

Adventiitsia tsüstiline haigus

Anastassia Naidenkova^{1,2}, Gert Vanakesa³, Priit Põder³

Adventiitsia tsüstiline haigus on harv veresoonte seina haigus, mis arteriaalse kladikatsiooniga patsientidel esineb sagedusega ligikaudu 1 : 1200. Haigestuvad keskealised inimesed, kellel puuduvad vaskulaarse haiguse kujunemist soodustavad riskitegurid. Haiguse diagnoosimise keerukus seisneb selles, et adventiitsia tsüstilise haiguse kliiniline pilt ei ole spetsiifiline ja võib ajas varieeruda, sõltudes lima kogusest tsüstides ja patsiendi füüsilisest aktiivsusest. Diagnoosi püstitamisel on võtmeroll piltidiagnostikal. Kõige tundlikumaks meetodiks peetakse magnetresonantstomograafiat. Diagnoosimise abimeetodid on ultraheliuuring ja kompuutertomograafia. Adventiitsia tsüstilise haiguse ravi on ainult kirurgiline ja erineb arterite oblitereeruva ateroskleroosi ravist, mis on enamasti medikamentoosne.

HAIGUSJUHT

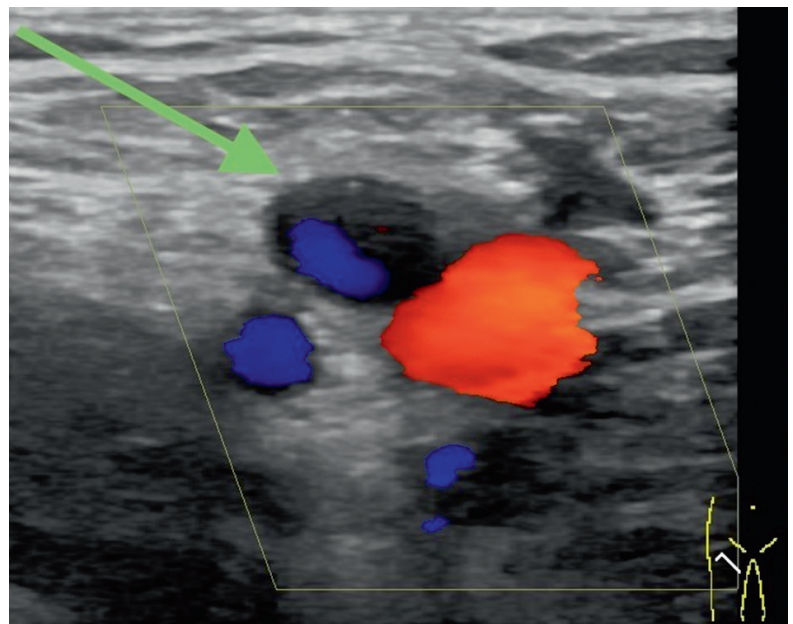
55aastane varem terve naispatsient pöördus erakorralise meditsiini osakonda koormusel tekkiva valu tõttu paremas alajäsemes. Vaevused olid tekkinud umbes aasta tagasi ning süvenenud viimase kolme nädala jooksul. Haiglasse pöördumise ajaks oli kladikatsioon 50 meetrit (vahemaa, mida suutis vaevusteta läbida). Füüsilisel koormusel tekkinud valuga kaasnes ka labajala tundlikkuse häire.

Objektiivselt oli patsient heas üldseisundis, alajäsemetes rahuolekus sensomotoorseid häireid ei olnud, olid mõlema labajala arterite pulsud palpeeritavad, turseid ei olnud. EKG näitas normofrekventset siinusrütmi, vererõhk oli normipiirides, vereanalüüsides oli D-dimeeride sisaldus kergelt suurenenud, muus osas vere laboratoorsete näitajate kõrvalekaldeid ei esinenud.

