

A case of spontaneous arteriovenous fistula — clinical, plethysmographic, and radiological findings

Przypadek samoistnej przetoki tętniczo-żylniej — obraz kliniczny, wyniki badań pletyzmograficznych i radiologicznych

Rafał Małecki¹, Andrzej Dołyk¹, Jerzy Garcarek², Piotr Barć³, Rajmund Adamiec¹

¹Department of Angiology, Arterial Hypertension, and Diabetology, Wrocław Medical University, Wrocław, Poland (Katedra i Klinika Angiologii, Nadciśnienia Tętniczego i Diabetologii Akademii Medycznej we Wrocławiu)

²Department of Radiology, Wrocław Medical University, Wrocław, Poland (Katedra Radiologii Akademii Medycznej we Wrocławiu)

³Department of Vascular, General, and Transplantological Surgery, Wrocław Medical University, Wrocław, Poland (Katedra i Klinika Chirurgii Naczyniowej, Ogólnej i Transplantacyjnej Akademii Medycznej we Wrocławiu)

Abstract

Arteriovenous fistulas (AVF) in the lower limbs are rare disease entities usually caused by penetrating injuries, sporadically developing spontaneously. We present the case of a 74-year-old man suffering from a peripheral arterial disease, in whom a fistula between the popliteal vein and the deep femoral artery branches was disclosed during angiography. The patient denied any trauma in the past. Neither percutaneous transluminal angioplasty nor surgical treatment caused improvement in the perfusion of the limb, and femoral amputation was performed. We discuss in detail the results of accessory investigations—ultrasonography, plethysmography, and angiography.

Key words: arteriovenous fistula, peripheral arterial disease, plethysmography, ultrasonography

Streszczenie

Przetoki tętniczo-żylnie (AVF) w obrębie kończyn dolnych są rzadko występującymi chorobami, zwykle spowodowanymi urazami penetrującymi. Sporadycznie pojawiają się przypadki zmian samoistnych. W pracy przedstawiono przypadek 74-letniego pacjenta z rozpoznaniem choroby tętnic obwodowych, u którego w badaniu angiograficznym uwidoczono przetokę łączącą żyłę podkolanową i gałęzie tętnicy udowej głębokiej. Chory zaprzeczał występowaniu w przeszłości urazu kończyny. Ponieważ podjęte leczenie — przezskórna angioplastyka i zabieg operacyjny — nie doprowadziły do poprawy ukrwienia kończyny, przeprowadzono amputację udową. W pracy przedstawiono wyniki badań obrazowych — ultrasonograficznych, pletyzmograficznych i angiograficznych.

Słowa kluczowe: przetoka tętniczo-żylna, choroba tętnic obwodowych, pletyzmografia, ultrasonografia

Acta Angiol 2010; 16, 1: 30–36

Address for correspondence:

Rafał Małecki
Katedra i Klinika Angiologii, Nadciśnienia Tętniczego i Diabetologii
ul. Borowska 213, 50–556 Wrocław
tel: +48 (71) 733 22 00, fax: +48 (71) 733 22 09
e-mail: r.malecki@op.pl

Introduction

Arteriovenous fistulas (AVF) in the lower limbs are rare disease entities usually caused by penetrating injuries, sporadically developing spontaneously. Its consequences depend on the size of the connection between the venous and arterial systems, and coexisting cardiovascular disorders. We present the case of a patient suffering from a peripheral arterial disease, in whom a fistula between the popliteal vein and the superficial femoral artery branches was disclosed during angiography.

Case report

The 74-year-old male patient was admitted to the Department of Angiology because of rest pain of the left lower foot, which had occurred 7 days earlier. In his medical history, he reported intermittent claudication with walking distance of about 100 m for 9 months. One year ago diabetes mellitus type 2 was diagnosed, and the patient was treated with oral hypoglycaemic agents (gliclazide and metformin). He denied any trauma of the lower leg, particularly the popliteal area, in the past.

