confirmado na biópsia, e o paciente não teve novas infecções após o tratamento adequado. A pesquisa de autoanticorpos auxilia no diagnóstico pré-operatório de vasculites autoimunes. No exame físico, a avaliação da estatura, da hiper mobilidade articular, da pele e das características de face e membros são fundamentais para a busca de alterações genéticas e autoimunes, guiando a investigação. Os antecedentes patológicos, a história familiar e o exame físico completo são cruciais para o diagnóstico correto. O achado histológico de fibroplasia da íntima é uma alteração frequente nos aneurismas idiopáticos, sendo, provavelmente, uma lesão secundária ao processo e não um fator etiológico².

O tratamento cirúrgico é a indicação padrão por causa da evolução natural com rotura, trombose e tromboembolia^{2,3}. Foram relatados na literatura o uso de enxertos (próteses, veias crio preservadas e enxertos autólogos), embolização, plicatura e ressecção com anastomose primária^{1,3,6-9}. Essa última foi a abordagem de eleição. Recomenda-se utilizar pontos simples em toda a circunferência da anastomose, uma vez que a sutura contínua pode ser um fator de risco para estenose ao longo do crescimento da criança^{6,10}. Há ainda a abordagem endovascular, a qual vem surgindo como uma alternativa promissora nas correções vasculares pediátricas¹¹.

Os pacientes com aneurismas idiopáticos devem ser acompanhados devido ao risco de recidiva, novos aneurismas ou complicações da correção. A USG com Doppler é o exame de imagem de escolha¹⁰. Davis et al.¹² recomendam o seguimento anual. Outra

recomendação é uso de antiagregante plaquetário por 6 meses após a intervenção.

Neste paciente, foi mantida a antiagregação plaquetária e foi identificada oclusão ao nível da anastomose após 1 mês de seguimento, sem repercussões clínicas. Foi optada pela conduta expectante e não houve discrepâncias de trofismo entre os membros até a consulta mais recente, após 13 meses de seguimento. Todavia, é necessário seguimento a longo prazo para exclusão de sequelas relacionadas ao desenvolvimento da criança e do membro.

Conclui-se que o manejo de aneurismas de artéria ilíaca em crianças é um desafio tanto pela raridade dos casos quanto pelas limitações anatômicas (dimensões) e pelo crescimento da criança. A conduta cirúrgica é a de escolha, mas não há consenso sobre o momento exato de indicação e quanto à técnica cirúrgica preferencial. No caso relatado, optou-se pela ressecção e anastomose primária. Apesar da oclusão da anastomose após 1 mês, obteve-se sucesso no tratamento do aneurisma. Até o momento, não foram observadas sequelas que afetaram o desenvolvimento do paciente, sendo fundamental o seguimento a longo prazo.

■ AGRADECIMENTOS

Agradecimentos especiais devem ser dados aos médicos de outras especialidades responsáveis pelo atendimento do paciente do caso relatado. Ao Doutor Renato Pedro de Almeida Torres, Cardiologista Pediátrico, e à Doutora Márcia Bandeira, Reumatologista Pediátrica, nosso muito obrigado.

■ REFERÊNCIAS

1. Lee JH, Oh C, Youn JK, Han JW, Kim HY, Jung SE. Right iliac arterial aneurysm in a 4-year-old girl who does not have a right external iliac artery. *Ann Surg Treat Res.* 2016;91(5):265-8. <http://dx.doi.org/10.4174/ast.2016.91.5.265>. PMID:27847800.
2. Sarkar R, Coran AG, Cilley RE, Lindenauer SM, Stanley JC. Arterial aneurysms in children: clinicopathologic classification. *J Vasc Surg.* 1991;13(1):47-56. [http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214\(91\)90011-1](http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214(91)90011-1). PMID:1987396.
3. Zaidan LR, Siddique MT, Sharif MA, AlGarni S, Alomran F, Koussayer S. Isolated idiopathic right common iliac artery aneurysm presenting as acute appendicitis in a 9-year-old girl: a case report and literature review. *Ann Vasc Surg.* 2019;61:469.e13-9. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2019.05.026>. PMID:31382004.
4. Hoshiko FM, Zampieri EHS, Dalio MB, Dezotti NRA, Joviliano EE. Reparo de aneurisma de artéria ilíaca roto em criança. *J Vasc Bras.* 2017;16(1):48-51. <http://dx.doi.org/10.1590/1677-5449.008616>. PMID:29930623.
5. Brunkwall J, Hauksson H, Bengtsson H, Bergqvist D, Takolander R, Bergentz SE. Solitary aneurysms of the iliac arterial system: an estimate of their frequency of occurrence. *J Vasc Surg.* 1989;10(4):381-4. [http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214\(89\)90411-4](http://dx.doi.org/10.1016/0741-5214(89)90411-4). PMID:2795762.
6. Zimmermann A, Kuehnl A, Seidl S, Eckstein HH. Idiopathic aneurysm of the common iliac artery in an 11-year-old child. *J Vasc*