Patsient suunati ultraheliuuringule (UH-uuring), mis näitas ühisreiarteri, selle hargnemiskoha ning pindmise ja süvareiarteri algusosa valendiku osalist sulgust, mille oli põhjustanud hüpoehhogeenne lisastruktuur. Arteris oli verevool registreeritav seinapidiselt poolkuukujuliselt (vt pilt 1). UH-uuringu järel tehti diagnoosi täpsustamiseks kompuutertomograafiline uuring kontrastainega arteriaalses faasis kõhuaordist ja mõlema alajäseme arteritest. Uuring näitas ligikaudu 6 cm pikkusel alal parema ühisreiarteri, selle hargnemiskoha ning pindmise ja süvareiarteri algusosa liivakellakujulist lokaalset suboklusiooni, mille oli põhjustanud madala

tihedusega lisastruktuur. Muus osas arterite generaliseerunud haigusele viitavat leidu ei olnud, ateroskleroosi tunnused puudusid (vt pilt 2, 3, 4).

Patsient hospitaliseeriti veresoontekirurgia üksusesse parema alajäseme kroonilise isheemia ning ühisreiarteri preoklusiooni tõttu operatiivseks raviks. Operatsioonil leiti limaga täitunud tsüste ühisreiarteri, pindmise ja süvareiarteri algusosa seintes, mis ahendasid arterite valendikku. Trombe või aterosklerootilist arterite seina kahjustust ei esinenud.



Pilt 1. Doppleri ultraheliuuring näitab pindmise reiarteri suboklusiooni, mille on tekitanud hüpoehhogeenne lisastruktuur (nool).

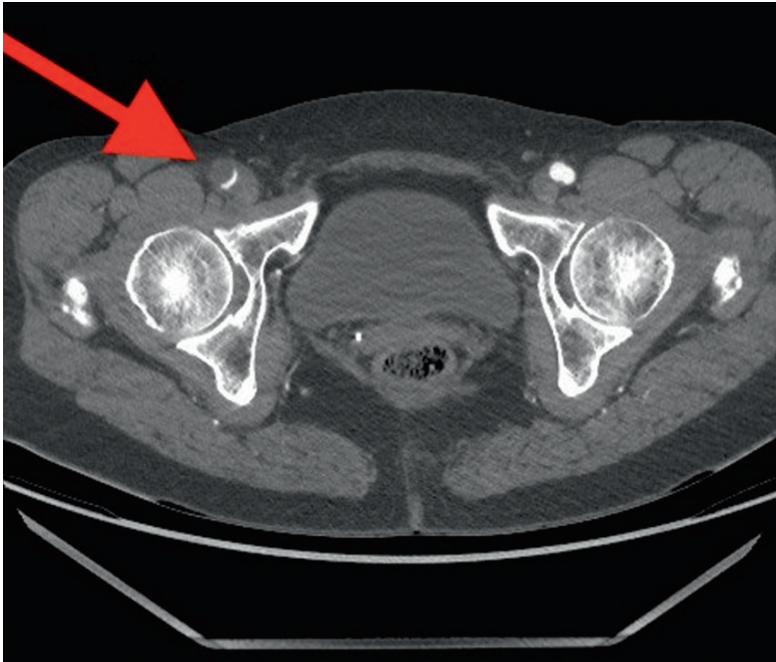
Eesti Arst 2018;
97(8):429–432

Saabunud toimetusse:
13.06.2018
Avaldamiseks vastu võetud:
23.07.2018
Avaldatud internetis:
27.09.2018