On admission, the examination revealed oedema of the ankle area of the left foot and a dilatation of the left saphenous vein (taking straight course, Figure 1); popliteal and foot pulses were impalpable on both sides. Using the Doppler technique, blood pressure at the ankle level on the left side was 40 mm Hg, with abnormal monophasic and low-resistant spectrum. A clinical picture and results of accessory examinations enabled diagnosis of critical limb ischaemia of the lower left extremity.

On duplex Doppler ultrasonography, critical stenosis of the left superficial femoral artery and the presence of a fistula in the popliteal region were disclosed (Figure 2). The flow in the popliteal vein had arterial features and was low-resistant (Figure 3), while in the saphenous vein it was turbulent and continuous (Figure 4). The exact localization of the fistula origin was not visualized. On impedance plethysmography of the left calf, flattening of the waveform and the presence of an abnormally prominent dicrotic notch were found (Figure 5). On angiography, critical stenosis of the left superficial femoral artery was disclosed.

Using a catheter (diameter 7 mm, length 8 cm), percutaneous transluminal angioplasty was performed with 50% residual stenosis. A fistula connecting the popliteal vein and small branches of the deep femoral artery was revealed on selective angiography (Figure 6). During an attempt to catheterize one of the main of these vessels,

Wstęp

Przetoki tętniczo-żylne (AVF) w obrębie kończyn dolnych są rzadko występującymi chorobami, zwykle spowodowanymi urazami penetrującymi. Sporadycznie stwierdza się przypadki zmian samoistnych. Następstwa AVF zależą od wielkości połączenia pomiędzy układem żylnym i tętniczym oraz od współistniejących chorób układu sercowo-naczyniowego. W pracy przedstawiono przypadek pacjenta leczonego z powodu choroby tętnic obwodowych, u którego w badaniu angiograficznym uwidoczono przetokę łączącą żyłę podkolanową z odgałęzieniami tętnicy udowej głębokiej.

Opis przypadku

Pacjenta w wieku 74 lat przyjęto do Kliniki Angiologii z powodu bólu spoczynkowego lewej kończyny dolnej, który pojawił się przed 7 dniami. W wy-



Figure 1. Ischaemia of the left foot and filled, dilated, relatively straight saphenous vein

Rycina 1. Niedokrwienie lewej stopy. Żyła odpiszczelowa poszerzona, wypełniona, o względnie prostym przebiegu



Figure 2. Fistula reaching the popliteal vein. Using ultrasonography, a visualization of the fistula origin proved impossible

Rycina 2. Przetoka łącząca się z żyłą podkolanową. W badaniu ultrasonograficznym nie udało się uwidocznnić miejsca odejścia przetoki

extravasation of the contrast medium occurred and embolisation proved to be impossible (Figure 7).

Because of severe pain complaints and progression of necrotic lesions, the patient was treated surgically. A transverse incision in the popliteal fossa was performed and the popliteal artery and vein as well as a few

wiadzie stwierdzono dolegliwości o charakterze chromania przestankowego na dystansie około 100 m, które występowały od 9 miesięcy. U chorego przed rokiem rozpoznano cukrzycę typu 2, stosował on doustne leki przeciwcukrzycowe (gliklazydy i metformina). Pacjent zaprzeczał wystąpieniu w przeszłości urazu kończyny dolnej, zwłaszcza okolicy podkolanowej.

W badaniu fizykalnym przeprowadzonym podczas przyjęcia pacjenta do szpitala stwierdzono obrzęk lewej stopy w okolicy kostki, poszerzenie lewej żyły odpiszczelowej (o prostym przebiegu) (ryc. 1), tętno było niewyczuwalne nad tętnicą podkolanową i na obwodzie obu kończyn dolnych. W badaniu dopplerowskim ciśnienie na wysokości kostki wynosiło 40 mm Hg, z jednofazowym i niskooporowym spektrum przepływu. Na podstawie obrazu klinicznego i wyników badań rozpoznano krytyczne niedokrwienie lewej kończyny dolnej.

