

## Artéria lusória: causa não usual de disfagia – relato de caso

### Arteria lusoria: unusual cause of dysphagia – case report

EDUARDO BARREIRA ROSO,<sup>1</sup> JOSÉ WELLINGTON BARROS,<sup>2</sup> ADÉRCIO PEREIRA,<sup>3</sup> VLADIMIR GOLDSTEIN DE PAULA LOPES,<sup>4</sup> OTACÍLIO ALBUQUERQUE,<sup>5</sup> OLIVAL CIRILO LUCENA DA FONSECA NETO<sup>6</sup>

#### RESUMO

A artéria lusória é a anormalidade anatômica mais comum do arco aórtico e se configura como uma artéria subclávia direita de localização aberrante. Apesar de comumente se apresentar de forma assintomática, esta artéria pode comprimir o esôfago e causar disfagia na idade adulta. Os autores relatam o caso de uma paciente de 26 anos, do sexo feminino, que apresentava disfagia para ingestão de sólidos e líquidos, diagnosticada como portadora de artéria lusória e tronco bicarotídeo. O diagnóstico foi firmado com o auxílio de uma arteriografia. Foi indicada então a correção cirúrgica por técnica aberta, com a paciente recebendo alta sete dias após o ato operatório. Por ser uma entidade rara e não muito descrita na literatura, ainda não se pode afirmar qual o melhor método para a correção dessa anomalia, visto que há várias possibilidades envolvendo técnica aberta, percutânea endovascular e também híbrida.

**Unitermos:** Artéria Lusória, Disfagia Lusória, Tronco Bicarotídeo, Cirurgia Vascular.

#### SUMMARY

The Arteria Lusoria is the most common anatomic abnormality of the aortic arch and consists of a right subclavian artery with aberrant location. Although more commonly present asymptotically, this artery can compress the esophagus and cause dysphagia in adults. The authors report a case of a 26-year-old patient, female, who presented dysphagia for solids and liquid intake which was diagnosed as having Arteria Lusoria and bicarotid artery trunk. The diagnosis was established with the assistance of an arteriography. Surgical correction was indicated by open technique and the patient received hospital discharge seven days after surgery. Because it is a rare entity and not much described in the literature, we cannot say what is the best approach to correct this anomaly, since there is a range of possibilities involving open technique, percutaneous endovascular and hybrid technique.

**Keywords:** Arteria Lusoria, Dysphagia Lusoria, Bicarotid Trunk, Vascular Surgery.

**1.** Residente do 3º ano de Cirurgia Vascular do Hospital da Restauração (HR) – SUS - Recife – PE. **2.** Cirurgião Vascular do Serviço de Cirurgia Vascular do HR – SUS - Recife – PE. **3.** Chefe do Serviço de Cirurgia Vascular do HR – SUS - Recife – PE. **4.** Acadêmico do 4º ano de Medicina da Faculdade de Ciências Médicas (FCM) – Universidade de Pernambuco (UPE). **5.** Cirurgião do Serviço de Cirurgia Geral e Trauma do HR – SUS, Recife – PE. **6.** Cirurgião do Serviço de Cirurgia Geral e Trauma do Hospital da Restauração-SUS. **Endereço para correspondência:** Olival Cirilo Lucena da Fonseca Neto - Rua Jacobina, 45 - apto.1002 - CEP 52011-180 – Graças – Recife - PE - **e-mail:** olivalneto@globo.com **Recebido em:** 16/04/2015. **Aprovado em:** 12/05/2015.

## INTRODUÇÃO

Disfagia lusória é um termo usado para descrever um tipo de dificuldade à deglutição que decorre de uma compressão extrínseca do esôfago por uma artéria subclávia direita (ASD) de origem anômala, sendo esta a variação anatômica mais comum do arco aórtico (incidência de 0,3% a 3% na população).<sup>1,2,3</sup>

Quando esta variação ocorre isoladamente, ao invés da anatomia usual, pode-se observar que o tronco braquiocéfálico está ausente e quatro artérias surgem do arco da aorta. São elas a artéria carótida comum direita, a artéria carótida comum esquerda, a artéria subclávia esquerda e uma ASD aberrante, que surge como último ramo do arco aórtico e cruza a linha média entre a coluna vertebral e o esôfago para chegar ao lado direito do corpo.<sup>1,3</sup>