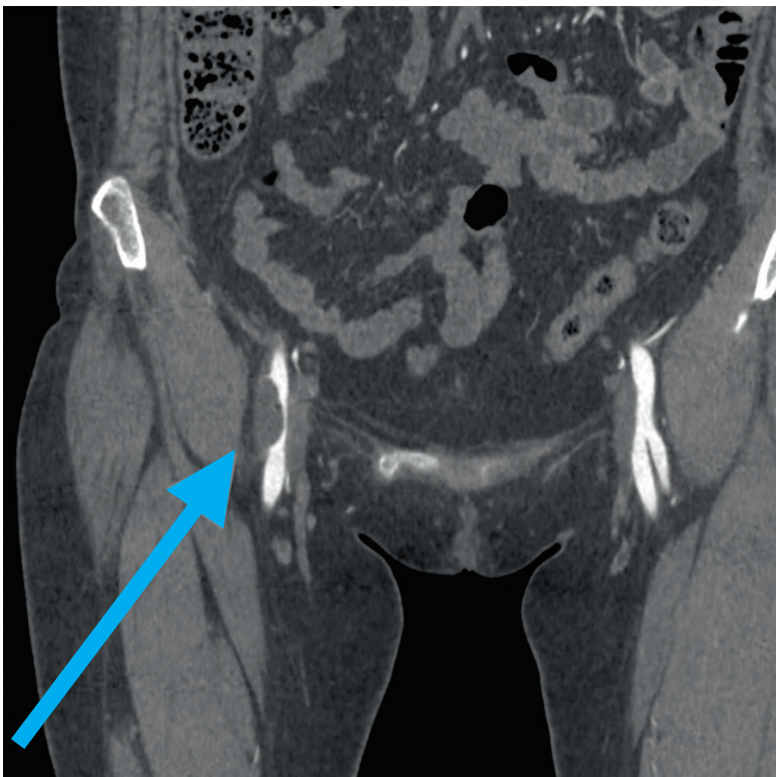
¹ Tartu Ülikooli radioloogia eriala arst-resident,
² Põhja-Eesti Regionaalhaigla radioloogiakeskus,
³ Põhja-Eesti Regionaalhaigla veresoontekirurgia üksus

Kirjavahetajaautor:
Gert Vanakesa
gert.vanakesa@
regionaalhaigla.ee

Võtmesõnad:
adventiitsia tsüstiline haigus, arteriaalne kladikatsioon, alajäseme valu



Pilt 2. Kompuutertomograafiline uuring arteriaalses faasis aksiaaltasapinnas. Parema ühisreiarteri valendiku suboklusioon, mille on tekitanud hüpodensne lisastruktuur (punane nool), valendik ahenenud poolkuukujuliselt.



Pilt 3. Kompuutertomograafiline uuring arteriaalses faasis koronaartasapinnas. Paremal ühisreiarter ahenenud liivakellakujuliselt (nool), viidates valendikuvälisele kompressioonile.

Operatsioonileiu alusel jäi kahtlus adventiitsia tsüstilise haiguse suhtes. Kahjustatud ühisreiarteri ja pindmise reiarteri segment resetseeriti kuni terve arteri seinapiirini ja asendati gofreeritud 6 mm diameetriga Maquet' lineaarse Dacroni-proteesiga. Süvareiarteris esineva haiguse ulatuse tõttu otsustati arter ligeerida. Resetseeritud arteri segment saadeti patohistoloogilisele uuringule. Uuringul leiti veresoone adventiitsia paksenemine, kohati olid jälgitavad piirdunud limaga täitunud fibrooskoega tsüstid ja limastunud alad. *Intima* ja *media* kihid olid samuti paksenenud. Morfoloogiline leid sobis adventiitsia tsüstilisele haigusele. Operatsioonijärgne periood kulges iseärasusteta ja patsient lubati koju kaks päeva pärast operatsiooni.

Järelkontrollil 3,5 aasta möödudes oli patsient oluliste kaebusteta. Alajäsemete pulsud olid palpeeritavad kubemes, põlveõndlas ja labajalal. Haiguse suure retsidiveerimisohu tõttu tehti kontrastainega magnetresonantstomograafiline uuring, mis näitas alajäsemete magistraalarterite normaalset kontrasteerumist, tsüstilisi struktuure piki veresoonte kulgu ei täheldatud. Patsient jäi veresoontekirurgi jälgimisele.

