




Bilateral anterior tibial artery entrapment by the ankle extensor retinaculum: case report

Síndrome do aprisionamento da artéria tibial anterior bilateral pelo retináculo extensor do tornozelo: relato de caso

Ana Luiza Dias Valiente Engelhorn^{1,2}, Anna Luiza Cauduro de Miranda¹, Luiz Eduardo Biglia¹, Rafaella Castilho¹, Sarah Folly Polonio Machado¹, Maurício Henrique Abrão³, Carlos Alberto Engelhorn^{1,2} 

Abstract

Vascular entrapment is rare. In the lower limbs it is generally asymptomatic, but may cause atypical intermittent claudication in young people without risk factors for atherosclerosis and inflammatory diseases. The most common type of compression involves the popliteal artery, causing symptoms in the region of the infra-patellar muscles. When discomfort is more distal, other entrapment points should be considered, such as the anterior tibial artery. This article reports the case of a patient with intermittent claudication in both feet due to extrinsic compression of the anterior tibial artery bilaterally by the extensor retinaculum of the ankle, diagnosed by vascular ultrasonography and angiotomography during plantar flexion maneuvers. The patient was treated surgically, resulting in improvement of clinical symptoms.

Keywords: anterior tibial artery; intermittent claudication; arterial compression

Resumo

Os aprisionamentos vasculares são raros. Nos membros inferiores, geralmente são assintomáticos, mas podem causar claudicação intermitente atípica em indivíduos jovens sem fatores de risco para aterosclerose ou doenças inflamatórias. O vaso mais frequentemente acometido é a artéria poplítea, causando a síndrome do aprisionamento da artéria poplítea (SAAP), com sintomas na região dos músculos infrapatelares. Quando o desconforto ao esforço é mais distal, deve-se pensar em outros locais de aprisionamento arterial, como a artéria tibial anterior. Neste trabalho, é relatado o caso de um paciente com claudicação intermitente nos pés devido ao aprisionamento da artéria tibial anterior (AATA) bilateral, causada pelo retináculo dos músculos extensores e diagnosticada pela ultrassonografia vascular e angiotomografia durante flexão plantar. O paciente foi tratado cirurgicamente, evoluindo com melhora dos sintomas clínicos.

Palavras-chave: artéria tibial anterior; claudicação intermitente; compressão arterial.

How to cite: Engelhorn ALDV, Miranda ALC, Biglia LE, et al. Bilateral anterior tibial artery entrapment by the ankle extensor retinaculum: case report. J Vasc Bras. 2020;19:e20200026. <https://doi.org/10.1590/1677-5449.200026>

¹ Pontifícia Universidade Católica do Paraná – PUC-PR, Curitiba, PR, Brasil.

² Angiolab, Curitiba, PR, Brasil.

³ Hospital Marcelino Champagnat – HMC, Curitiba, PR, Brasil.

Financial support: None.

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

Submitted: March 15, 2020. Accepted: June 17, 2020.

The study was carried out at Hospital Marcelino Champagnat (HMC), Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR), Curitiba, PR, Brazil.

INTRODUCTION

Lower limb claudication is classically defined as a difficulty walking and generally affects elderly people who have chronic obstructive vascular disease or degenerative orthopedic diseases. When it affects young people with no obvious vascular or musculotendinous disease detectable in their clinical history or by physical examination, it is considered atypical claudication (AC).¹ In these cases, arterial compressive phenomena should be suspected.

Vascular entrapment in the lower limbs can be a cause of AC in young people with no risk factors for atherosclerosis. Popliteal artery entrapment (PAA) is the most prevalent of these conditions, with an incidence in the range of 0.16 to 3.5%, has congenital or functional etiology, affects young people, primarily males, causes symptoms involving muscle groups below the knee, and is generally unilateral and asymptomatic.²⁻⁵ However, when the site of effort-related discomfort is more distal, located in the dorsal or plantar part of the foot, we must consider other sites of arterial compression, lower than those typically found in PAA. In these situations, anterior tibial artery entrapment (ATAE) should be suspected. Anterior tibial artery entrapment is a rarely-diagnosed condition.

The objective of this study is to report a case of atypical claudication in a young patient whose vascular arterial physical examination was normal at rest and who was diagnosed by ultrasound with bilateral ATAЕ caused by the extensor retinaculum of the ankle.

CASE REPORT

The patient was a 34-year-old male, non-smoker, who worked as a motorcycle delivery rider, and usually practiced martial arts fighting. He complained of strong intensity pains in the left ankle and foot, with onset 7 years previously, and with progressive and limiting characteristics. Over time, he began to suffer pain in the right foot as well, but rarely simultaneously. He described the pain as extreme tiredness, similar to cramps, triggered by physical effort, such as martial arts and riding his motorcycle. Conversely, he was able to walk long distances without feeling any pain. To begin with, he was able to achieve relief by ceasing the activity or taking over-the-counter analgesic medications. He had not noticed any other symptoms, such as changes to the temperature or color of the limbs.

Over time, the condition compromised the patient's quality of life, affecting his personal, professional, and social life. He stopped participating in sports and no longer rode his motorcycle, because it caused him great pain. He consulted with several physicians during this period, without achieving a definitive diagnosis.

He was instructed to consult with a vascular surgeon, who requested a vascular arterial ultrasonography (VAUS) study of the lower limbs. Bilateral arterial USV examination evaluated the common femoral, deep femoral, femoral, popliteal, anterior tibial, posterior tibial and fibular, bilaterally. At rest, the examination was normal, with no anatomic or hemodynamic abnormalities. However, since this was a case of atypical claudication, the vascular ultrasound examiner performed maneuvers to test for PAA, which were normal, with no evidence of extrinsic compression of the popliteal artery during forced dorsiflexion and plantar flexion of the foot, bilaterally. Since the complaints were more distal, primarily in the foot, the examiner repeated the same maneuvers, but this time monitoring the distal anterior tibial artery. These tests revealed narrowing of the lumen of the distal anterior tibialis artery close to the ankle, causing focal increases in flow velocity and turbulence and occasionally total abolition of flow, during the forced plantar flexion maneuver bilaterally, raising a suspicion that the cause was extrinsic compression by the retinaculum of the ankle extensor muscles (Figure 1). To better elucidate the etiology, angiotomography with contrast of the lower limbs was ordered, with axial plane slices scanned using a multidetector helicoidal technique during intravenous injection of non-ionic iodinated contrast. Images were acquired with the feet at rest and in plantar flexion (the provocative maneuver).