Foi descrita inicialmente por Bayford, em 1794, ao fazer uma necropsia em uma mulher que apresentava perda de peso como consequência da compressão esofagiana. Foi então utilizado o termo lusório para descrever essa entidade, que provém do latim *lusus naturae* (aberração da natureza).<sup>4</sup>

Decorre de uma desordem no desenvolvimento embriológico e normalmente se comporta de forma assintomática, sendo na maioria das vezes encontrada apenas como um achado incidental de exames de imagem ou necropsia. Algumas outras anormalidades cardiovasculares também podem estar associadas, como o tronco bicarotídeo.<sup>3,4</sup>

Em 30% a 40% dos casos, a disfagia lusória poderá provocar sintomas tráqueo-esofágicos no paciente e estes, na maioria das vezes, se manifestam como disfagia.<sup>2,5</sup> A cirurgia está indicada em casos sintomáticos e para a prevenção de complicações aneurismáticas desta artéria.<sup>3</sup>

## RELATO DE CASO

Paciente do sexo feminino, 26 anos, natural de Sertânia e procedente de Garanhuns-PE, é admitida no Serviço de Cirurgia Geral do Hospital da Restauração (Recife-PE) referindo história de disfagia há 3 anos, inicialmente apenas para sólidos e evoluindo nos últimos 6 meses para líquidos.

Possuía uma história progressiva de hidrocefalia aos 2 meses de idade, com instalação de uma derivação ventrículo-peritoneal, que foi trocada em 2009. Negava outras comorbidades.

A hipótese diagnóstica inicial foi de um divertículo de Zenker, sendo então realizada uma endoscopia digestiva alta (EDA) que demonstrou ausência do divertículo, porém observou-se um abaulamento em parede póstero-lateral direita do esôfago. A paciente possuía uma Tomografia Computadorizada de tórax (TAC-T) realizada antes do internamento, em sua cidade de origem, a qual mostrava a origem anômala da artéria subclávia direita (ASD), com trajeto retroesofágico e retrotraqueal.

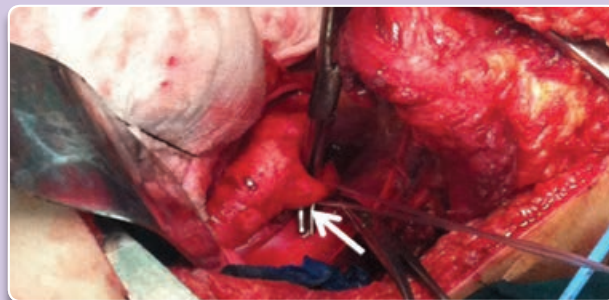
O caso foi então assumido pela equipe de cirurgia vascular, que solicitou uma arteriografia para complementação do estudo. O exame comprovou a anomalia do arco aórtico, demonstrando um tronco único para saída das artérias carótidas esquerda e direita, além da origem anômala da ASD, posterior à artéria subclávia esquerda.

**Figura 1. Tomografia computadorizada de tórax mostrando origem anômala da artéria subclávia direita.**

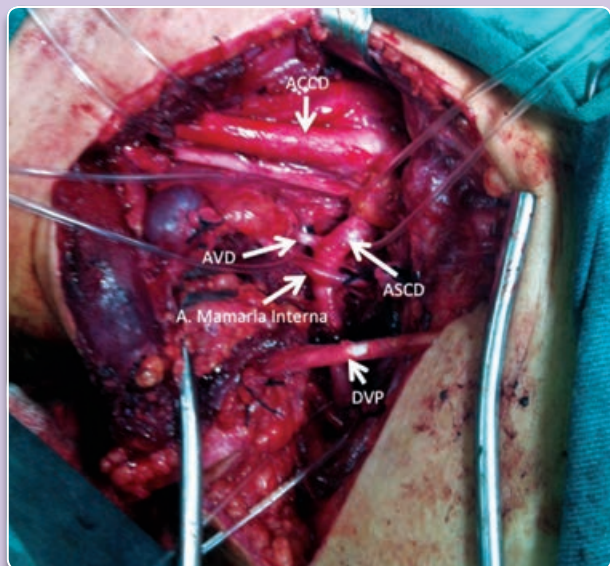


Foi então indicada a correção cirúrgica para a anomalia vascular. A primeira intervenção cirúrgica realizada consistiu de toracotomia anterolateral esquerda, sendo dissecada a origem da ASD na aorta, e a mesma ligada com uma pequena ressecção

**Figura 2. Origem da artéria subclávia direita na aorta descendente**



**Figura 3. Incisões unificadas, com detalhe da dissecação indicado pelas setas. DVP: Derivação ventrículo – peritoneal; ASCD: Artéria subclávia direita; ACCD: Artéria carótida comum direita; AVD: Artéria vertebral direita.**



proximal da artéria, retirando-se assim o trecho que comprimia o esôfago. Após a manobra, a paciente apresentava pulso radial reduzido em membro superior direito, porém membro aquecido e perfundido. Desse modo, optou-se por não realizar a revascularização do membro superior direito pela transposição carotídeo-subclávia.