ARUTELU

Vaskulaarse kaudikatsiooni all kannatab kuni 5% üle 60aastasest meestest ja kuni 2,5% samas vanuses naistest (1). Adventiitsia tsüstiline haigus (ATH) on harva esinev veresoonte haigus, mille korral veresoone adventiitsia kihis moodustuvad limastüstid põhjustavad veresoone valendiku stenoosi või oklusiooni (2). Haiguse sümptomid sõltuvad sellest, milline veresoone on kahjustatud. Hinnanguliselt esineb ATH ühel 1200-st vaskulaarse kaudikatsiooniga haigest. Tüüpiline patsient on 40. eluaastates meesterahvas, kel ei ole ateroskleroosi riskitegureid.

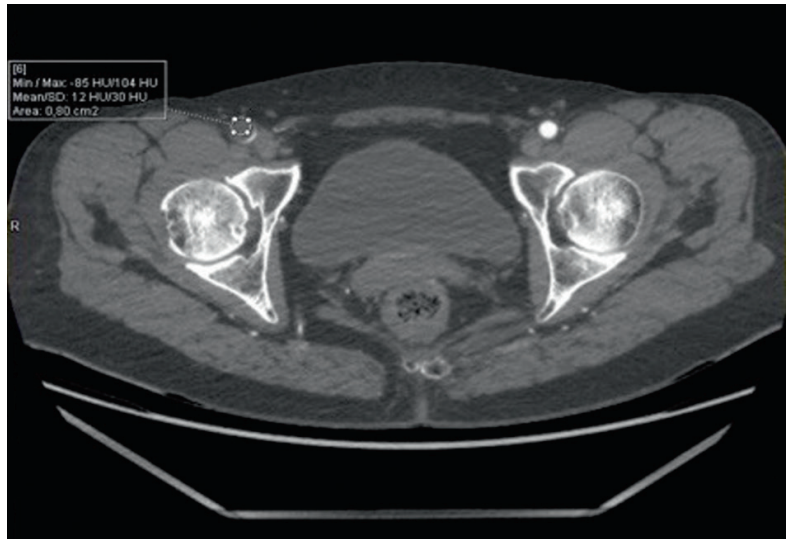
Haigust kirjeldasid esimest korda Atkins ja Key 1947. aastal oma artiklis „A case of myxomatous tumour arising in the adventitia of the left external iliac artery”. Sellest ajast alates on adventiitsia tsüstilise haiguse kohta avaldatud üle viiesaja artikli, kus on kirjeldatud kokku vaid veidi üle seitsmesaja patsiendi haigusjuhu. ATH esineb kõige sagedamini ühe veresoone lühikesel, kuni 10 cm pikkusel segmendil ühepoolsest. Sage-damini on haaratud põlveõndlaarter (80%-l kõigist juhtudest), harvemini ühisreiarter

(3,8%-l) ja radiaalarter (2,5%-l juhtudest). On kirjeldatud ka nii süva- kui ka pindmiste veenide haaratust (2, 3).

Adventiitsia tsüstilise haiguse etioloogia ei ole seni teada. Esimesena kirjeldati müksomatoosse süsteemse degeneratiivse protsessi teooriat, kuid see ei leidnud tunnustust, sest veresoone haaratus on lokaalne ja süsteemsele haigusele viitavaid tunnuseid ei esine. Teise teooria kohaselt võib korduv mikrotrauma põhjustada veresoone adventiitsia kahjustust ning tsüsti formeerumist. Arenguteooria järgi võib areneda veresoone adventiitsia sisaldada mittediferentseerunud mesenhümaalseid lima produtseerivaid rakke, mis moodustavad hiljem tsüsti. Kõige põhjendatumaks peetakse ganglioniteooriat, mille kohaselt pärinevad adventiitsia tsüstid veresoone naabruses oleva liigese kapsli sünoviaalsstruktuuridest, mis migreeruvad veresoonte seina. Viimast teooriat toetavad operatsiooni ajal leitud ühendused liigese ja kahjustatud veresoone adventiitsia vahel (3).