In the images acquired at rest, the anterior and dorsal tibial arteries of the feet exhibited normal opacification and caliber. However, in the images acquired with the feet in plantar flexion, the anterior and dorsal tibial arteries of the feet exhibited abnormal caliber. On the right side, the anterior tibial artery exhibited moderate stenosis of the terminal 50 mm and was collapsed in the plane of the tibiotalar joint. Two collapsed segments were identified in the dorsal artery of the right foot. On the left side, arterial collapse was identified in the distal anterior tibial artery and the entire dorsal artery of the foot (Figures 2 and 3).

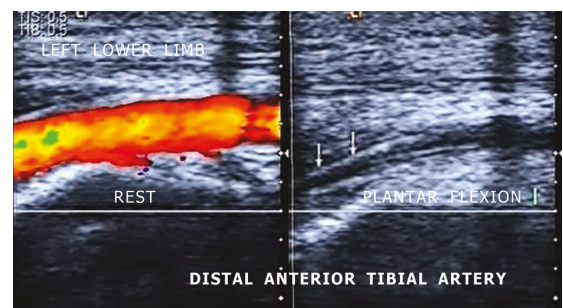


Figure 1. Arterial ultrasound of the distal anterior tibial artery showing artery compression during the plantar flexion maneuver.

Since the patient's complaints were limiting, with a considerable impact on his quality of life, the best approach to the case was surgical intervention with



Figure 2. Angiotomography of the lower limbs showing the anterior tibial artery patent at rest.

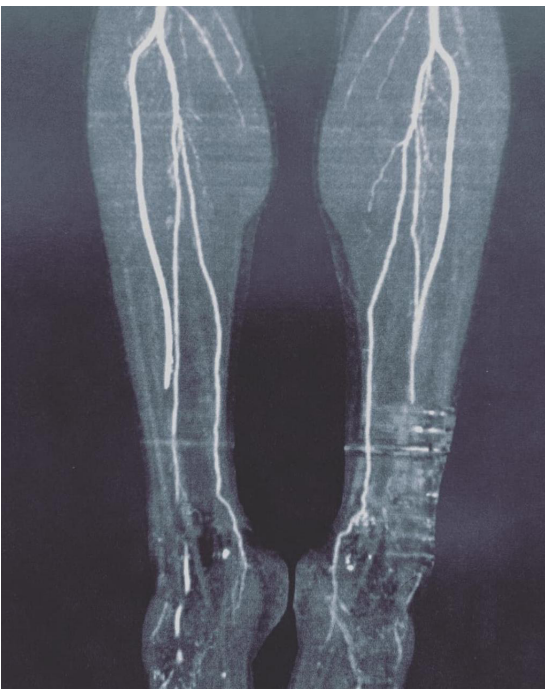


Figure 3. Angiotomography of the lower limbs showing compression of the tibial and dorsal arteries of the foot during the plantar flexion maneuver.

a mixed team including a vascular surgeon and an orthopedist. The patient underwent surgery on both lower limbs simultaneously, with an incision in the pre-tibial region of the distal third of the leg, dissection of the anterior tibial artery and release of the periarterial tissues, which exhibited considerable adherence and localized fibrosis. The ascending superficial fascia was released with partial release of the artery and the extensor retinaculum of the ankle was partially opened over the anterior tibial artery, liberating the arterial flow (secondary arterial angioplasty of the anterior tibialis – wide arterial pulses, with a wide pulse in the dorsalis pedis artery even with the foot in hyperextension).

The patient returned for follow-up 2 months after surgery, reporting improvement of symptoms. This case report was approved by the Research Ethics Committee at the Pontificia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR), under protocol number 166017.4.0000.0020.

DISCUSSION

The striated muscles of the lower limbs require a continuous supply of oxygen to maintain metabolism. When flow is insufficient to meet metabolic requirements during exercise (or effort) because of the increased muscular demand, the anaerobic mechanism of energy release is triggered, which is responsible for the muscle pain typical of intermittent claudication (IC). Typically, IC is triggered when people with vascular disease walk specific distances. Peripheral arterial occlusive disease is the most common cause of IC, but is a condition that affects older people and is not seen in active young people free from risk factors for atherosclerosis or inflammatory disease.

When a young person with no evidence of vascular or musculotendinous disease in clinical history or physical examination complains of pain during exercise, we have a case of atypical intermittent claudication (AIC).¹ This is characterized by feelings of discomfort triggered by certain specific movements during exercise or daily activities, with no evidence of clinical disease that could explain the complaint and which does not respond to standard treatment with rest or standard analgesics.

The characteristic clinical manifestation of popliteal artery entrapment syndrome (PAES) is pain in the foot or calf triggered by intense exercise. However, sometimes individuals may exhibit spastic claudication, paradoxically characterized by pain when walking and not during exercise of greater intensity (running).⁶ In these cases, compressive syndromes in the lower limbs should be investigated as a differential diagnosis.

Differential diagnosis for AIC with potential for surgical treatment includes: chronic compartment syndrome, medial tibial syndrome, and PAES. These conditions tend to affect high-performance athletes and football players.¹

A study reporting on 28 years of experience at the University of Wisconsin department of surgery identified compartment syndrome as the most common cause of AC, generally bilateral, caused by muscular hypertrophy or trauma, and manifesting with symptoms of paresthesia due to nerve compression, while medial tibial syndrome and functional entrapment of the popliteal artery are less frequent. The main characteristic of chronic medial tibial syndrome is bone pain, which may be accompanied by paresthesia and cramps of the distal flexor muscles of the lower third of the leg, but not in the foot, as in our patient. In functional entrapment syndrome, the most common symptoms are cramps in the proximal part of the calf and paresthesias in the plantar region which worsen when walking or running on slopes.¹ However, healthy individuals may also exhibit compression of the popliteal artery (functional entrapment) without exhibiting symptoms, including people who work out in gyms, performing strength exercises.⁷

A study by Almeida et al. conducted clinical and VAUS examinations of 21 athletes and 21 asymptomatic sedentary individuals, detecting 4.7% positional compression of the popliteal artery in the athletes and 9.5% in the sedentary group, showing that functional compression can occur in anyone, irrespective of physical activity levels.⁸

In the case described here, the patient complained of pains in the foot only, triggered by movements to change gear while riding a motorcycle and also while performing martial arts. It is extremely important that physicians suspect AC in young patients and remember compressive syndromes. While occlusion of the anterior tibial artery may be asymptomatic or cause few symptoms in patients with chronic arterial obstructive disease, due to the presence of collateral circulation, intermittent blockage flow in a normal artery is very symptomatic and involves a potential for endothelial injury and its consequences.