- Surg. 2009;50(3):663-6. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2009.04.056>. PMID:19576718.
7. Krysiak R, Żyłkowski J, Jaworski M, Brzewski M, Bober-Olesińska K. Neonatal idiopathic aneurysm of the common iliac artery. *J Vasc Surg Cases Innov Tech*. 2019;5(2):75-7. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvscit.2018.10.002>. PMID:31025026.
 8. Moritz MW. Primary iliac artery aneurysm in a two-year-old girl. *Ann Vasc Surg*. 1986;1(3):392-5. [http://dx.doi.org/10.1016/S0890-5096\(06\)60143-X](http://dx.doi.org/10.1016/S0890-5096(06)60143-X). PMID:3504354.
 9. Taketani S, Imagawa H, Kadoba K, Sawa Y, Sirakura R, Matsuda H. Idiopathic iliac arterial aneurysms in a child. *J Pediatr Surg*. 1997;32:1519. [http://dx.doi.org/10.1016/S0022-3468\(97\)90582-0](http://dx.doi.org/10.1016/S0022-3468(97)90582-0).
 10. Chithra R, Ajai Sundar R, Velladuraichi B, Sritharan N, Amalorpavanathan J, Vidyasagan T. Pediatric isolated bilateral iliac aneurysm. *J Vasc Surg*. 2013;58(1):215-6. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2012.11.036>. PMID:23433815.
 11. Başpınar O, Vuruşkan E, Coşkun S, Aldudak B. Transcatheter treatment of a symptomatic giant iliac artery aneurysm with a begraft peripheral stent in a 2-year-old child. *Pediatr Cardiol*. 2020;41(5):1067-70. <http://dx.doi.org/10.1007/s00246-019-02266-1>. PMID:31848637.
 12. Davis FM, Eliason JL, Ganesh SK, Blatt NB, Stanley JC, Coleman DM. Pediatric nonaortic arterial aneurysms. *J Vasc Surg*. 2016;63(2):466-76.e1. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2015.08.099>. PMID:26804218.

Correspondência

Loraine Entringer Falqueto
 Rua Desembargador Motta, 1070, 6º andar, Sala da COREME
 CEP 80250-060 - Curitiba (PR), Brasil
 Tel.: (11) 99860-6409
 E-mail: lorainevni@gmail.com

Informações sobre os autores

LEF - Residente de Cirurgia Pediátrica, Hospital Pequeno Príncipe (HPP).
 GCLM and AAKS - Acadêmicos de Medicina, Universidade Federal do Paraná (UFPR).
 AAAJ - Doutor em Clínica Cirúrgica, Universidade Federal do Paraná (UFPR).
 ZCLM - Médica, Universidade Federal do Paraná (UFPR).

Contribuições dos autores

Concepção e desenho do estudo: LEF, GCLM, ZCLM
 Análise e interpretação dos dados: LEF, GCLM, AAKS
 Coleta dos dados: LEF, ZCLM
 Redação do artigo: LEF, GCLM, AAKS
 Revisão crítica do texto: LEF, ZCLM
 Aprovação final do artigo*: LEF, GCLM, AAKS, AAAJ, ZCLM
 Análise estatística: N/A.
 Responsabilidade geral pelo estudo: ZCLM

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