Haiguse peamiseks sümptomiks on järsku tekkinud ja kiiresti süvenev klaudikatsioon (ld *claudicatio intermittens*). Sealjuures on võimalik, et rahulolekus on arterite pulsud normaalselt palpeeritavad ja hüppeliigese-õlavarre vererõhu indeks (ABI ehk *ankle-brachial index*) on normaalväärtuses, kuid need näitajad muutuvad füüsilisel koormusel (4). Veresoone seina tsüstid paiknevad liigeste läheduses ja seetõttu on liigese painutusasendis surve veresoonele suurem ja soone valendik aheneb veelgi. Kuna sümptomid tekivad seoses füüsilise koormusega, tõlgendatakse neid sageli muskuloskeletaalse valuna. Sümptomite raskusaste võib ajas varieeruda, sest tsüstis olev lima kogus võib väheneda või suurendada (5). Erinevalt klassikalisest klaudikatsioonist mööduvad sümptomid aeglasemalt, umbes 20 minuti jooksul rahuolekus koormuse järel (4) Adventiitsia tsüst võib olla ka palpeeritav põlveõndlas ning seda võidakse tõlgendada kui popliteaalsüsti või kasvajat (5).

Digitaalsubstraktsioon-angiograafia (DSA) on varem olnud adventiitsia tsüstilise haiguse diagnoosimisel ja kirurgilise ravi planeerimisel esmaavalikuks. Viimasel ajal on selle rolli üle võtnud magnetresonants-tomograafia-angiograafia, sest DSA leid jääb tihti mittespetsiifiliseks. Adventiitsia tsüstilise haiguse puhul on DSA sagedasim



Pilt 4. Kompuutertomograafiline uuring arteriaalses faasis aksiaaltasapinnas. Paremalt ahendab ühisreiearterit lisastruktuur, mille keskmine tihedus on mutsiinile sobivalt 12 HU.

leid valendikuvälisele kompressioonile viitav veresoone valendiku liivakellakujuline ahenemine (2, 5).

Kõige tundlikumaks ATH uurimismeetodiks peetakse magnetresonants-tomograafiat (MRT), kuna see võimaldab paremini eristada pehmeid kudesid ning leida ühendust liigesega. MRT klassikaliseks leiuks on piki arteri kulgu asetsev intramurraalset päritolu tsüstiline moodustis, mis sõltuvalt lima koostisest on erineva T1- ja hüperintensiivse T2-signaaliga (2). Arteri seinasisene protsess põhjustab valendiku poolkuukujulist ahenemist (2). Adventiitsia tsüstilist haigust põlveõndlas võivad simuleerida mitmed erinevad seisundid, mida saab eristada MRT-uuringu abil. Tsüsti täpne lokaliseerimine viitab selle päritolule: Bakeri tsüst on ühenduses liigesega ja asetseb *m. gastrocnemius*'e mediaalse pea ja *m. semimebranosus*'e kinnituskoha vahel, ganglionitsüstid paiknevad tavaliselt piki kõõlusetuppi ja proksimaalse tibiofibulaarliigese läheduses, parameniskiaalsed tsüstid aga on seotud meniskite rebenditega (5).

Ultraheli abil võib visualiseerida veresoont ümbritsevaid anehhogeense või hüpoehhogeense sisuga tsüstjaid struktuure ning nendest dorsaalsemal akustilist võimendust, mis viitab vedeliku sisaldusele. Samuti võib hinnata veresoone haaratuse ulatust. UH-uuringul võivad tsüstid simuleerida tromboseerunud arteri aneurüsmi, kuid üldjuhul on nad siiski multilobulaarsed (5).

Kompuutertomograafilisel uuringul näevad tsüstid välja kui madala (vedeliku) tihedusega hüpodenssed lisastruktuurid, mis astesevad piki veresoone kulgu. Tsüstide seinad võivad kontrasteeruda (5). Kuna adventiitsia tsüstilise haiguse puhul tulevad diferentsiaaldiagnostiliselt eelkõige kõne alla veresoone trombid ja ateroskleroosilised naastud, on abiks, kui mõõta nende struktuuride tihedust, mis trombidel ja naastudel on limatsüstide tihedusest suurem.