The angiosome corresponding to the anterior tibial artery is the anterior ankle and the dorsum of the foot, which are the sites that will feel pain if this artery's flow is stopped,⁹ as in the case described here. In chronic occlusions, presence of collateral circulation and integrity of arteries of the leg compensate for the loss of blood supply and so there may not be any symptoms.

Anatomically, the anterior tibial artery arises from the popliteal artery, below the popliteal muscle,

adjacent to the tendinous arches of the soleus muscle, which is a potential site of compression. It then passes through the interosseous membrane, through an oval osteofibrous space, to enter the anterior compartment. The anterior tibial artery runs along the interosseous membrane within the superior portion of the tibia, between the anterior tibialis muscles and the extensor hallucis longus.¹⁰ The path of the anterior tibial artery is relatively deep, following the lateral edge of the anterior tibialis muscle, along the anterior surface of the interosseous membrane, lateral to the long extensor muscle of the toe, the extensor hallucis longus.¹⁰ Miyamoto et al. describe a case of compression of the anterior tibial artery by the interosseous membrane, with improvement of symptoms after partial resection of the interosseous membrane, around the anterior tibial artery.¹¹

Along the lower part of its path only, the anterior tibial artery adheres directly to the tibia, becoming more superficial.¹⁰ A consequence of this anatomy, is that ATAE may be related to tibial fractures.¹² The anterior tibial artery continues as the dorsal artery of the foot after it passes the inferior extensor retinaculum of the ankle.¹⁰

Nerve compression syndrome, tarsal anterior syndrome (TAS), or anterior tarsal tunnel syndrome may all occur within the topography of the inferior extensor retinaculum of the ankle. In TAS, the symptoms are neurological, due to compression of the deep fibular nerve. Several different factors can cause TAS: traumas, fractures, subluxation, and edema.¹³ In the case described here, although the complaint described by the patient was pain in the ankles and primarily in the feet, he did not describe signs of paresthesia (deadening or tingling), but pains more similar to cramps or tiredness.

The initial imaging exam for diagnosis of compressive syndromes is VAUS,¹⁴ because it is a noninvasive examination that is cheap, reproducible and can be repeated during specific maneuvers when the disease is suspected. This vascular imaging exam is normal at rest, ruling out chronic obstructive arterial disease (whether atherosclerotic or inflammatory). However, complaints of pain triggered by specific movements indicate a need to extend the investigation, performing provocative maneuvers with direct real time monitoring of the artery being studied.

In the case described, compression of the anterior tibial artery was identified by VAUS in the most distal part. This is why suspicion was directed to extrinsic compression by the extensor retinaculum of the ankle as the causative factor. The diagnosis was made by VAUS with direct visualization of narrowing of the arterial lumen, causing focal increase in velocity,

turbulent flow and, finally, complete collapse of the artery, causing total occlusion during the provocative plantar flexion maneuver. On relaxation, flow initially returns in vasodilation in reaction to the mechanical ischemia, followed by normalization of flow.

This hypothesis was confirmed by the angiotomography examination and, later, during surgery. During the procedure, the extensor retinaculum of the ankle was partially opened to release the compressed artery. Total resection of the retinaculum is not an option because it plays a very important anatomic role in lateral stabilization of the ankle. Although anatomy is variable, it can be observed that the retinaculum has fibers arranged in parallel to the calcaneofibular ligament and that both reach their maximum length in flexion. The retinaculum therefore prevents lateral instability in flexion.¹⁵

In the case described here, the patient performed martial arts with frequent movements involving kicking hard surfaces, which, when repeated, could in theory cause fibrosis of the retinaculum, reducing the space available for the anterior tibial artery. During the angiotomography imaging exam, no anatomic variations, bony calluses, or musculotendinous anomalies were identified at rest.

There are no muscle groups in the part of the ankle in which the extensor retinaculum is located that could undergo hypertrophy and cause functional entrapment of the anterior tibial artery, such as seen in functional entrapment of the popliteal artery. In functional entrapment of the popliteal artery, there is hypertrophy of the gastrocnemius, soleus, and/or plantar muscles, with no identifiable anatomic abnormality.¹⁶

CONCLUSIONS

Anterior tibial artery entrapment is a unusual disease that demands active investigation for diagnosis. It is extremely important that physicians suspect this condition, enabling diagnosis and treatment. The ideal management aims to improve the patient's quality of life.

REFERENCES

1. Turnipseed WD. Clinical review of patients treated for atypical claudication: a 28-year experience. *J Vasc Surg.* 2004;40(1):79-85. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2004.02.034>. PMID:15218466.
2. Altinsoy HB, Alatas O, Khalil E, Kara KA, Okten CC, Dogan OF. A very rare cause of lower limb ischemia in young people: popliteal