W podwójnym dopplerowskim badaniu ultrasonograficznym uwidoczniiono krytyczne zwężenie lewej tętnicy udowej powierzchownej oraz obecność przetoki w okolicy dołu podkolanowego (ryc. 2). Przepływ w obrębie żyły podkolanowej wykazywał cechy niskooporowego spektrum tętniczego (ryc. 3), a w obrębie żyły odpiszczelowej stwierdzono przepływ turbuletny i ciągły (ryc. 4). Nie udało się uwidocznnić miejsca odejścia przetoki. W badaniu pletyzmograficznym lewego podudzia stwierdzono spłaszczenie krzywej oraz obecność nieprawidłowo wysokiego załamka dykrotycznego (ryc. 5).

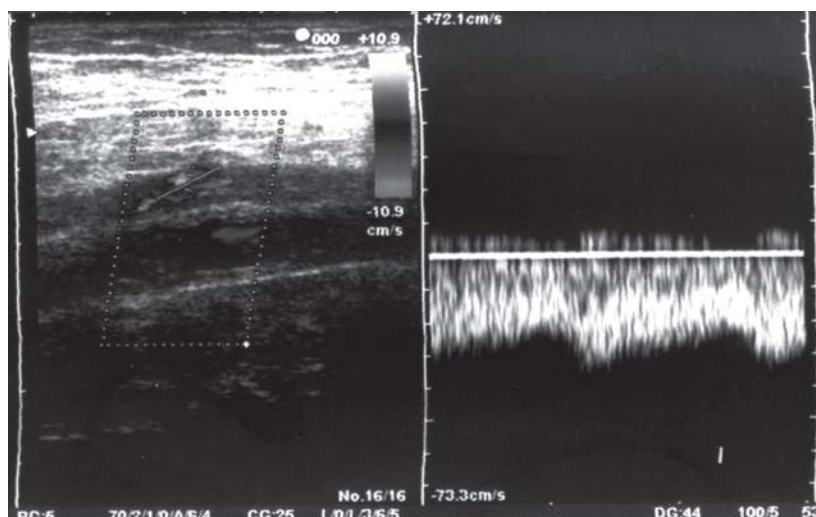


Figure 3. Duplex ultrasonography of the popliteal vein. Arterialized, low-resistant waveforms

Rycina 3. Podwójne ultrasonograficzne badanie dopplerowskie żyły podkolanowej. Przepływ o charakterze tętniczym z niskooporowym spektrum

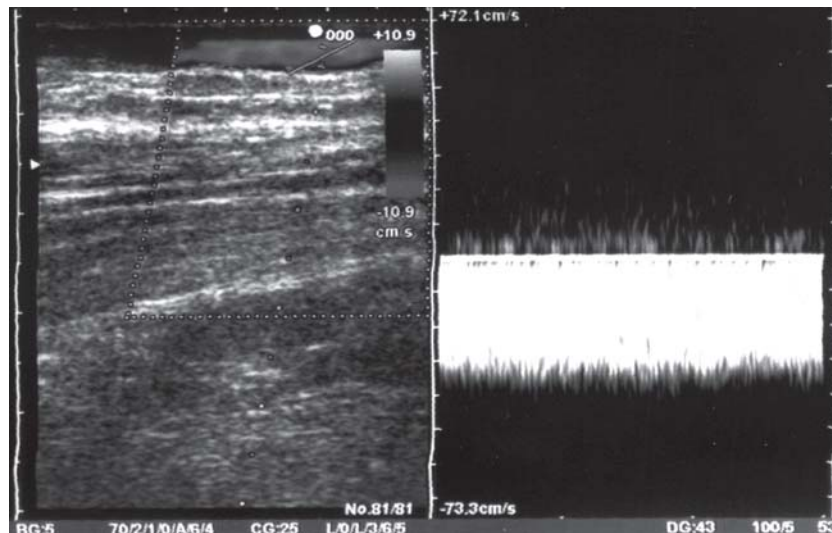


Figure 4. Duplex ultrasonography of the saphenous vein. A continuous and turbulent flow

Rycina 4. Podwójne ultrasonograficzne badanie dopplerowskie żyły odpiszczelowej. Przepływ ciągły i turbulentny