No primeiro dia de pós-operatório, a paciente evoluiu com isquemia aguda do membro superior direito, sendo então realizada de imediato uma nova abordagem cirúrgica. Realizou-se uma revascularização do membro superior direito através de uma transposição carotídeo-subclávia por acesso supraclavicular direito e cervicotomia lateral direita. Paciente evoluiu com boa perfusão do membro superior direito após procedimento cirúrgico e recebeu alta hospitalar no sétimo dia pós-operatório.

Paciente retornou após 2 meses para seguimento, assintomática, sendo solicitada nova EDA que demonstrou ausência de abaulamentos em esôfago. Solicitou-se ainda nova TAC-T que demonstrou perviedade da transposição e ausência de compressões vasculares em esôfago.

## DISCUSSÃO

A artéria lusória normalmente decorre de uma anormalidade na embriogênese, ocorrendo devido a uma involução anor-

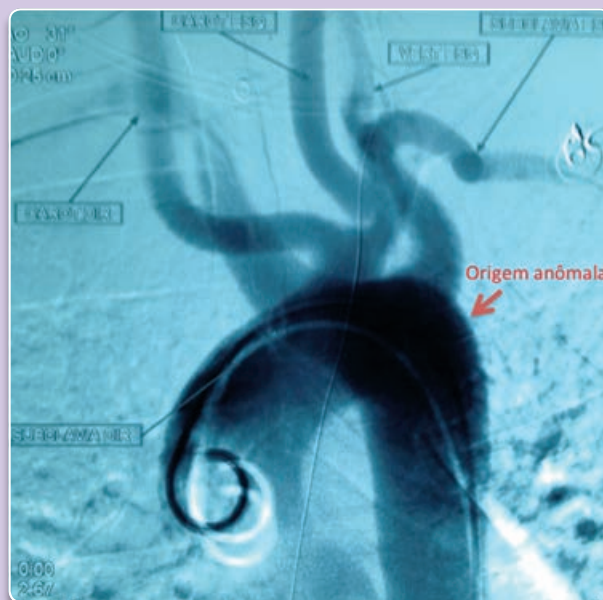
mal do quarto arco vascular e da aorta dorsal direita. A sétima artéria intersegmentar então persistiria e se tornaria a ASD definitiva.<sup>2,6</sup> O trajeto dessa artéria é quase sempre retroesofágico, como é relatado no presente caso, mas também pode passar anteriormente ao esôfago.<sup>2</sup>

A sua incidência média é de 52% no sexo feminino e 48% no sexo masculino e os sintomas, quando surgem, podem ocorrer em qualquer idade, principalmente nos extremos.<sup>1</sup> Na idade adulta, os sintomas acontecem por volta da quinta década de vida.<sup>7</sup> Ainda não é bem estabelecido, o que pode levar um portador de ASD aberrante apresentar sintomatologia, mas alguns fatores parecem ser determinantes. Dentre eles, pode-se destacar uma maior rigidez da parede esofágica que aumenta com a idade, aumento da rigidez da parede da artéria aberrante devido à aterosclerose e também a ocorrência concomitante da artéria lusória com o tronco bicarotídeo.<sup>1,6,7,8</sup>

Alguns autores admitem ainda que a coexistência do tronco bicarotídeo ou alguma outra anormalidade anatômica seria uma condição necessária para o desenvolvimento de sintomas.<sup>6,7</sup>

Assim, a paciente deste relato apresenta condições determinantes para o desenvolvimento de sintomas: a ocorrência conjunta de uma ASD anormal e tronco bicarotídeo. Por outro lado, apesar de poder acontecer em qualquer

**Figura 4. Arteriografia mostrando arco aórtico com anomalia, com detalhe da origem anômala da artéria subclávia direita.**



momento da vida, a sua idade não é típica para apresentação sintomatológica.