- artery entrapment. *Open Cardiovasc Med J.* 2018;12(1):18-28. <http://dx.doi.org/10.2174/1874192401812010018>. PMID:29785211.
3. Bettega M, Szeliga A, Hagemann RP, Santos AL Fo, Mesquita N Jr. Síndrome do aprisionamento da artéria poplíteia: Relato de caso. *J Vasc Bras.* 2011;10(4):325-9. <http://dx.doi.org/10.1590/S1677-54492011000400013>.
4. Gourgiotis S, Aggelakas J, Salemis N, Elias C, Georgiou C. Diagnosis and surgical approach of popliteal artery entrapment syndrome: a retrospective study. *Vasc Health Risk Manag.* 2008;4(1):83-8. <http://dx.doi.org/10.2147/vhrm.2008.04.01.83>. PMID:18629362.
5. Turnipseed WD. Functional popliteal artery entrapment syndrome: a poorly understood and often missed diagnosis that is frequently mistreated. *J Vasc Surg.* 2009;49(5):1189-95. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2008.12.005>. PMID:19394547.
6. Almeida MJ, Yoshida WB, Melo NR. Síndrome do aprisionamento da artéria poplíteia. *J Vasc Bras.* 2003;2:211-9.
7. Lamônica A, Engelhorn CA, Balbino NB, Engelhorn AL. Identificação de manobras semiológicas positivas para a compressão arterial em indivíduos sintomáticos e assintomáticos que realizam regularmente musculação. *J Vasc Bras.* 2015;14:68-77.
8. Almeida MJ, Yoshida WB, Habberman D, Medeiros EM, Giannini M, Melo N. Extrinsic compression of popliteal artery in asymptomatic athlete and non-athlete individuals: a comparative study using color duplex sonography. *Int Angiol.* 2004;23(3):218-29. PMID:15765036.
9. Attinger CE, Evans KK, Bulan E, Blume P, Cooper P. Angiosomes of the foot and ankle and clinical implications for limb salvage: reconstruction, incisions, and revascularization. *Plast Reconstr Surg.* 2006;117(7, Suppl):261S-93S. <http://dx.doi.org/10.1097/01.prs.0000222582.84385.54>. PMID:16799395.
10. Mróz I, Kielczewski S, Pawlicki D, et al. Blood vessels of the shin - anterior tibial artery- anatomy and embryology - own studies and review of the literature. *Folia Med Cracov.* 2016;56(1):33-47. PMID:27513837.
11. Miyamoto M, Castro L, Marcusso GS, et al. Síndrome do aprisionamento da artéria tibial anterior: relato de caso. *J Vasc Bras.* 2018;17(2):165-9. <http://dx.doi.org/10.1590/1677-5449.010017>. PMID:30377429.
12. Tan ETL, Tan TJ, Poon KB. Entrapment of the deep peroneal nerve and anterior tibial vessels by a spiral tibial fracture causing partial non-union: a case report. *Skeletal Radiol.* 2016;45(4):551-4. <http://dx.doi.org/10.1007/s00256-015-2259-5>. PMID:26408316.
13. Logullo F, Ganino C, Lupidi F, Perozzi C, Di Bella P, Provinciali L. Anterior tarsal tunnel syndrome: a misunderstood and a misleading entrapment neuropathy. *Neurol Sci.* 2014;35(5):773-5. PMID:24337947.
14. Eliahou R, Sosna J, Bloom AI. Between a rock and a hard place: clinical and imaging features of vascular compression syndromes. *Radiographics.* 2012;32(1):E33-49. <http://dx.doi.org/10.1148/rg.321115011>. PMID:22236908.
15. Teixeira LF, Olney SJ. Anatomia funcional e biomecânica das articulações do tornozelo, subtalar e médio-társica. *Rev Fisioter.* 1997;4:50-65.
16. Shahi N, Arosemena M, Kwon J, Abai B, Salvatore D, DiMuzio P. Functional popliteal artery entrapment syndrome: a review of diagnosis and management. *Ann Vasc Surg.* 2019;59:259-67. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2018.12.105>. PMID:31028851.

Correspondence

Ana Luiza Dias Valiente Engelhorn
Pontifícia Universidade Católica do Paraná – PUC-PR
Rua Da Paz, 195, sala 2 - Centro
CEP 81020-430 - Curitiba (PR), Brasil
Tel.: +55 (41) 3362-0133
E-mail: ana.engelhorn@pucpr.br

Author information

ALDVE - MD, board certified in Angiologia, Sociedade Brasileira de Angiologia e de Cirurgia Vascul ar (SBACV); Involved in Ecografia Vascul ar com Doppler, SBACV; Adjunct professor of Angiologia, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR).
ALCM, LEB and RC - Medical students, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR).
SFPM - Medical student, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR); Member, Liga Acadêmica de Angiologia e Cirurgia Vascul ar (LIANGIO), Hospital Santa Casa de Misericórdia de Curitiba.
MHA - Vascul ar and endovascular surgeon, Associação Médica Brasileira (AMB), Hospital Marcelino Champagnat (HMC).
CAE - MD, board certified in Angiologia and Cirurgia Vascul ar, Sociedade Brasileira de Angiologia e de Cirurgia Vascul ar (SBACV); Involved in Ecografia Vascul ar com Doppler; Full professor of Angiologia, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR).

Author contributions


Conception and design: ALDVE, CAE, MHA
Analysis and interpretation: ALDVE, CAE
Data collection: ALDVE, CAE, ALCM, LEB, RC, SFPM
Writing the article: ALDVE, CAE, ALCM, LEB, RC, SFPM
Critical revision of the article: ALDVE, CAE
Final approval of the article*: ALDVE, CAE, ALCM, LEB, RC, SFPM, MHA
Statistical analysis: N/A.
Overall responsibility: ALDVE, CAE

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



Síndrome do aprisionamento da artéria tibial anterior bilateral pelo retináculo extensor do tornozelo: relato de caso

Bilateral anterior tibial artery entrapment by the ankle extensor retinaculum: case report

Ana Luiza Dias Valiente Engelhorn^{1,2}, Anna Luiza Cauduro de Miranda¹, Luiz Eduardo Biglia¹, Rafaella Castilho¹, Sarah Folly Polonio Machado¹, Maurício Henrique Abrão³, Carlos Alberto Engelhorn^{1,2} 

Resumo

Os aprisionamentos vasculares são raros. Nos membros inferiores, geralmente são assintomáticos, mas podem causar claudicação intermitente atípica em indivíduos jovens sem fatores de risco para aterosclerose ou doenças inflamatórias. O vaso mais frequentemente acometido é a artéria poplítea, causando a síndrome do aprisionamento da artéria poplítea (SAAP), com sintomas na região dos músculos infrapatelares. Quando o desconforto ao esforço é mais distal, deve-se pensar em outros locais de aprisionamento arterial, como a artéria tibial anterior. Neste trabalho, é relatado o caso de um paciente com claudicação intermitente nos pés devido ao aprisionamento da artéria tibial anterior (AATA) bilateral, causado pelo retináculo dos músculos extensores e diagnosticado pela ultrassonografia vascular e angiotomografia durante flexão plantar. O paciente foi tratado cirurgicamente, evoluindo com melhora dos sintomas clínicos.