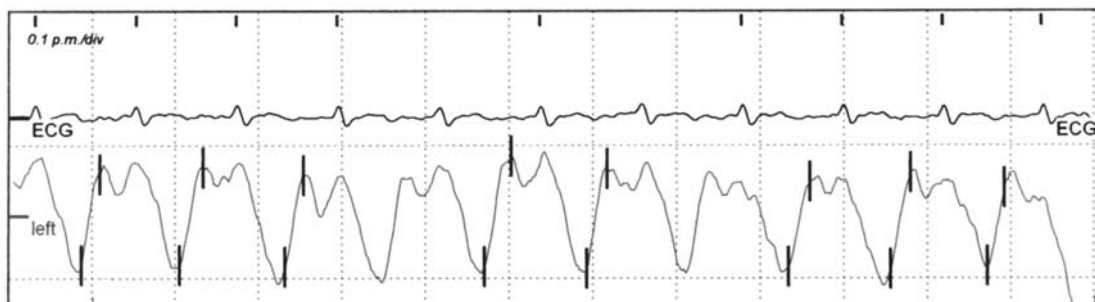


Figure 5. Impedance plethysmography of the left calf—flattening of the waveform and the presence of abnormally prominent dicrotic notch [impedance ratio 0.07 p.m. (normal range > 0.7), slope ratio 0.7 (normal range > 9 p/m/s), crest width 1244 ms (normal range < 80 ms)]

Rycina 5. Pletyzmografia impedancyjna lewego podudzia — spłaszczenie fali i obecność nieprawidłowo wysokiego załamka dykrotycznego [wskaźnik impedancji 0,07 p.m. (norma > 0,7), wskaźnik nachylenia krzywej 0,7 p/m/s (norma > 9), czas do osiągnięcia szczytu krzywej 1244 ms (norma < 80)]

fistulas were visualized. The fistulas were ligated and cut. The popliteal artery above the collateral vessels was opened; however, endarterectomy was not performed because of the presence of the occlusion and fibrous lesions in the lumen of the artery. After surgery a progression of ischaemic lesions occurred and femoral amputation was performed.

Discussion

Spontaneous AVFs of the lower limbs are very rare. More often they develop in the large vessel in the abdominal cavity, usually as a complication of a ruptured aortic aneurysm [1]. Penetrating injuries, e.g. stab wounds or low-velocity bullet wounds, are responsible for most of cases of AVF. Based on experience gained in the Lebanese War, the estimated incidence of AVF after

W badaniu angiograficznym uwidoczniono krytyczne zwężenie lewej tętnicy udowej powierzchownej. Za pomocą cewnika (o średnicy 7 mm, długości 8 cm) przeprowadzono zabieg przezskórnej angioplastyki, ze zwężeniem resztkowym wynoszącym 50%. W angiografii wybiórczej tętnicy udowej głębokiej uwidoczniono przetokę łączącą jej drobne gałązki z żyłą podkolanową (ryc. 6). Przy próbie kaniulacji głównego z tych naczyń doszło do wynaczynienia środka cieniującego, dlatego odstąpiono od próby embolizacji (ryc. 7).

Ze względu na nasilone dolegliwości bólowe oraz progresję zmian martwiczych podjęto leczenie chirurgiczne. Wykonano cięcie poprzeczne w okolicy dołu podkolanowego, uwidoczniono tętnicę i żyłę podkolanową oraz kilka przetok. Przetoki podwiązano i przecięto. Otwarto tętnicę podkolanową powyżej uchodzą-

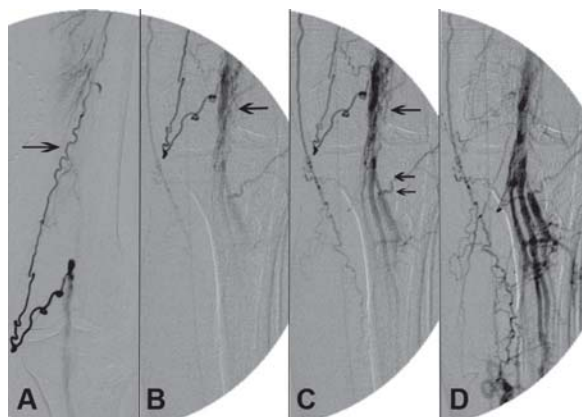


Figure 6. Selective angiography of the branch of the left deep femoral artery. **A.** A small branch (arrowhead) connecting the deep femoral artery and the popliteal vein. **B–C.** The contrast medium fills the popliteal and calf veins (arrowheads). **D.** Through the incompetent perforating vein localized in the calf, the contrast goes into the saphenous vein system reciprocally