Kuigi haiguse kulgu on vähe uuritud, võib haigus erinevate andmete alusel ravi järel retsiveeruda elu jooksul kuni 9%-l patsientidest. Arvatakse, et retsiveerumise peamiseks põhjuseks on vale ravitaktika valik (3). Ravi esmasvalikuks peetakse kahjustatud arteri segmendi eemaldamist ja asendamist kas auto-, allo- või sünteetilise proteesiga, eriti just veresoone totaalse sulguse korral. Selle meetodi puhul on kõige väiksem retsiveerumise risk: alla 7% (3). Perkutaanse transluminaalse angioplastika ja tsüsti aspiratsiooni järel on retsiveerumise protsent tunduvalt suurem (6). Soovitatakse sihipäraselt otsida operatsiooni ajal ühendusstruktuure liigese ja tsüsti vahel ning need ligeerida (3).

KOKKUVÕTE

Adventiitsia tsüstiline haigus on harva esinev seisund, mille puhul moodustuvad arteri või veeni seinas limatsüstid, mis võivad põhjustada veresoone valendiku ahenemist. Haigestuvad kõige sagedamini keskealised ilma ateroskleroosi riskiteguriteta inimesed. Sellel patsiendirühmal on klaudikatsiooni esinemisel näidustatud piltdiagnostiline uurimine, isegi juhul kui rahuolekus perifeersete pulsside nõrgenemist või kadumist ei esine. Piltdiagnostika esmaseks valikuks peetakse magnetresonantstomograafiat, tundlikud meetodid on ka ultraheliuuring ja kompuutertomograafia. Adventiitsia sümptomaatilise tsüstilise haigusega patsiendi

ravi on operatiivne ning see erineb arterite oblitereeruvast ateroskleroosist põhjustatud klaudikatsiooni ravist, mistõttu on oluline kiiresti püstitada õige diagnoos.

SUMMARY

Cystic adventitial disease

Anastassia Naidenkova^{1,2}, Gert Vanakesa³, Priit Pöder³

Cystic adventitial disease is a rare condition in which a cyst is formed in the wall of an artery and a vein, which can cause narrowing of the vessel. Middle-aged people without risk factors for atherosclerosis are most likely to be affected by the disease. For this group of patients, in the presence of intermittent claudication, radiographic imaging is indicated even if they have palpable pulses in the resting state. The first choice in radiographic imaging should be magnetic resonance imaging; also ultrasound imaging and computed tomography scan are considered feasible. The treatment of a patient with symptomatic cystic adventitial disease is surgical, which is different from the treatment of patients with arterial claudication caused by atherosclerotic disease.

KIRJANDUS / REFERENCES

1. Shamma NW. Epidemiology, classification, and modifiable risk factors of peripheral arterial disease. *Vasc Health Risk Manag* 2007;3:229–34.
2. Peterson JJ, Kransdorf MJ, Bancroft LW, Murphey MD. Imaging characteristics of cystic adventitial disease of the peripheral arteries: presentation as soft-tissue masses. *Am J Roentgenol* 2003;180:621–5.
3. Desy NM, Spinner RJ. The etiology and management of cystic adventitial disease. *J Vasc Surg* 2014;60:235–45.
4. Cassar K, Engeset J. Cystic adventitial disease: a trap for the unwary. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2005;29:93–6.
5. França M, Pinto J, Machado R, Fernandez GC. Bilateral adventitial cystic disease of the popliteal artery. *Radiology* 2010;255:655–60.
6. van Rutte PWJ, Rouwet EV, Belgers EHJ, et al. In treatment of popliteal artery cystic adventitial disease, primary bypass graft not always first choice: two case reports and a review of the literature. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2011;42:347–54.

¹ resident, Department of Radiology, Faculty of Medicine, University of Tartu, Estonia,

² Department of Radiology, North Estonia Medical Centre, Tallinn, Estonia,

³ Vascular Surgery Unit, North Estonia Medical Centre, Tallinn, Estonia

Correspondence to:

Gert Vanakesa
gert.vanakesa@
regionaalhaigla.ee

Keywords:

cystic adventitial disease,
arterial claudication, lower
extremity pain