Palavras-chave: artéria tibial anterior; claudicação intermitente; compressão arterial.

Abstract

Vascular entrapment is rare. In the lower limbs it is generally asymptomatic, but may cause atypical intermittent claudication in young people without risk factors for atherosclerosis and inflammatory diseases. The most common type of compression involves the popliteal artery, causing symptoms in the region of the infra-patellar muscles. When discomfort is more distal, other entrapment points should be considered, such as the anterior tibial artery. This article reports the case of a patient with intermittent claudication in both feet due to extrinsic compression of the anterior tibial artery bilaterally by the extensor retinaculum of the ankle, diagnosed by vascular ultrasonography and angiotomography during plantar flexion maneuvers. The patient was treated surgically, resulting in improvement of clinical symptoms.

Keywords: anterior tibial artery; intermittent claudication; arterial compression.

Como citar: Engelhorn ALDV, Miranda ALC, Biglia LE, et al. Síndrome do aprisionamento da artéria tibial anterior bilateral pelo retináculo extensor do tornozelo: relato de caso. J Vasc Bras. 2020;19:e20200026. <https://doi.org/10.1590/1677-5449.200026>

¹ Pontifícia Universidade Católica do Paraná – PUC-PR, Curitiba, PR, Brasil.

² Angiolab, Curitiba, PR, Brasil.

³ Hospital Marcelino Champagnat – HMC, Curitiba, PR, Brasil.

Fonte de financiamento: Nenhuma.

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

Submetido em: Março 15, 2020. Aceito em: Junho 17, 2020.

O estudo foi realizado no Hospital Marcelino Champagnat (HMC), Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR), Curitiba, PR, Brasil.

■ INTRODUÇÃO

A claudicação em membros inferiores é classicamente definida como uma dificuldade em caminhar e geralmente afeta indivíduos idosos com doença vascular obstrutiva crônica ou doenças ortopédicas degenerativas. Quando acomete indivíduos jovens sem aparente doença vascular ou musculotendínea identificável na história clínica e exame físico, estamos diante de uma claudicação atípica (CA)¹.

O aprisionamento vascular nos membros inferiores pode ser causa de CA em indivíduos jovens sem fatores de risco para aterosclerose. O aprisionamento da artéria poplíteia (AAP) é a condição mais prevalente, com incidência entre 0,16 e 3,5%, de etiologia congênita ou funcional, acometendo pessoas jovens, principalmente do sexo masculino, e causando sintomas envolvendo grupos musculares infrapatelares, geralmente unilateral e assintomático²⁻⁵. No entanto, quando o local do desconforto ao esforço é mais distal, localizado na região dorsal ou plantar do pé, devemos pensar em outros locais de compressão arterial mais baixos do que os tipicamente encontrados no AAP. Nessas situações, o aprisionamento da artéria tibial anterior (AATA) deve ser lembrado. O AATA é uma condição pouco diagnosticada.

O objetivo deste trabalho foi relatar um caso de claudicação atípica em um paciente jovem, com exame físico vascular arterial normal ao repouso e com diagnóstico ultrassonográfico de AATA pelo retináculo extensor do tornozelo, bilateralmente.

■ RELATO DE CASO

O caso trata-se de um paciente masculino, 34 anos, não tabagista, que trabalha como motociclista fazendo entregas. Ele apresentava dor de forte intensidade localizada no tornozelo e pé esquerdo, com início há 7 anos e com característica progressiva e limitante. Na evolução, passou a apresentar dor também no pé direito, porém raramente eram simultâneas. A dor era descrita como um cansaço forte, semelhante a câimbra, desencadeada aos esforços físicos, como a prática de luta marcial e a condução da motocicleta. No entanto, podia andar longas distâncias sem sentir dor. No início, apresentava melhora com a parada da atividade e após o uso de medicação analgésica comum. Não percebeu outros sintomas associados, como mudança de temperatura e coloração dos membros.

No decorrer do tempo, o paciente teve sua qualidade de vida comprometida, afetando sua vida pessoal, profissional e social. Deixou de praticar esportes e parou de andar de motocicleta, porque causavam muita dor. Ele consultou diversos médicos nesse período até receber o diagnóstico definitivo.

Por orientação, procurou um cirurgião vascular, que solicitou uma ultrassonografia vascular (USV) arterial dos membros inferiores. O exame de USV arterial dos membros inferiores avaliou as artérias femoral comum, femoral profunda e femoral e, bilateralmente, as artérias poplíteia, tibial anterior, tibial posterior e fibular. O exame ao repouso era normal, sem alterações anatômicas ou hemodinâmicas. Contudo, por se tratar de um caso de claudicação atípica, o ultrassonografista vascular realizou manobras para pesquisa do AAP, que foi normal, não havendo evidência de compressão extrínseca sobre a artéria poplíteia durante as manobras de dorsiflexão e flexão plantar forçada do pé, bilateralmente. Como as queixas eram mais distais, principalmente no pé, optou-se por realizar as mesmas manobras, porém com a monitorização da artéria tibial anterior distal. Foi, então, identificado estreitamento do lúmen da artéria tibial anterior distal próximo ao tornozelo, causando aumento focal de velocidade e turbilhonamento de fluxo e ocasional desaparecimento total do fluxo, durante a manobra de flexão plantar forçada do pé bilateralmente, levantando a suspeita de ser causado por compressão extrínseca pelo retináculo dos músculos extensores do tornozelo (Figura 1). Para melhor elucidar a etiologia, foi solicitada uma angiotomografia com contraste dos membros inferiores cujos cortes foram obtidos no plano axial, com técnica helicoidal por multidetectores, durante a injeção endovenosa de contraste iodado não-iônico. Foram adquiridas imagens com os pés em repouso e em flexão plantar (manobra provocativa).