Rycina 6. Wybiórcza angiografia gałęzi odchodzącej od lewej tętnicy udowej głębokiej. **A.** Drobne naczynie (strzałka) łączy gałęzię tętnicy udowej głębokiej z żyłą podkolanową. **B–C.** Napływ kontrastu do żyły podkolanowej i żył podudzia (strzałki). **D.** Poprzez niewydolny perforator podudzia kontrast przedostaje się wstecznie do układu żyły odpiszczelowej

popliteal artery injury is 2% [2]. Iatrogenic factors (vein harvesting for CABG, percutaneous transluminal angioplasty [3, 4], popliteal thromboembolotomy [5], bone graft insertion for an ununited tibial fracture [6], arthroscopic meniscectomy [7], surgery, and biopsy) remain other important cases of AVF.

Few reports regarding spontaneous AVF of the lower extremities have been published so far. In the case series by Straton et al. [8], AVF originating from the deep femoral artery was described; however, the patient had undergone femoropopliteal bypass grafting a few years before. The cause of the formation of spontaneous AVF remains unexplained. Willaert et al. [9] suggested that because of knee movement or local trauma, hard atherosclerotic plaque in the tortuous artery in the popliteal area may perforate the adventitia and subsequently the wall of the adjacent vein, creating the AVF.

AVF can lead to many complications, such as “steal syndrome” (a progression of ischaemia in patients with peripheral arterial disease), venous hypertension resulting in chronic venous insufficiency [10], aneurysm formation, right ventricle overload (even with subsequent “bursting heart syndrome”) [11], and endocarditis. Signs observed in 31 cases of post-traumatic fistulas of the popliteal artery comprised thrill (74%) and the presence a pulsating mass (32%) [2].

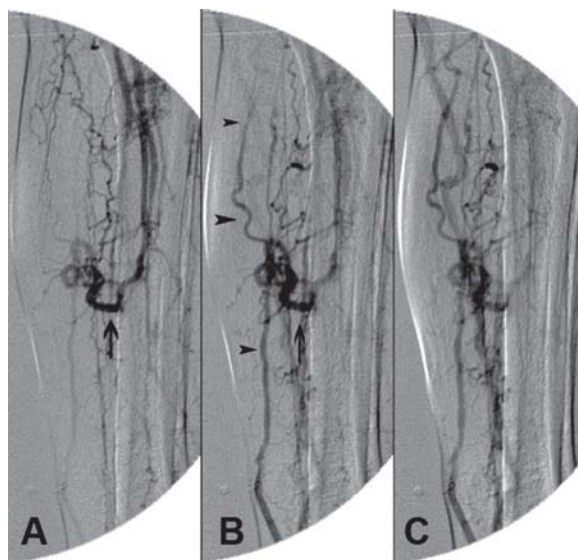


Figure 7. A–C. Through the incompetent Sherman's perforator (arrowhead), the contrast medium runs into the saphenous vein system (triangular arrows)

Rycina 7. A–C. Poprzez niewydolny perforator Shermana (strzałka) kontrast przedostaje się do układu żyły odpiszczelowej (strzałki trójkątne)

cych do niej naczyń krążenia obocznego, jednak ze względu na niedrożność i obecność zmian włóknistych w jej świetle odstąpiono od próby endarterektomii. Po zabiegu obserwowano progresję zmian martwiczych, dlatego podjęto decyzję o amputacji udowej.