O padrão ouro para diagnóstico consiste de arteriografia convencional, mas outras opções menos invasivas já estão suplantando a mesma, como, por exemplo, o estudo angiogramográfico e a angiografia por ressonância magnética.<sup>8</sup>

No caso da paciente, o estudo angiográfico convencional foi realizado para estabelecer o diagnóstico. Outros exames também podem servir de auxílio, tais como a ultrassonografia com Doppler e a radiografia de tórax, apesar desse último possuir uma baixa sensibilidade (20%).<sup>1</sup>

O tratamento depende do perfil clínico do paciente e da intensidade dos sintomas apresentados, devendo-se avaliar seu estado nutricional. Nos casos de sintomatologia leve, pode-se recomendar mudanças comportamentais, orientando-se a fazer uma mastigação mais lenta e modificações na dieta. Caso a sintomatologia seja mais importante e não possa ser controlada pelas medidas previamente citadas, indica-se o tratamento cirúrgico.<sup>1,9</sup> No caso da paciente, a disfagia era de grande intensidade, inclusive para deglutir líquidos.

Gross, em 1946, foi o primeiro a realizar um procedimento cirúrgico na tentativa de corrigir uma ASD anômala em uma criança de 4 meses.<sup>1,2,4</sup> Dessa época em diante, diversas abordagens foram tentadas mas, devido à raridade desta entidade, é difícil chegar a um consenso sobre a melhor cirurgia. Muito ainda se discute acerca de qual a melhor abordagem, podendo ser por meio de cirurgia aberta, procedimentos percutâneos endovasculares ou ainda por técnica híbrida.<sup>1,7</sup> H. Jalaie *et al.*,<sup>3</sup> por outro lado, defende que a abordagem híbrida já é perfeitamente factível em muitos casos e, pouco a pouco, ela já está superando a técnica clássica aberta.

A técnica cirúrgica pode ser realizada com sucesso sem a necessidade de revascularização do membro superior direito quando o membro se encontra aquecido e perfundido, como foi descrito por Saeed *et al.*<sup>6</sup> Essa foi a conduta adotada pela equipe para a paciente, mas a mesma veio a evoluir com isquemia aguda do membro superior direito no dia seguinte ao ato operatório, sendo então feita uma reabordagem cirúrgica com a transposição carotídeo-subclávia, tendo uma boa evolução.

## CONCLUSÃO

A disfagia lusória deve ser lembrada no diagnóstico diferencial das doenças do esôfago e sua abordagem deverá ser multidisciplinar permitindo, assim, o melhor tratamento.

## REFERÊNCIAS

1. Polguy M, Chrzanowski L, Kasprzak JD, Stefanczyk L, Topol M, et al. The Aberrant Right Subclavian Artery (Arteria Lusoria): The Morphological and clinical Aspects of One of the Most Important Variations – A Systematic Study of 141 Reports. *The Scientific World Journal*. 2014;
2. Bennett AL, Cock C, Heddle R, Morcom RD. Dysphagia lusoria: a late onset presentation. *World Journal of Gastroenterology*. 2013; 19(15):2433-36
3. Jalaie H, Grommes J, Sailer A, Greiner A, Binnebose M, et al. Treatment of Symptomatic Aberrant Subclavian Arteries. *European Journal of Vascular and Endovascular Surgery*. 2014; 48(5): 521-6
4. Araújo G, Bizzi JWJ, Muller J, Cavazzola LT. “Dysphagia lusoria”- Right subclavian retroesophageal artery causing intermittent esophageal compression and eventual dysphagia – A case report and literature review. *International Journal of Surgery Case Reports*. 2015; 10: 32-4
5. Dandelooy J, Coveliers JPM, Schil PEYV, Anguille S. Dysphagia lusória. *CMAJ*. 2009;181(8): 498
6. Saeed G, Ganster G, Friedel N. Arteria Lusoria Aneurysm with Truncus Bicaroticus. *Texas Heart Institute Journal*. 2010; 37(5):602-7
7. Jalal H, Idrissi RE, Azghari A, Ouazzani L, Benzoubeir N, et al. Dysphagia lusoria: Report of a series of six cases. *Clinics and Research in Hepatology and Gastroenterology*. 2014; 38:e45-9
8. Fukuhara S, Patton B, Yun J, Bernik T. A novel method for the treatment of dysphagia lusória due to aberrant right subclavian artery. *Interactive Cardiovascular and thoracic surgery*. 2013; 16: 408-10
9. Hart PA, Kamath PS. Dysphagia Lusoria. *Mayo clinic procedures*. 2012. 87(13):e17.