Nas imagens obtidas em repouso, as artérias tibiais anteriores e dorsais dos pés apresentaram calibre e opacificação normais. Já nas imagens com os pés em flexão plantar, as artérias tibiais anteriores e dorsais dos pés apresentaram alteração no calibre. Do lado direito, a artéria tibial anterior apresentou estenose moderada em seus 50 mm terminais e colabamento no plano articular tíbio-talar. Na artéria dorsal do pé direito, foram identificados dois segmentos de

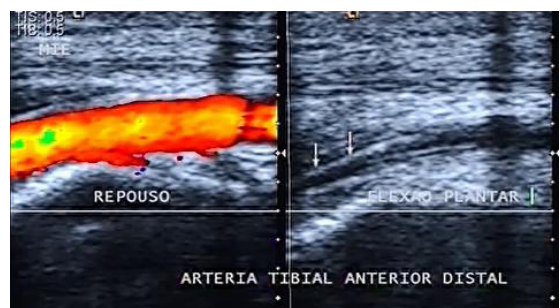


Figura 1. Ultrassonografia vascular da artéria tibial anterior distal mostrando compressão da artéria à manobra de flexão plantar.

colapso arterial. Do lado esquerdo, foi identificado colapso na artéria tibial anterior distal e em toda a artéria dorsal do pé (Figuras 2 e 3).



Figura 2. Angiotomografia de membros inferiores mostrando perviedade de artéria tibial anterior ao repouso.

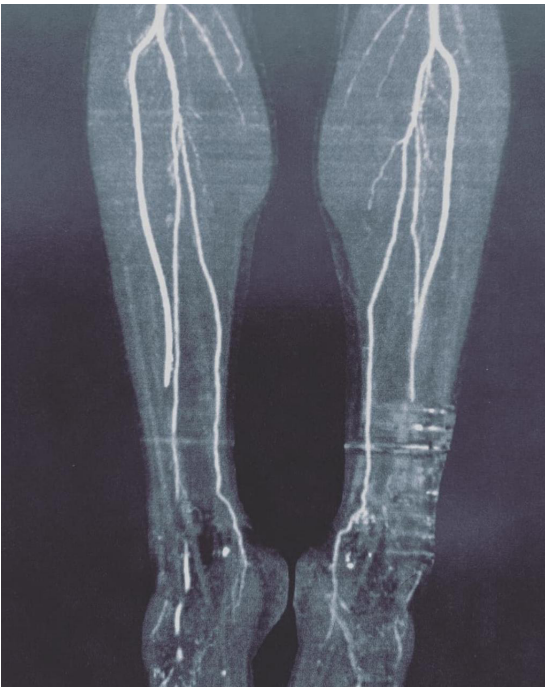


Figura 3. Angiotomografia de membros inferiores mostrando compressão das artérias tibiais e dorsais do pé durante a manobra de flexão plantar.

Como as queixas eram limitantes, com grande impacto sobre a qualidade de vida do paciente, foi optado por intervenção cirúrgica com equipe mista de cirurgião vascular e ortopedista. O paciente foi submetido à cirurgia em ambos os membros inferiores simultaneamente, com incisão em terço distal da perna em região pré-tibial, dissecação da artéria tibial anterior e liberação do tecido periarterial, que apresentava muita aderência e fibrose local. Foram realizadas liberação de fáscia pré-musculatura ascendente com liberação parcial da artéria e abertura de retináculo extensor do tornozelo parcialmente sobre a artéria tibial anterior, com liberação de fluxo arterial (angioplastia arterial de tibial anterior secundária – pulso arterial amplo, com pulso em artéria pediosa amplo, mesmo na hiperextensão do pé).

O paciente retornou após 2 meses da cirurgia com melhora dos sintomas. O relato deste caso foi aprovado pelo parecer do CEP da Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR), sob número 166017.4.0000.0020.

DISCUSSÃO

Os músculos estriados dos membros inferiores necessitam de aporte contínuo de oxigênio para manter o metabolismo. Quando o fluxo se torna inadequado para suprir as necessidades metabólicas durante o exercício (ou esforço) diante da demanda muscular aumentada, é utilizado o mecanismo anaeróbio para obtenção de energia, o qual é responsável pela dor muscular típica da claudicação intermitente (CI). A CI é tipicamente desencadeada durante a marcha a distâncias específicas na presença de doença vascular. A doença arterial obstrutiva periférica é a principal causa de CI, porém é uma condição que envolve pessoas idosas e não é encontrada em indivíduos jovens ativos, sem fatores de risco para aterosclerose ou doença inflamatória.

Quando indivíduos jovens sem aparente doença vascular ou musculotendínea identificável na história clínica e exame físico apresentam queixas de dor ao exercício, estamos diante de uma claudicação intermitente atípica (CIA)¹. A CIA se caracteriza por sensação de desconforto desencadeado a certos movimentos específicos durante um exercício ou atividade cotidiana, sem evidência de doença clínica que justifique as queixas e que não responde ao tratamento padrão com repouso ou analgésicos comuns.

A manifestação clínica característica da síndrome do aprisionamento da artéria poplítea (SAAP) é dor no pé ou panturrilha desencadeada por exercícios intensos. Contudo, eventualmente os indivíduos podem apresentar claudicação espástica, caracterizada paradoxalmente pela dor ao deambular e não durante exercícios de maior intensidade (corrida)⁶.

Entre os diagnósticos diferenciais da CIA que têm potencial tratamento cirúrgico, estão: síndrome compartimental crônica, síndrome medial tibial e SAAP. São condições que geralmente acometem atletas de alta performance e jogadores de futebol¹.

Em um estudo de 28 anos de experiência no departamento de cirurgia da Universidade de Wisconsin, é descrito que a síndrome compartimental é a causa mais comum de CA, geralmente bilateral, causada por hipertrofia muscular ou trauma, manifestando-se com sintomas parestésicos por compressão do nervo, enquanto a síndrome medial tibial e o aprisionamento funcional da artéria poplítea são os menos frequentes. O que caracteriza a síndrome medial tibial crônica é a dor óssea, podendo coexistir com parestesia e câimbra dos músculos flexores distais no terço inferior da perna e não no pé, como no nosso paciente. Já na síndrome do aprisionamento funcional, os sintomas mais comuns são câimbras na região proximal da panturrilha e parestesias na região plantar que pioram ao caminhar ou correr em declive¹. No entanto, indivíduos normais podem apresentar compressão da artéria poplítea (aprisionamento funcional) sem a presença de sintomas, inclusive em frequentadores de academia que realizam exercícios regulares de musculação⁷.