Omówienie

Samoistne AVF w obrębie kończyn dolnych występują bardzo rzadko. Znacznie częściej schorzenie dotyczy dużych naczyń jamy brzusznej, zwykle jako powikłanie pęknięcia tętniaka aorty brzusznej [1]. Urazy penetrujące, na przykład klute lub skutek pocisków o niskiej prędkości, są odpowiedzialne za większość przypadków AVF. Na podstawie doświadczeń z wojny libańskiej szacuje się, że do rozwoju AVF dochodzi w 2% urazów tętnicy podkolanowej [2]. Czynniki iatrogenne (pobieranie żyły do pomostowania aortalno-więńcowego, angioplastyka przeszćorna [3, 4], tromboembolektomia tętnicy podkolanowej [5], przeszczep kostny w przypadku niezrośniętego złamania kości piszczelowej [6], meniscektomia artroskopowa [7], zabieg operacyjny i biopsja) stanowią kolejne istotne przyczyny powstawania AVF.

Dotychczas opublikowano niewiele doniesień dotyczących samoistnych AVF w obrębie kończyn dolnych. W serii przypadków Stratona i wsp. [8] przedstawiono wprawdzie przypadek przetoki odchodzącej od tętnicy udowej głębokiej, jednak u opisywane-

The results of imaging examinations are conclusive in diagnosis: duplex Doppler sonography and particularly angiography. The ultrasonography criteria suggested by Li et al. [12] include:

- junction of low- and high-resistance flows in the supplying artery;
- high-velocity arterialized waveforms from the draining veins;
- a turbulent, high-velocity flow spectrum at the junction of the artery and the vein.

We also observed a continuous (“machine”) flow in the corresponding superficial vein, not listed in diagnostic criteria. In our case, the results of impedance plethysmography seem especially intriguing and compromise widened and abnormal waveform (as the result of atherosclerosis) with a prominent dicrotic notch (probably because of abnormally rapid blood outflow to the low-resistant venous system).

The principal method of treatment has included vascular surgery; however, visualization of AVF sometimes faces difficulties. The placement of an angiographic catheter across the fistula immediately before surgery can then be helpful [13]. Experience in transcatheter methods, i.e. implantation of stent, stent-graft [14], and obliteration, is still growing. Spontaneous closure of AVF occurs sporadically, as described concerning a complication of transcatheter angioplasty [4]. In our case, the presence of multiple lesions and their diameters precluded obliteration, and surgical ligation did not improve perfusion of the limb.

References

1. Gilling-Smith GL, Mansfield AO (1991) Spontaneous abdominal arteriovenous fistulae: report of eight cases and review of the literature. *Br J Surg*, 78: 421–425.
2. Sfeir RE, Khoury GS, Haddad FF, Fakhri RR, Khalifeh MJ (1992) Injury to the popliteal vessels: the Lebanese war experience. *World J Surg*, 16: 1156–1159.
3. Perings SM, Kelm M, Jax T, Strauer BE (2003) A prospective study on incidence and risk factors of arteriovenous fistulae following transfemoral cardiac catheterization. *Int J Cardiol*, 88: 223–228.
4. Malcolm PN, King DH, Crabbe RW, Taylor PR, Reidy JF (1997) Arteriovenous fistula at the site of balloon dilatation complicating femoropopliteal angioplasty. *Cardiovasc Intervent Radiol*, 20: 54–56.
5. Davidson JT. Peroneal arteriovenous fistula (1989) A complication of Fogarty catheter thromboembolectomy. *Am Surg*, 55: 616–620.
6. Ward AS, Carty NJ, O'Rourke NA (1995) Arteriovenous fistulae complicating orthopaedic procedures. *Aust NZ J Surg*, 65: 905–907.
7. Vassallo P, Reiser MF, Strobel M, Peters PE (1989) Popliteal pseudoaneurysm and arteriovenous shunt following arthroscopic meniscectomy: case report. *Cardiovasc Intervent*

go pacjenta kilka lat wcześniej wykonano zabieg postawienia udowo-podkolanowego. Dotąd nie wyjaśniono przyczyny rozwoju samoistnych AVF. Willaert i wsp. [9] sugerują, że wskutek ruchów w stawie kolanowym lub miejscowego urazu twarda blaszka miążdżycowa umiejscowiona w tętnicy podkolanowej o krętym przebiegu może przebić przydanekę, a następnie ścianę sąsiadującej żyły, prowadząc do wytworzenia AVF.

Obecność AVF może wiązać się z wieloma powikłaniami, takimi jak „zespół podkradania” (progresja niedokrwienia kończyny w przypadku choroby tętnic obwodowych), nadciśnienie żyłne prowadzące rozwoju przewlekłej niewydolności żyłnej [10], powstawanie tętniaków, przeciążenie prawej komory serca (prowadzące nawet do tzw. *bursting heart syndrome*) [11] czy zapalenie wsierdzia. Objawy przedmiotowe, zaobserwowane w 31 przypadkach AVF tętnicy podkolanowej, obejmowały mruk naczyniowy (74%) i obecność pulsującego oporu (32%) [2].

O rozpoznaniu AVF decydują wyniki badań obrazowych — podwójnej ultrasonografii dopplerowskiej i przede wszystkim angiografii. Kryteria ultrasonograficzne proponowane przez Li i wsp. [12] obejmują:

- współwystępowanie cech przepływu nisko- i wysokooporowego w obrębie tętnicy zaopatrującej przetokę;
- spektrum o dużej prędkości, z cechami przepływu tętniczego w obrębie żyły, z którą przetoka się łączy;
- występowanie turbulentnego przepływu o wysokich prędkościach w obrębie połączenia.

W opisywanym przypadku obserwowano również obecność ciągłego („maszynowego”) przepływu w obrębie żyły powierzchownej (cechy niewymienionej w cytowanych kryteriach). Szczególnie interesujące wydają się wyniki badania pletyzmografii impedancyjnej, w której poza poszerzeniem i nieprawidłowościami fali (na skutek miążdżycy) stwierdzono występowanie nadmiernie wysokiego załamka dykrotycznego (prawdopodobnie konsekwencja patologicznie szybkiego odpływu krwi do niskooporowego układu żylnego).

Podstawową metodą leczenia AVF pozostaje zabieg operacyjny, chociaż uwidocznienie przetoki może niekiedy nastręczać trudności. W takich przypadkach użyteczne może okazać się przeprowadzenie zabiegu po uprzednim umieszczeniu podczas badania angiograficznego cewnika w świetle przetoki [13]. Coraz więcej doświadczeń dotyczy metod przezskórnych, takich jak implantacja stentu, stentgraftu [14] czy obliteracja. Samoistne zamknięcie przetoki występuje sporadycznie, a przypadek taki dotyczył powikłania zabiegu przezskór-

- Radiol, 12: 142–144.
8. Straton CS, Tisnado J (2000) Spontaneous arteriovenous fistulas of the lower extremities: angiographic demonstration in five patients with peripheral vascular disease. *Cardiovasc Intervent Radiol*, 23: 318–321.
 9. Willaert WI, Scheltinga MR (2007) A case of a spontaneous popliteal arteriovenous fistula. *Acta Chir Belg*, 107: 208–210.
 10. Psaila JV, Cradwick JC, Auckland K, Charlesworth D (1989) Venous insufficiency in a young man secondary to a traumatic arteriovenous fistula. *Ann Vasc Surg*, 3: 63–67.
 11. Duxbury MS, Wells IP, Roobottom C, Marshall A, Lambert AW (2002) Endovascular repair of spontaneous non-aneurysmal aortocaval fistula. *Eur J Vasc Endovasc Surg*, 24: 276–278.
 12. Li JC, Cai S, Jiang YX, Dai Q, Zhang JX, Wang YQ (2002) nej angioplastyki [4]. W prezentowanym przypadku obecność licznych zmian uniemożliwiła obliterację, a zabieg podwiązania chirurgicznego nie spowodował poprawy ukrwienia kończyny.
-
- Diagnostic criteria for locating acquired arteriovenous fistulas with color Doppler sonography. *J Clin Ultrasound*, 30: 336–342.
13. Joseph S, Unni NM, Neelakandhan KS, Ravimandalam K (1993) Role of angiographic catheters in surgery of popliteal arteriovenous fistulas. *Cardiovasc Surg*, 1: 729–730
 14. Piffaretti G, Tozzi M, Lomazzi C et al (2007) Stent-graft repair of peroneal arteriovenous fistula. *Cardiovasc Intervent Radiol*, 30: 133–135.