Um estudo realizado por Almeida et al., que avaliou clinicamente e pela USV 21 atletas e 21 indivíduos sedentários assintomáticos em ambos os grupos, detectou em 4,7% dos atletas e em 9,5% do grupo dos sedentários compressão posicional da artéria poplítea, demonstrando que a compressão funcional pode ocorrer em qualquer indivíduo, independentemente da atividade física⁸.

No caso relatado, o paciente apresentava queixas de dor apenas no pé, desencadeada durante o movimento de mudar as marchas ao pilotar uma moto e ao praticar luta marcial. É de extrema importância que os médicos ao suspeitem de CA em indivíduos jovens e que lembrem das síndromes compressivas. Enquanto a oclusão da artéria tibial anterior pode passar assintomática ou pouco sintomática em pacientes com doença arterial obstrutiva crônica, devido à presença de circulação colateral, a interrupção intermitente do fluxo de uma artéria normal é muito sintomática, além do potencial de lesão endotelial e suas consequências.

O angiossoma correspondente à artéria tibial anterior é a região do tornozelo anterior e dorso do pé, local que irá apresentar dor quando há comprometimento do fluxo dessa artéria⁹, como no caso descrito. Nas oclusões crônicas, a presença de circulação colateral e a integridade das outras artérias da perna compensam o aporte sanguíneo, podendo não apresentar sintomas.

Anatomicamente, a artéria tibial anterior origina-se da artéria poplítea, abaixo do músculo poplíteo, adjacente aos arcos tendíneos do músculo sóleo, sendo um local potencial de compressão. Então, ela passa entre a membrana interóssea, por um espaço oval osteofibroso, para entrar no compartimento anterior. Na porção superior da tibia, entre os músculos tibial anterior e extensor longo do hálux, a artéria tibial anterior percorre sobre a membrana interóssea¹⁰. Durante o seu curso, a artéria tibial anterior é relativamente profunda e segue a borda lateral do músculo tibial anterior, sobre a superfície anterior da membrana interóssea, lateralmente ao músculo extensor longo dos dedos e abaixo, o extensor longo do hálux¹⁰. Miyamoto et al. descrevem um caso de compressão da artéria tibial anterior pela membrana interóssea, com melhora dos sintomas após ressecção parcial da membrana interóssea, ao redor da artéria tibial anterior¹¹.

Somente na parte inferior do curso da artéria tibial anterior, ela adere diretamente à tibia, tornando-se mais superficial¹⁰. Consequente a essa anatomia, o AATA pode estar relacionado às fraturas de tibia¹². Ao passar pelo retináculo extensor inferior do tornozelo, a artéria tibial anterior continua como artéria dorsal do pé¹⁰.

Na topografia do retináculo extensor inferior do tornozelo, pode ocorrer uma síndrome compressiva nervosa, a síndrome tarsal anterior (STA) ou síndrome do túnel do tarso anterior. Na STA, os sintomas são neurológicos por compressão do nervo fibular profundo. Vários fatores podem causar a STA: traumas, fraturas, subluxação e edema¹³. No caso descrito, embora a queixa de dor referida pelo paciente fosse nos tornozelos e principalmente nos pés, ele não descreveu como sensações parestésicas (amortecimento ou formigamento), mas sim como dor mais semelhante a câimbras e cansaço.

O exame de imagem inicial para o diagnóstico das síndromes compressivas é a USV¹⁴, pois é um exame não invasivo, barato, reprodutível e pode ser repetido e realizado durante manobras específicas quando a doença é suspeitada. O exame de imagem vascular ao repouso é normal, afastando doença arterial obstrutiva crônica (aterosclerótica ou inflamatória). No entanto, as queixas de dor desencadeada por movimento específico levam à necessidade de prosseguir a investigação, passando para a realização das manobras provocativas com monitorização direta e em tempo real da artéria que está sendo estudada.

No caso relatado, a compressão da artéria tibial anterior identificada pela USV era na porção mais distal. Por essa razão, suspeitou-se de compressão

extrínseca pelo retináculo extensor do tornozelo como fator causal. O diagnóstico foi feito pela USV com a visualização direta do estreitamento do lúmen arterial, causando aumento focal de velocidade, turbilhonamento do fluxo e, finalmente, o colapso completo da artéria, causando oclusão total durante a manobra provocativa de flexão plantar. Com o relaxamento, o fluxo retorna inicialmente em vasodilatação reativa à isquemia mecânica e há posterior normalização do fluxo.

Essa hipótese foi confirmada pelo exame de angiotomografia e posteriormente corroborada no ato cirúrgico. Durante o procedimento, foi realizada abertura parcial do retináculo extensor do tornozelo para liberação da artéria comprimida. A ressecção total do retináculo não é viável, uma vez que apresenta grande importância anatômica na estabilização lateral do tornozelo. Apesar de ter uma anatomia variável, observa-se que o retináculo apresenta fibras localizadas paralelamente ao ligamento calcâneo fibular e que ambos atingem um comprimento máximo na posição de flexão. Portanto, o retináculo tem a função de deter a instabilidade lateral na posição de flexão¹⁵.

No caso descrito, o paciente praticava artes marciais com frequentes movimentos que exigiam chutes em superfícies firmes, que, de forma repetida, poderiam, em tese, gerar fibrose do retináculo, diminuindo o espaço de passagem da artéria tibial anterior. Durante o exame de imagem de angiotomografia, não foram identificadas variações anatômicas, calos ósseos ou anomalias musculotendíneas ao repouso.

Na região do tornozelo em que se localiza o retináculo extensor do tornozelo, não há grupos musculares passíveis de hipertrofia que possam levar a um aprisionamento funcional da artéria tibial anterior, como aquele encontrado no aprisionamento funcional da artéria poplíteia (AFAP). No AFAP, observa-se hipertrofia dos músculos gastrocnêmico, sóleo e/ou plantar, sem anormalidade anatômica identificável¹⁶.

CONCLUSÃO

O AATA é uma doença pouco comum que requer busca ativa para o diagnóstico. É de extrema importância que os médicos suspeitem dessa condição, viabilizando, assim, o seu diagnóstico e tratamento. A melhor conduta tem por objetivo melhorar a qualidade de vida do paciente portador da síndrome.

REFERÊNCIAS

- Turnipseed WD. Clinical review of patients treated for atypical claudication: a 28-year experience. *J Vasc Surg.* 2004;40(1):79-85. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2004.02.034>. PMID:15218466.
- Altinsoy HB, Alatas O, Khalil E, Kara KA, Okten CC, Dogan OF. A very rare cause of lower limb ischemia in young people: popliteal artery entrapment. *Open Cardiovasc Med J.* 2018;12(1):18-28. <http://dx.doi.org/10.2174/1874192401812010018>. PMID:29785211.
- Bettega M, Szeliga A, Hagemann RP, Santos AL Fo, Mesquita N Jr. Síndrome do aprisionamento da artéria poplíteia: Relato de caso. *J Vasc Bras.* 2011;10(4):325-9. <http://dx.doi.org/10.1590/S1677-54492011000400013>.
- Gourgiotis S, Aggelakas J, Salemis N, Elias C, Georgiou C. Diagnosis and surgical approach of popliteal artery entrapment syndrome: a retrospective study. *Vasc Health Risk Manag.* 2008;4(1):83-8. <http://dx.doi.org/10.2147/vhrm.2008.04.01.83>. PMID:18629362.
- Turnipseed WD. Functional popliteal artery entrapment syndrome: a poorly understood and often missed diagnosis that is frequently mistreated. *J Vasc Surg.* 2009;49(5):1189-95. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jvs.2008.12.005>. PMID:19394547.
- Almeida MJ, Yoshida WB, Melo NR. Síndrome do aprisionamento da artéria poplíteia. *J Vasc Bras.* 2003;2:211-9.
- Lamônica A, Engelhorn CA, Balbino NB, Engelhorn AL. Identificação de manobras semiológicas positivas para a compressão arterial em indivíduos sintomáticos e assintomáticos que realizam regularmente musculação. *J Vasc Bras.* 2015;14:68-77.
- Almeida MJ, Yoshida WB, Habberman D, Medeiros EM, Giannini M, Melo N. Extrinsic compression of popliteal artery in asymptomatic athlete and non-athlete individuals: a comparative study using color duplex sonography. *Int Angiol.* 2004;23(3):218-29. PMID:15765036.
- Attinger CE, Evans KK, Bulan E, Blume P, Cooper P. Angiosomes of the foot and ankle and clinical implications for limb salvage: reconstruction, incisions, and revascularization. *Plast Reconstr Surg.* 2006;117(7, Suppl):2615-93S. <http://dx.doi.org/10.1097/01.prs.0000222582.84385.54>. PMID:16799395.
- Mról I, Kielczewski S, Pawlicki D, et al. Blood vessels of the shin - anterior tibial artery- anatomy and embryology - own studies and review of the literature. *Folia Med Cracov.* 2016;56(1):33-47. PMID:27513837.
- Miyamoto M, Castro L, Marcusso GS, et al. Síndrome do aprisionamento da artéria tibial anterior: relato de caso. *J Vasc Bras.* 2018;17(2):165-9. <http://dx.doi.org/10.1590/1677-5449.010017>. PMID:30377429.
- Tan ETL, Tan TJ, Poon KB. Entrapment of the deep peroneal nerve and anterior tibial vessels by a spiral tibial fracture causing partial non-union: a case report. *Skeletal Radiol.* 2016;45(4):551-4. <http://dx.doi.org/10.1007/s00256-015-2259-5>. PMID:26408316.
- Logullo F, Ganino C, Lupidi F, Perozzi C, Di Bella P, Provinciali L. Anterior tarsal tunnel syndrome: a misunderstood and a misleading entrapment neuropathy. *Neurol Sci.* 2014;35(5):773-5. PMID:24337947.
- Eliahou R, Sosna J, Bloom AI. Between a rock and a hard place: clinical and imaging features of vascular compression syndromes. *Radiographics.* 2012;32(1):E33-49. <http://dx.doi.org/10.1148/rg.321115011>. PMID:22236908.
- Teixeira LF, Olney SJ. Anatomia funcional e biomecânica das articulações do tornozelo, subtalar e médio-társica. *Rev Fisioter.* 1997;4:50-65.
- Shahi N, Arosemena M, Kwon J, Abai B, Salvatore D, DiMuzio P. Functional popliteal artery entrapment syndrome: a review of diagnosis and management. *Ann Vasc Surg.* 2019;59:259-67. <http://dx.doi.org/10.1016/j.avsg.2018.12.105>. PMID:31028851.

Correspondência

Ana Luiza Dias Valiente Engelhorn
Pontifícia Universidade Católica do Paraná – PUC-PR
Rua Da Paz, 195, sala 2 - Centro
CEP 81020-430 - Curitiba (PR), Brasil
Tel.: (41) 3362-0133
E-mail: ana.engelhorn@pucpr.br

Informações sobre os autores

ALDVE - Médica especialista em Angiologia, Sociedade Brasileira de Angiologia e de Cirurgia Vascular (SBACV); Atuação na área de Ecografia Vascular com Doppler, SBACV; Professora adjunta de Angiologia, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR).

ALCM, LEB e RC - Acadêmicos, Curso de Medicina, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR).

SFPM - Acadêmica, Curso de medicina, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR); Integrante da Liga Acadêmica de Angiologia e Cirurgia Vascular (LIANGIO), Hospital Santa Casa de Misericórdia de Curitiba.

MHA - Cirurgião vascular e endovascular, Associação Médica Brasileira (AMB), Hospital Marcelino Champagnat (HMC).

CAE - Médico especialista em Angiologia e Cirurgia Vascular, Sociedade Brasileira de Angiologia e de Cirurgia Vascular (SBACV); Atuação na área de Ecografia Vascular com Doppler; Professor titular de Angiologia, Pontifícia Universidade Católica do Paraná (PUC-PR).

Contribuições dos autores

Concepção e desenho do estudo: ALDVE, CAE, MHA

Análise e interpretação dos dados: ALDVE, CAE

Coleta de dados: ALDVE, CAE, ALCM, LEB, RC, SFPM

Redação do artigo: ALDVE, CAE, ALCM, LEB, RC, SFPM

Revisão crítica do texto: ALDVE, CAE

Aprovação final do artigo*: ALDVE, CAE, ALCM, LEB, RC, SFPM, MHA

Análise estatística: N/A.

Responsabilidade geral pelo estudo: ALDVE, CAE

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